

Å spre forskningskunnskap til de som trenger den - sammen med de som trenger den

Et pilotprosjekt for å prøve ut alternative metoder for forskningsformidling i samarbeid med brukerne.



Ved: Gry Velvin, Trine Bathen, Thale Hartman, Ellen Berg Svendby, Amy Østertun Geirdal, Arild Jensen, Atle Johannessen, Marit Vågsnes, Simen Grøneng Johansen

Innhold

Forord	3
Sammendrag	4
Kapittel 1. Bakgrunn	6
1.1 Bakgrunn for prosjektet og hva som er gjort på området tidligere	6
1.2 Tema: Brukermedvirkning i forskningsformidling	6
1.3 Finansiering og gjennomføring av prosjektarbeidet	6
Kapittel 2. Redegjørelse for hovedmålsettingen og delmålene i prosjektet	7
2.1 Hypotese	7
2.2 Målsettinger med prosjektet	7
2.3 Målgruppe	8
Kapittel 3. Prosjektgjennomføring og metode	8
3.1 Praktisk gjennomføring av prosjektet	8
Kapittel 4. Resultater for de ulike målområdene og evalueringens nytteverdi	10
4.1 Målsetting 1: Systematisk oversikt over relevant litteratur om brukermedvirkning i kunnskapsformidling av forskning om sjeldne diagnoser	10
4.2 Målsetting 2: Spørreundersøkelse til ansatte og forskere på de 9 sjeldensentrene i Norge om brukermedvirkning og bruk av formidlingskanaler i forskning	11
4.3 Delmål 3: Utvikle og evaluere minst tre alternative formidlings- og kommunikasjonsprodukter (hva, fra hvem og hvordan skal kunnskapen formidles)	13
4.3.1 Evaluering av nytteverdi med formidlingsproduktene	15
4.4 Delmål 4. Evaluering av erfaringer med brukermedvirkning i forskningsformidling.	15
4.5 Delmål 5. Spre kunnskap om Marfans syndrom og bidra til tjenesteoppfølging for personer med Marfans syndrom	18
Kapittel 5. Endringer i prosjektet grunnet koronasituasjonen	20
5.1 Hva har vi ikke fått gjennomført som planlagt?	20
5.2 Ubrukte midler	20
Kapittel 6 Oppsummering, konklusjon og videre planer	20
Referanser	22
Vedlegg 1	25

Forord

TRS kompetansesenter for sjeldne diagnoser gjennomførte (TRS) i 2011 til 2016 et omfattende forskningsprosjekt om psykososiale aspekter, smerter og fatigue ved Marfans syndrom, i samarbeid med Norsk forening for Marfans syndrom (Marfanforeningen). Prosjektet resulterte i fem vitenskapelige artikler, tre fagartikler, en mastergrad og en doktorgrad, samt en rekke presentasjoner på internasjonale og nasjonale konferanser.

Til tross for omfattende publisering erfarte vi at det var vanskelig å nå ut med forskningsresultater til dem som hadde behov for kunnskapen. I 2018 tok derfor TRS, i samarbeid med Marfanforeningen, initiativ til et prosjekt hvor fire representanter fra Marfanforeningen ble ansatt som prosjektmedarbeidere.

I samarbeid med forskere og fagpersoner var målsettingen

- at brukerne skulle være med å bidra til å gjøre forskningsresultatene mer relevante og nyttige for dem som trenger kunnskapen, ved bruk av alternative kommunikasjonskanaler
- å bidra til mer kunnskap om nytteverdi og utfordringer ved brukermedvirkning i forskningsformidling

Fire brukerrepresentanter, eksterne fagpersoner fra Oslo universitetssykehus, OsloMet og, Arbeids- og velferdsdirektoratet har vært med, i tillegg til fagpersoner fra TRS. Prosjektet ble avsluttet 31.12.20.

Til tross for at prosjektet har blitt gjennomført i en periode med restriksjoner og nedstengning av samfunnet i forbindelse med korona-pandemien har vi likevel klart å gjennomføre de mål som var planlagt. Dette, takket være brukerrepresentanter fra Marfanforeningen og styret i Marfanforeningen, som har vært fleksible, inspirerende og svært gode samarbeidspartnere i hele prosjektperioden.

I denne anledning ønsker vi å takke brukerrepresentantene fra foreningen for svært nyttig og viktig samarbeid gjennom hele prosjektperioden. Dere har bidratt til å sette brukermedvirkning i forskningsformidling på dagsorden og til en praksis til etterlevelse. Spesiell takk til styret i Marfanforeningen som har bidratt til at dette prosjektet har vært mulig å gjennomføre.

Vi vil også takke professor Amy Østertun Geirdal ved OsloMet, Rigmor Lundby ved Oslo Universitetssykehus og Ruth Angeltveit i Arbeids- og velferdsdirektoratet for nyttige innspill underveis i prosessen. I tillegg vil vi gi en stor takk til ledelsen og fagpersoner på TRS Kompetansesenter som har bidratt både til å kvalitetssikre produktene og inspirere og motivere oss i dette arbeidet. Spesiell takk til kommunikasjonsteamet ved Camilla LaHart og Bendik Fjeldstad og takk til Nina Rise, Kerstin Lundberg Larsen og Trond Haagensen, Wenche Frosthammer Wilhelmsen, Ellen Berg, Jan Erik Wilhelmsen og Hege Ellefsen, samt regnskapsavdelingen ved Sunnaas sykehus, Alexander Feragen.

Med hilsen prosjektgruppen

- Fra TRS: Gry Velvin (prosjektleder), Trine Bathen (prosjektmedarbeider). Thale Hartmann (kommunikasjonsrådgiver)
- Fra Norsk forening for Marfans syndrom: Marit Vågsnes, Simen Grøneng Johansen, Arild Jensen og Atle Johannessen (prosjektmedarbeidere)

Sammendrag

Brukermedvirkning i forskning og formidling er i dag blitt en viktig forutsetning for å få midler, og forventes både av interesseorganisasjonene og myndigheter. Til tross for økende fokus på temaet finnes det svært lite kunnskap om hvilken nytteverdi og utfordringer brukermedvirkning i forskningsformidling gir.

Hovedmålsettingen med prosjektet var å generere mer kunnskap om hvordan brukermedvirkning i forskningsformidling erfares i praksisfeltet ved å prøve ut alternative kommunikasjonskanaler for forskningsformidling fra et allerede gjennomført forskningsprosjekt (Bathen 2014, Velvin 2015a,b, 2016 a, b, c).

Prosjektet hadde fire delmålsetninger:

1. Oppsummere kunnskap fra relevant litteratur om brukermedvirkning i forskningsformidling
Resultat: Vi har laget en kort rapport med oppsummering av relevant forskning, som vil bli brukt videre i arbeid med en vitenskapelig artikkel
2. Innhente informasjon om hvilke strategier og metoder forskere i sjeldenfeltet benytter ved forskningsformidling
Resultat: Vi har gjennomført en mixed-metode spørreundersøkelse til alle ansatte som jobber i sjeldenfeltet, med høy svarprosent. Tematisk analyse av materialet er blitt gjennomført og det jobbes med en vitenskapelig artikkel og en populærvitenskapelig artikkel

3. Finne frem til, utvikle og evaluere tre metoder for kunnskapsformidling

Resultat: Fire informasjonsprodukter er blitt utviklet, prøvd ut og evaluert:

- Et informasjonsskriv om Marfans syndrom og arbeidsliv
- Et informasjonsskriv om kroppsøving ved Marfans syndrom
- En informasjonsfilm om fysisk aktivitet, trening og kroppsøving for barn og unge med Marfans syndrom
- En podkast om utfordringer og muligheter ved fatigue i arbeidslivet.

Dette var informasjonsprodukter utledet fra forskningsresultatene forsøkt formidlet i en form som skulle være relevant, forståelig, lett tilgjengelig og nyttig for både fagfolk, brukerne selv og deres pårørende. En fagartikkel er påbegynt.

4. Vurdere fordeler og ulemper ved brukermedvirkning i forskningsformidling

Resultat: Vi har gjennomført undersøkelser og oppsummert erfaringer fra både brukerrepresentantene og prosjektmedarbeidere gjennom hele prosjektperioden med fokus på: hvordan arbeidet har foregått, hvilke erfaringer de har gjort seg og hvilken nytteverdi de har opplevd av å delta.

Resultat: Kunnskapen fra prosjektet er blitt formidlet både gjennom nettinformasjon, facebook, internasjonale og nasjonale forsknings- og brukerkonferanser, blogginnlegg på forskningsbloggen til Ekspertsykehuset Oslo universitetssykehus. Planen videre er å produsere en vitenskapelig artikkel og en fagartikkel fra prosjektet, samt delta på relevante konferanser, slik at våre erfaringer og kunnskap fra prosjektgjennomføringen blir formidlet i ulike fora både nasjonalt og internasjonalt.

Kapittel 1. Bakgrunn

1.1 Bakgrunn for prosjektet og hva som er gjort på området tidligere

I 2011 til 2017 ble det gjennomført et omfattende forskningsprosjekt om psykososiale aspekter, smerter og fatigue ved Marfans syndrom (MFS) ved TRS kompetansesenter for sjeldne diagnoser. Prosjektet resulterte i fem vitenskapelige artikler (to systematiske review-artikler og tre primærforskningsartikler) publisert i fagfelleverderte, vitenskapelige tidsskrifter (Bathen et al 2014, Velvin et al 2015 a, b, 2016 a, b), samt tre populærvitenskapelige artikler (Bathen 2015, Velvin et al 2016, Velvin et al 2017), en doktorgrad (Velvin 2016) og en mastergrad (Bathen 2014), nettinformasjon og presentasjoner på en rekke internasjonale/nasjonale forsknings- og brukerkonferanser.

Til tross for omfattende forskningsformidlingsarbeid erfarte vi at det var vanskelig å nå ut med forskningsresultatene til dem som trengte disse. Derfor ønsket vi i dette prosjektet å benytte brukernes kompetanse for å formidle resultatene på en mer relevant, forståelig og nyttig måte, direkte rettet mot de målgruppene som hadde behov for kunnskapen.

1.2 Tema: Brukermedvirkning i forskningsformidling

Forskingskommunikasjon er «å ta initiativ til, planlegge og gjennomføre aktiviteter som bidrar til å gjøre forskningen tilgjengelig, relevant og interessant for utvalgte målgrupper gjennom effektive kommunikasjonskanaler (Farbrot 2017:17). Selv om det fortsatt finnes lite forskning på nytteverdi og utfordringer ved brukermedvirkning i forskningsformidling, er det mye som tyder på at brukermedvirkning kan bidra til å utvikle mer kreative formidlingskanaler som er mer effektive og målrettede (Cowe et al 2008, Schippe et al 2013, Domeeq et al 2014, Kothari et al 2017; Graham et al 2018).

Det finnes en rekke alternative forskningsformidlingskanaler vi som forskere ikke har hatt tradisjon for å benytte, som for eksempel bruk av sosiale medier, film, blogger, podkast, digitale historiefortellinger og andre medieuttrykk. Derfor ønsket vi, sammen med brukerne, å finne fram til nye kanaler vi kunne benytte.

1.3 Finansiering og gjennomføring av prosjektarbeidet

Det ble søkt midler fra Stiftelsen Dam på kr 400 000,- (se vedlegg 1) som skulle dekke lønn for å ansette brukerrepresentanter i prosjektet, møteutgifter og deltakelse på nasjonale og internasjonale konferanser. Innbefattet midler til at brukerrepresentantene sammen med forskere fra TRS, kunne være med på hospitering ved universitet i Ottawa, i Canada. Dette for å få mer kunnskap og utveksle

erfaringer om hvordan forskergruppen der jobber med brukermedvirkning i forskningsformidling (Integrated Knowledge Translation).

Prosjektet var planlagt med oppstart august 2018 og avsluttet i 2019. Flere av brukerrepresentantene har av ulike årsaker hatt utfordringer med å kunne delta i arbeidet i prosjektperioden. Prosjektet ble automatisk forlenget 6 måneder fram til juni 2020, for å muliggjøre mer deltakelse fra brukerrepresentanten. Da korona-epidemien og nedstengningen av samfunnet kom i februar/mars 2020, bidro dette til å skape nye utfordringer for praktisk gjennomføring av prosjektet. Prosjektet fikk godkjent utvidelse av prosjektperioden frem til 31.12.20.

Kapittel 2. Redegjørelse for hovedmålsettingen og delmålene i prosjektet

Hovedhensikten med prosjektet var å genere mer kunnskap om brukermedvirkning i forskningsformidling som metode for å gjøre forskningsresultatene mer relevant og nyttig for praksisfeltet. Dette ved å prøve ut og opparbeide oss kunnskap om nytteverdien av brukermedvirkning i forskningsformidling basert på en modell utarbeidet av Ian Graham ved Universitet i Ottawa kalt Integrated Knowledge Translation (Graham et al.2018). Denne modellen vektlegger brukermedvirkning i alle faser av forskningsformidlingsprosessen, mens hovedfokus for vårt prosjekt var forskningsformidlingsfasen..

På bakgrunn av teori, kliniske erfaringer og relevant forskning har prosjektet utviklet en hypotese og fire delmålsettinger, som er presentert under.

2.1 Hypotese

Vår hypotese var at Integrated Knowledge Translation som metode kan bidra til økt relevans, anvendelse og nytteverdi av forskningsresultater. Ved at forskere i samarbeid med dem som trenger kunnskapen kan sammen finne og utvikle nye metoder som er mer effektive og målrettede enn de forskere har benyttet til nå.

2.2 Målsettinger med prosjektet

1. Få en systematisk oversikt over relevant litteratur som omhandler brukermedvirkning ved forskningsrelatert kunnskapsformidling
2. Få oversikt over hvilke strategier og metoder for kunnskapsformidling og kunnskapsimplementering forskere som jobber på de ni sjeldensentrene i Norge bruker per i dag.
3. Ved bruk av Integrated Knowledge Translation-modellen, finne frem til, utvikle, gjennomføre og evaluere minimum tre metoder for kunnskapsformidling. Dette for å gjøre forskningskunnskapen

fra prosjektet «Psykososiale aspekter ved Marfan syndrom» mer kjent og bidra til at den blir tatt i bruk.

4. Vurdere fordeler og ulemper ved bruk av Integrated Knowledge Translation-modellen i forskningsformidling.
5. I tillegg vil prosjektet bidra til mer informasjon og kunnskap om hvilke behov og utfordringer personer med Marfans syndrom opplever. Dette kan bidra til å øke livskvalitet, mestring og deltakelse for personer med denne og lignende diagnoser.

2.3 Målgruppe

Målgruppene har vært flere. For det første vil økt spredning av forskningsresultater fra studien kunne bidra til at personer med Marfans syndrom og andre med tilsvarende tilstander, som for eksempel Loeys-Dietz syndrom og vaskulær Ehlers Danlos' syndrom, kan få bedret oppfølging og tjenestetilbud. Bedre kvalitet på tjenestetilbudet og mer systematisk oppfølging kan fremme mestring, livskvalitet og bedre fysisk og psykisk helse, noe som igjen kan føre til at færre faller ut av arbeidslivet.

Systematisk oversikt over litteratur og mer erfaringsbasert kunnskap om hvordan brukervedvirkning fungerer i kunnskapsformidling, kan være viktig kunnskap for både fagpersoner og forskere som jobber innenfor sjeldenfeltet, men også generelt for alle som jobber med forskningsformidling. Mer kunnskap om hvilke verktøy og metoder som er virksomme i kunnskapsformidling til utvalgte målgrupper vil være nyttig for helse- og sosialfaglig forskning generelt, og dermed har et stort nedslagsfelt. Utprøving av alternative og innovative formidlingskanaler kan inspirere og motivere flere forskere til å ta disse i bruk.

Kapittel 3. Prosjektgjennomføring og metode

3.1 Praktisk gjennomføring av prosjektet

Det ble etablert en prosjektgruppe bestående av to forskere fra TRS (Gry Velvin, Trine Bathen), fire representanter fra Den Norske Marfanforening ved Marit Vågsnes, Simen Grøneng Johansen, Arild Jensen og Atle Johannessen, hvorav tre av disse også har deltatt som brukerrepresentanter i forskningsprosjektet «Psykososiale aspekter, fatigue og smerter ved Marfan syndrom». I tillegg deltok en kommunikasjonsrådgiver fra TRS (Thale Hartmann) og tre eksterne fagpersoner (1. amanuensis Ellen Berg, professor Amy Østertun Geirdal, overlege Rigmor Lundby, spesialrådgiver Ruth Angelstad).

Første møte ble gjennomført med et todagers seminar arrangert på TRS kompetansesenter den 19.10.2018. Vi brukte workshop og dialogkafeer igangsetting av prosessen med å finne fram til hvilke temaer det var viktig å formidle forskning om, til hvem og på hvilken måte. Til sammen 10 personer

fra prosjektgruppen var tilstede på dette møtet. I tillegg deltok fagpersoner fra TRS kompetansesenter på relevante temaer som det ble jobbet med.

Den 04.02.2019 ble det arrangert et nytt todagers arbeidsseminar på TRS kompetansesenter, hvor relevante fagpersoner deltok på utvalgte temaer.

I praksis viste det seg vanskelig å jobbe på denne måten. Fra februar til juni 2019 var det ikke mulig å finne tidspunkt som passet for alle. Flere av brukerne hadde helseutfordringer som gjorde at reise og lange møter var vanskelig å få til. Fagpersoner og flere av brukerrepresentantene hadde mange andre oppgaver og begrenset tid til møter.

Etter å ha forsøkt lange heldagsmøter viste løsningen seg å være digitale møter. Vi har til sammen arrangert syv digitale møter i perioden 15.10.2019 til 08.10.20. I tillegg har vi jobbet sammen på mail og telefon.



Løsningen vi brukte først med Cisco meeting og senere fra Norsk Helsenett ga deltakerne muligheten til å dele personlige erfaringer og sensitiv informasjon på en sikker plattform. Dette fungerte bra, selv om det ikke helt kunne erstatte fysiske møter. Planen var at vi skulle arrangere et fysisk møte i Bergen i juni 2020, og ett i november 2020, men dette har ikke vært mulig på grunn av restriksjonene knyttet til korona-pandemien.

Dessverre har sykdomsfravall gjort at kun en og to av brukerrepresentantene i perioder har kunnet delta. De som har vært tilstede har deltatt svært aktivt inn i det arbeidet som er blitt utført og har hatt stor betydning for utforming av produktene fra prosjektet.

Av fagpersoner er det hovedsakelig forskere og fagpersoner fra TRS som har deltatt på prosjektmøtene. Eksterne fagpersoner fra prosjektgruppen har hovedsakelig blitt brukt konsulterende for produktene som er utviklet. Dette hovedsakelig fordi vi ikke hadde lønnsmidler til eksterne fagpersoner, som da måtte bruke fritiden til dette arbeidet.

Kapittel 4. Resultater for de ulike målområdene og evalueringens nytteverdi

Hovedmålsettingen var å generere mer kunnskap om brukermedvirkning i forskningsformidling og prøve ulike metoder for forskningsformidling sammen med brukerne. Nedenfor beskrives resultater og erfaringer for de fire målområdene i prosjektet.

4.1 Målsetting 1: Systematisk oversikt over relevant litteratur om brukermedvirkning i kunnskapsformidling av forskning om sjeldne diagnoser

Denne delen har i hovedsak vært gjennomført av TRS-fagpersonene i prosjektgruppen. Vi har i denne rapporten valgt å kort oppsummere kunnskap om:

1. Sentrale dokumenter og retningslinjer om brukermedvirkning i forskning i Norge, og om det finnes relevante fagmiljøer internasjonalt som jobber med dette
2. Litteratursøk om brukermedvirkning i formidling og implementering av forskning om sjeldne diagnoser

1. Brukermedvirkning i forskning, i Norge og internasjonalt

I Norge har det de senere årene også vært økende fokus på brukermedvirkning i forskning, og det er i økende grad et krav at man skal ha brukermedvirkning for å få forskningsmidler. Helseforetakene i Norge har samarbeidet om å utarbeide en egen [veileder for brukermedvirkning i helseforskning i spesialisthelsetjenesten](#). Funksjonshemmedes Fellesorganisasjon og Nasjonal Kompetansetjeneste for sjeldne diagnoser har laget et [egget hefte om brukermedvirkning på sjeldenfeltet](#).

Det finnes flere internasjonale forskningsmiljøer som jobber aktivt med dette feltet, blant andre [INVOLVE](#) som drives av National Institute for Health Research i England. Et annet miljø er [Patient Centred outcomes institute PCORI](#) i USA. Det finnes også et internasjonalt nettverk for forskning om Integrated Knowledge Translation: [IKT Research Network](#), basert i Canada og med samarbeid med forskere fra hele verden

2. Systematisk litteratursøk

Et systematisk litteratursøk i relevante databaser (Pub.med, Amed, Cinahl, Eric og Google scholar) ble gjennomført i 20.09.2018. Til sammen fant vi 581 artikler, av disse ble 482 ekskludert da de ikke handlet om brukermedvirkning i forskningsformidling. Etter gjennomgang av fulltekstartiklene satt vi igjen med seks artikler om brukermedvirkning i forskningsformidling ved sjeldne diagnoser, 13 artikler om andre diagnoser. Tre av disse artiklene handler om Integrated Knowledge Translation. (se vedlegg 1 - tabell med inkluderte artikler)

Etter systematisk gjennomgang av fulltekstartiklene, samt abstrahering og syntetisering av resultatene er hovedinntrykket at dette er et uoversiktlig fagfelt. Det brukes mange ulike begreper om hverandre: Translational medical research, integrated knowledge translation, knowledge translation, participatory research og så videre. Det er få studier som beskriver hvordan de konkret har organisert og lagt til rette for brukervedvirkning i forskningsformidling. Vi fant ingen studier med hovedfokus på hvordan brukerne erfarer og opplever deltakelse i forskningsformidling. Heller ikke hvilken betydning og effekt dette har på hvilke produkter og kommunikasjonskanaler som blir benyttet. Dette tyder på at det er et stort kunnskapshull når det gjelder utfordringer og betydning av brukervedvirkning i forskningsformidlingsprosessen.

Planen videre er å gjøre et nytt søk på «brukervedvirkning i forskningsformidling på sjeldne diagnoser» og samskrive dette med resultatene fra spørreundersøkelsen til forskere (delmålsetting 2) til en vitenskapelig artikkel i løpet av 2021.

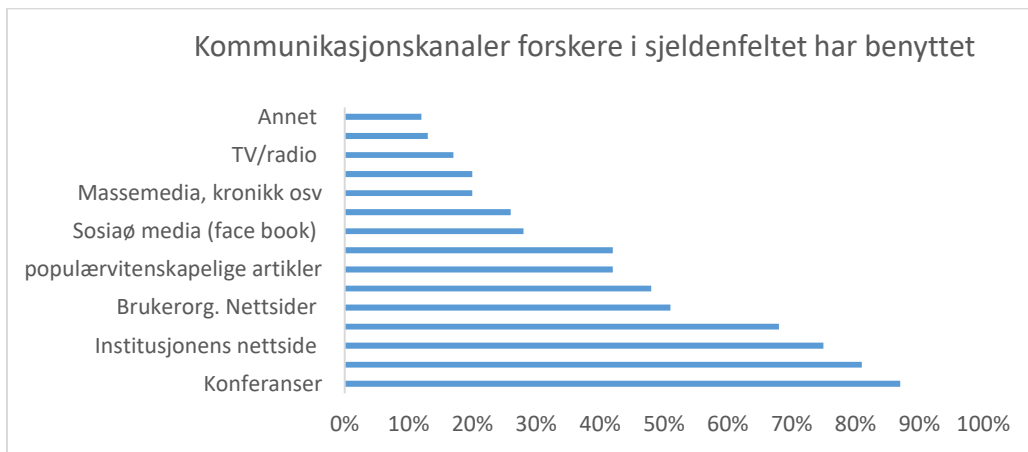
4.2 Målsetting 2: Spørreundersøkelse til ansatte og forskere på de 9 sjeldensentrene i Norge om brukervedvirkning og bruk av formidlingskanaler i forskning

Bakgrunn:

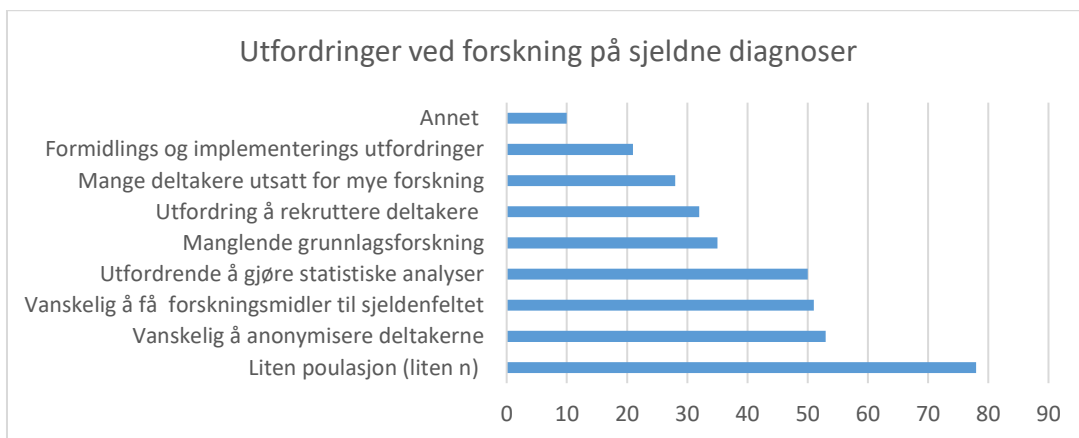
Vi gjennomførte høsten 2019 en omfattende digital spørreundersøkelse med verktøyet Quest-back til alle ansatte i Nasjonal kompetansetjeneste for sjeldne diagnoser (9 nasjonale sjeldensentre). Både kvantitative spørsmål med avkryssingsalternativer og «open-ended» spørsmål ble bruk. Målet var å få en oversikt over deres erfaringer og mer utdypende kunnskap om brukervedvirkning og forskningsformidling.

Kort oppsummering av noen resultater:

Vi fikk svar fra 151 personer. Vi fant at forskerne i sjeldenfeltet har prøvd ut mange ulike kommunikasjonskanaler og –måter for å formidle funnene sine. Mange benyttet forskernes «vanlige» kanaler slik som artikler, innlegg på konferanser og spredning via egne nettsider. Langt færre hadde brukt sosiale medier, film, podkast og andre, i forskningssammenheng mer utradisjonelle kommunikasjonskanaler. Fig 2 viser hvilke kommunikasjonskanaler som forskerne har brukt.



Av de ansatte som hadde forsket oppga 73 % at de opplevde det som ekstra utfordrende å forske på sjeldne diagnoser sammenlignet med større grupper. Figur 2 under viser hovedbegrunnelsene forskerne oppga til dette. Det vanligste var at sjeldne diagnoser utgjør et liten populasjon som kan vanskeliggjøre avanserte statistiske analyser, og at anonymisering av deltakerne kan være et problem. I tillegg ser det ut til at det er vanskeligere å få forskningsmidler fordi sjeldenfeltet i liten grad er prioritert.



Til sammen oppga 51% at forskerne at de hadde gjennomført forskning med brukermedvirkning. De fleste mente brukermedvirkning var svært nyttig og hensiktsmessig, men flere beskrev også utfordringer knyttet til dette. De fleste (78%) oppga at de hadde behov for å lære mer om forskningsformidling, spesielt med tanke på bruk av alternative kommunikasjonskanaler som ikke er vanlig å bruke for forskere.

En forsker beskrev følgende:

«Formidling er kanskje den viktigste delen av forskningsprosessen, men er i altfor liten grad prioritert. Det kreves både tid, tilrettelegging og opplæring av både forskere og brukerrepresentanter, og da er det lett å bare glemme».

Videre arbeid

En mixed-metode tematisk analyse av materialet er gjennomført. Utkast til en vitenskapelig artikkel er påbegynt, og planen er å sende inn artikkelutkast til et vitenskapelig tidsskrift i løpet av 2021.

4.3 Delmål 3: Utvikle og evaluere minst tre alternative formidlings- og kommunikasjonsprodukter (hva, fra hvem og hvordan skal kunnskapen formidles)

I tett samarbeid og med utgangspunkt i modellen til Lavis (Grimshaw 2012) kom vi fram til hva som var de viktigste resultatene fra forskningsprosjektet «Å leve med Marfans syndrom»: Til hvem resultatene skulle formidles, av hvem, hvordan og med hvilken virkning. Se tabell 1 under:

Tabell 1. Modell av arbeidsprosessen	
WHAT Hva skal formidles	<ol style="list-style-type: none">1. Mange med Marfans syndrom opplever store utfordringer i arbeidslivet og blir tidlig uføretrygdet. Mange opplever å ikke få den oppfølgingen de har behov for.2. Fysisk aktivitet og trening kan være en utfordring for personer med Marfans syndrom på grunn av aortaproblematikk og muskel- og skjelettplager. Spesielt vanskelig for ungdom som opplever å ikke få delta i kroppsøving og fysisk aktivitet som sine medelever.3. Fatigue ser ut til å være den største utfordringen å håndtere i arbeidslivet for personer med Marfans syndrom. Mange opplever det som vanskelig å formidle behov og håndtere de utfordringene dette gir.
TO WHO Til hvem skal dette formidles	<ol style="list-style-type: none">1. NAV-ansatte, fastleger og brukere2. Gymlærer, lærere, idrettsforeninger, foreldre, brukere3. NAV-ansatte, fastleger, personer med fatigue
OF WHOM Av hvem skal dette formidles- Hvem er translatorer	<ol style="list-style-type: none">1. Personer med Marfans syndrom / foreningen, TRS-ansatte og eksterne fagpersoner2. Brukerne, ansatte og eksterne fagpersoner3. Eksterne fagpersoner, ansatte og brukere
HOW Hvilke prosesser vil vi bruke for å oversette og implementere kunnskapen	<ol style="list-style-type: none">1. Informasjonsskriv/fakta-ark om utfordringer og muligheter i arbeidslivet ved Marfans syndrom2. Informasjonsformidling om utfordringer ved fysisk aktivitet og trening ved Marfans<ol style="list-style-type: none">a. Informasjonsark/faktaark om muligheter og eventuelle hensyn ved kroppsøving og aktivitetb. Film om fysisk aktivitet for barn og unge med Marfans syndrom.
IMPACT Hva er forventet utbytte av arbeidet Hvordan måle dette ?	<ul style="list-style-type: none">-Fagfolk fått mer kunnskap, og vet mer om hvor de kan hente kunnskap-Brukere og pårørende fått mer kunnskap, og vet mer om hvor de kan hente mer kunnskap- Ønskelig for å oppnå mer likeverdige tjenester. Antall visninger på TRS sin hjemmeside, Facebook, YouTube. Brukerne og ansattes tilbakemelding på om produktene er nyttige

På bakgrunn av dette har vi utviklet til sammen 4 kommunikasjonsprodukter

1. Faktaark/ brosjyre om utfordringer i arbeidslivet ved MFS:

I studien fant vi at mange med Marfans syndrom har utfordringer i arbeidslivet og blir tidlig uføretrygdet. Mange benytter i liten grad de tiltakene og mulighetene som ligger i arbeids- og velferdssystemet i Norge. Brukerrepresentantene mente også at dette var et viktig område for målrettet formidling. Vi utviklet derfor et [faktaark med kort, relevant og forståelig informasjon om](#)

[Marfans syndrom og arbeid](#). Faktaarket er tilgjengelig via TRS' og Marfanforeningens nettsider.

Tanken er at personer med Marfans syndrom kan ha det med seg til NAV, fastlegen og andre fagpersoner når de opplever utfordringer i arbeidslivet. Dette kan bidra til at fagfolk kan få bedre forståelse, kunnskap og kan yte mer hensiktsmessig og relevant oppfølging.

2. *Brosjyre om kroppsøving og fysisk aktivitet ved Marfans syndrom:*

Brukerrepresentantene fremhevet at både de selv og andre i Marfanforeningen opplever utfordringer med å få forståelse og tilpasning, slik at barn og ungdom kan delta i kroppsøving og fysisk aktivitet. Kunnskap fra studien (systematisk review-artikkel om psykososiale aspekter), og annen forskning tydet også på at det er lite forskning på dette området og at mange opplever utfordringer. Vi utviklet derfor:

[Et informasjonsskriv om kroppsøving for barn og unge med Marfans syndrom](#) – til lærere, trenere, fastleger og andre fagpersoner.

3. *Film om fysisk aktivitet ved Marfans syndrom*

[En film om fysisk aktivitet for barn og unge med Marfans syndrom](#) – til de samme målgruppene som informasjonsskrivet.

Informasjonsskrivet og filmen er tilgjengelig via TRS' og Marfanforeningens nettsider.

4. *Podkast om fatigue i arbeidslivet, utfordringer og muligheter:*

I studien fant vi at den største utfordringen for personer med Marfans syndrom i arbeidslivet er fatigue/utmattelse. Dette ble bekreftet av brukerrepresentantene som et tema som også er viktig på Marfanforeningens samlinger. Mye tyder på at fatigue kan bidra til at mange blir tidlig uføretrygdet og at det er vanskelig å finne frem til hensiktsmessige arbeidsrettede tiltak for de som har slike symptomer. For å kunne støtte og informere både fagfolk og brukerne har vi jobbet med å utvikle en podkast om «fatigue i arbeidslivet, utfordringer og muligheter». Vi har fått gjennomført et digitalt opptak med en ekstern fagperson, Elin Korveien. Dette fungerte bra, men av hensyn til kvaliteten på podcasten ønsker vi å gjøre resterende opptak og redigeringsarbeidet når vi kan møtes fysisk. Dette er blitt stadig utsatt pga. restriksjonene knyttet til Korona situasjonen. Så snart restriksjonene i forbindelse med Korona blir opphevet, vil dette arbeidet bli slutført.

Vårt mål var at mer informasjon om fatigue, om mulige tiltak og hvordan en kan håndtere symptomene, kan bidra til å forebygge og bedre situasjonen for personer med fatigue i arbeidslivet. Podkasten er tilgjengelig via TRS' og Marfanforeningens nettsider.

Prosjektgruppen har samarbeidet om målgruppe, form og innhold på produktene og på hvilke måter og i hvilke kanaler vi kan spre kunnskapen.

4.3.1 Evaluering av nytteverdi med formidlingsproduktene

Vi har i dette prosjektet ikke hatt mulighet til en fullstendig effektvurdering, men har brukt ulike måter for å samle erfaringer om bruken av og meninger om formidlingsproduktene. Tabell 2 viser hvor mange brukere som har åpnet de ulike produktene på internettsiden de ble publisert.

Tabell 2. Bruk av formidlingsproduktene pr 08.01.2021			
Produkt	Publisert dato	Totalt antall unike brukere*	Totalt antall sidevisninger**
Faktark om Marfans syndrom og arbeidsliv	21.08.2019	361	449
Informasjonsskriv om kroppsøving for barn og unge med Marfans syndrom	07.01.2020	281	324
Film om fysisk aktivitet for barn og unge med Marfans syndrom	07.07.2020	*** Ikke mulig å måle	800 ganger på TRS sin facebookside 323 på TRS sin YouTube-kanal Til sammen 1123
Podkast om fatigue i arbeidslivet		Planlagt ferdig april 2021	

* Unike brukere er antall ganger siden er åpnet fra unike (ulike) IP adresser

**Totalt antall siden er åpnet

*** YouTube gir ikke tall på hvor mange unike brukere som har brukt siden. Kun hvor mange ganger den er startet på YouTube.

Vi har fått tilbakemeldinger fra mange ulike fagmiljøer og fagpersoner om at de ulike produktene er tilgjengelige, nyttige og til hjelp i deres arbeid med personer med Marfans syndrom, blant annet fra spesialister i Oslo Universitetssykehus, arbeidsvurderingsteamet ved Sunnaas sykehus, fra fastleger, fra NAV ansatte og Norsk elektronisk legehåndbok.

Tilbakemeldinger fra styret og medlemmer i Marfanforeningen tyder også på at personer med Marfans syndrom og deres pårørende opplever produktene som nyttige.

4.4 Delmål 4. Evaluering av erfaringer med brukermedvirkning i forskningsformidling.

Grunnet de begrensninger koronapandemien har medført, har vi måttet nedskalere planene om bruk av observasjon, fokusgruppeintervjuer og lignende for evaluering av erfaringene.

Vi har heller valgt å oppsummere de erfaringene prosjektgruppen har gjort seg underveis i prosjektet. Etter hvert prosjektmøte har vi gjennomført evalueringer av brukerrepresentantenes erfaringer og opplevelse av å delta. Brukerrepresentantene har blant annet formidlet at det har vært interessant, lærerik og viktig å delta, men rollen som medarbeider kan ofte være litt uklart. Det tar litt tid å finne fram til hvordan de som brukere kan bidra med sin kompetanse inn i prosjektet.

En brukerrepresentant sa: «*Veldig greit å være med i prosessen. Vi får være med, bidra med vår kompetanse og sørge for at ting blir skrevet i et forståelige språk.*»

En annen uttalte: «*Vi opplever også at vår kunnskap er viktig, at vi ikke nødvendigvis trenger å ha forsknings-kunnskap, noe vi trodde da vi startet opp. Godt å vite at vi har mye kunnskap om dette*»

En tredje uttalte: «*Vi er fornøyd med dette, fint å få diskutert og vi opplever at vi bidrar og har noe å bidra med*».

Vi har justert kursen i prosjektet i henhold til de tilbakemeldingene og diskusjonene som har foregått i prosjektperioden. Eksempelvis har vi endret møtevirksomhet fra fysiske til digital møtevirksomhet på grunn av den belastningen brukerne opplevde ved lange reiser og heldagsmøter.

I sluttfasen av prosjektet fikk brukerrepresentantene mulighet for å svare anonymt på et digitalt spørreskjema om deres tanker og erfaringer med å delta i prosjektet. Gjennomgående gir de positive tilbakemeldinger: De har opplevd at de har fått påvirke og er blitt lyttet til, produktene vi har laget sammen er nyttige og de har opplevd at samarbeidet i prosjektgruppen har vært bra. Spørsmålene og noen eksempler på svar i tabell 3.

Tabell 3. Brukerrepresentantenes tanker og erfaringer om medvirkning i prosjektet	
Spørsmål	Svar
Hvordan har du opplevd det å være med i dette prosjektet?	- Det har vært interessant, og veldig positivt å kunne bidra med mine erfaringer.
Hvilke erfaringer tenker du kan være nyttig å formidle videre til nytte for andre som jobber med tilsvarende prosjekter?	- Lønn er et viktig moment for både motivasjonen og for å skape tilhørighet og et kollegialt arbeidsforhold - Veldig praktisk med nettmøter. - Det er også viktig å ha en ordentlig struktur på møtene, så vi ikke prater oss bort. Noe som ikke var noe problem i dette prosjektet. - Snakke med hverandre ansikt til ansikt ikke bare digitalt.
Hvordan har du opplevd samarbeidet i prosjektgruppen?	- Vi som brukere ble lyttet til, ofte til min overraskelse. Ting jeg sa men kanskje ikke trodde kunne bety noe, ble tatt seriøst og brukt videre i arbeidet.
Har du noen tanker om betydningen av brukermedvirkning i forskningsformidling nå i etterkant av prosjektet?	- Det er brukerne som vet "hvor skoen trykker", og fagfolkene som vet hvordan "trykket kan fjernes/minskes" - Erfaringer i det virkelige liv.

I tillegg har vi som forskere loggført våre tanker og refleksjoner underveis i prosjektperioden, noen av disse erfaringene beskrives nedenfor. Prosjektleder har også hatt fem intervju samtaler med veileder gjennom hele prosjektperioden for refleksjon og ideer knyttet til det å være prosjektleder for dette

prosjektet. Samtalene er blitt tatt opp på bånd, vil bli transkribert ordrett og analysert for en mulig artikkel.

Fordeler

Fordelen med aktiv brukermedvirkning i forskningsformidling har vært at brukernes kunnskap har bidratt til at vi som forskere har utforsket og benyttet andre kommunikasjonskanaler enn det vi har tillatt oss å gjøre tidligere. Brukerne bidro til at forskningsresultatene ble fremstilt på en mer lettfattelig og tydelig måte i en form og et språk spisset mot relevante målgrupper. Vi mener å ha fått resultatene formidlet i en mer relevant og nyttig form som kan bidra til at forskning blir brukt på en annen måte enn om vi ikke hadde gjennomført prosjektet. Dette har bidratt til å styrke kunnskapsformidlingen i tråd med brukernes erfaringer og ønsker.

Det tar tid å bli kjent, men etter hvert fant forskerne og brukerne fram til strategier for samarbeid som opplevdes svært nyttig og meningsfulle for begge parter. Brukerne fikk tilkjennegjort sin kompetanse og opplevde at de ble hørt og tatt på alvor gjennom utdypende diskusjoner og dialog. Forskerne opplevde å nyansere eget kunnskapsgrunnlag og fikk forståelse av å kunne formidle resultatene på en annen måte enn gjennom de tradisjonelle kommunikasjonskanalene. Refleksjoner og diskusjoner omkring verdien av å kunne nyttiggjøre forskningsresultatene i praksisfeltet ga både forskerne og brukerne nye perspektiver på viktigheten av forskningsformidling.

Dette var en lærerik prosess for alle parter og den gjensidige respekten for hverandres kunnskapsgrunnlag og forståelser var nødvendig for å få til dette gode samarbeidet. Som forskere fant vi ut at det ikke fantes noe fasitsvar for hvordan brukermedvirkning i forskningsformidling skal utføres, så veien ble mye til underveis. Ved å gjennomføre jevnlig evalueringer ble kursen stadig endret. Justeringer og fleksibilitet var en forutsetning for å få til dette. Dette fungerte bra for alle parter. En gjensidig åpenhet og forståelse av den enkeltes synspunkt og behov, samt humor og latter var viktig i denne prosessen. Humor bidro til å ufarliggjøre og skape en lettere tone i samarbeidet, samtidig som dette ikke gikk på bekostning av seriøsiteten arbeidet. En god balanse mellom den uformelle og formelle samhandlingen bidro til mer åpenhet, kreativitet og nytenkning, og bidro til at alle parter var resultatorientert og opptatt av å få til et effektivt samarbeid

Utfordringer

Utfordringen ved brukermedvirkning har vært å få til gode arenaer for samarbeid og involvere brukerne på en god nok måte. Flere av brukerrepresentantene har hatt helsemessige utfordringer, og hatt langvarige sykemeldinger fra prosjektet. Dette har gjort at det i perioder har vært vanskelig å opprettholde kontinuitet i arbeidet, og ting tar lengre tid. En annen utfordring har vært å

gjennomføre prosjektet i perioden med restriksjoner og nedstengning knyttet til korona-pandemien. Det har da ikke vært mulighet til å gjennomføre de fysiske møtene som var planlagt, hospitering og deltakelse på konferanser.

En annen utfordring var å finne frem til gode samarbeidsformer og en gjensidig forståelse av hva deltakelse i prosjektet skulle innebære. Forventningsavklaring, tydeliggjøring av rammene for prosjektet og hva forskerne ønsket innspill på, var viktig å få avklart med brukerrepresentantene i tidlig i prosessen. Forskerne ser i ettertid at de kunne vært enda tydeligere på dette, som f.eks. inngått skriftlig kontrakter med brukerne i forhold til hvilke oppgaver de skulle ivareta. Ved skriftliggjøring av det konkrete samarbeidet kunne forskerne i større grad tydeliggjort hvilke forventninger de hadde til brukerrepresentantenes rolle. Brukerne kunne dermed lettere få innsikt i hvilke oppgaver de skulle ivareta, og dermed tydeliggjøre egne forventninger til deltakelse. Flere av brukerrepresentantene opplevde at de i oppstartfasen var usikker på egen rolle og hvordan de kunne benytte eget kunnskapsgrunnlag inn i prosjektet. Mye av tiden på de første fysiske samarbeidsmøtene gikk med på å avklare dette.

Samtidig erfarte forskerne at det tar tid å få til gode samarbeidsformer. Det å bli kjent med brukerne var nødvendig for sammen å finne fram til gode rammer for samarbeidet. Forskerne erfarte at det var viktig å finne en god balansegang mellom kunnskapsdeling og kunnskapsforståelse. De var opptatt av at det var nødvendig å ivareta eget kunnskapsgrunnlag, men samtidig være åpen for brukernes kunnskapsforståelse. Samhandling og kommunikasjon måtte derfor foregå i et språk alle kunne forstå. For forskerne var det viktig å unngå bruk av fagterminologi og akademiske begreper, og brukerrepresentantene var opptatt av å generalisere egne erfaringer i en form som var svært nyttig for prosjektarbeidet. Det var mange fordeler med digitale møter, men begge parter opplevde at møtene ble mer formelle, effektive og mindre kreative enn ved fysiske møter. Samtidig var brukerne svært opptatt av at digitale møter var mindre ressurskrevende og derfor en ønsket samarbeidsform.

4.5 Delmål 5. Spre kunnskap om Marfans syndrom og bidra til tjenesteoppfølging for personer med Marfans syndrom

Vi har under hele prosjektperioden hatt samarbeid med Marfanforeningen og foreningens styre. Brukerrepresentantene presenterte et av produktene på en av Marfanforeningens helgesamlinger og fikk tilbakemelding på nytte og innhold. Dette hadde vi ønsket å gjenta, men det har dessverre ikke vært mulig.

Vi har formidlet resultater fra studien og informasjon om prosjektet gjennom en rekke kanaler og har gjennom det også bidratt til å spre kunnskap om Marfans syndrom.

- Facebook og nettinformasjon er blitt benyttet både for å formidle forskningsresultatene fra studien og informere om prosjektet. Vi har opprettet en [egen prosjektnettside hvor også produktene er tilgjengelige](#).
- De ulike produktene er også innlemmet i den nettinformasjonen TRS har laget om [Marfans syndrom](#).
- NEL Norsk elektronisk Legehåndbok (for leger) og [NHI Norsk Helseinformasjon \(publikumsinformasjon\)](#) har også lenket til [Faktarket om Marfans syndrom og arbeidsliv i sin nettinformasjon om Marfans syndrom](#)
- En bieffekt av samarbeidet med Norsk elektronisk legehåndbok var at vi bisto dem med kontakt med Marfanforeningen – dette resulterte i at de fikk laget en nettartikkel om Å leve med Marfans syndrom på sine nettsider [Lenke til artikkel om «Å leve med Marfans syndrom»](#)
- Prosjektgruppen skrev [et blogginnlegg om prosjektet og våre erfaringer brukervedvirkning i forskningsformidling](#) på Oslo Universitetssykehus sin blogg «Ekspertsykehuset» hvor tema for september 2020 var brukervedvirkning i forskning.
- Posterpresentasjoner på nasjonale og internasjonale konferanser.
 - [Internasjonal Marfankonferanse i Amsterdam 2018](#)
 - Internasjonal konferanse: Joint World Conference on Social Work, Education and Social Development i Dublin 2018.
 - [Brukerrepresentantsamlingen i den Nasjonale Kompetansetjenesten for sjeldne diagnoser desember 2018](#)
 - [Samling for ansatte i den Nasjonale Kompetansetjenesten for sjeldne diagnoser, desember 2019](#)
- Muntlige foredrag og presentasjoner på internasjonale og nasjonale konferanser.
 - Helgetreff i Marfanforeningen våren 2019, av utkast til faktaark om Marfans syndrom og arbeidsliv
 - Nasjonal konferanse om brukervedvirkning i forskning september 2018
 - To presentasjoner på Joint World Conference on Social Work, Education and Social Development 2018 i Dublin.

Kapittel 5. Endringer i prosjektet grunnet koronasituasjonen

5.1 Hva har vi ikke fått gjennomført som planlagt?

- To sammendrag ble innsendt til internasjonal konferanse Evidence Based Medicine Live, som skulle holdes i slutten av juli 2020 i Canada. Hensikten var å formidle kunnskapen fra prosjektet. Konferansen ble avlyst grunnet reiserestriksjoner knyttet til korona. Sammendragene vil bli vurdert for ny konferanse i 2021.
- Hospitering på Ottawa Universitet hos gruppen som har utviklet modellen Integrated Knowledge Translation ble ikke gjennomført på grunn av korona restriksjoner.
- Prosjektgruppen hadde avtalt møte med Ian Grahams prosjektgruppe fra Canada som jobber med Integrated Knowledge Translation, i Bergen juni 2020. Dette ble avlyst på grunn av korona restriksjoner.
- Igangsatt arbeid for hospitering på Nasjonalt kompetansesenter for arbeidsrettet rehabilitering for de av brukerrepresentantene som ikke ønsket (for belastende) å være med til Canada, ble også lagt på is, grunnet korona-pandemien.

5.2 Ubrukte midler

Vi mottok kr 400 000 i prosjektmidler fra Dam-stiftelsen, og har kun benyttet kr 104 178. Resterende midler vil bli tilbakeført til Stiftelsen Dam.

Det er ulike årsaker til at vi ikke har benyttet alle midlene som vi mottok fra Stiftelsen Dam. Flere av brukerrepresentantene hadde i lengre perioder ikke mulighet til å delta i prosjektarbeidet som planlagt på grunn av alvorlig sykdom og andre viktige oppgaver. Vi valgte også å omorganisere møtene fra fysiske møter på TRS til digitale møter, noe som både var ressursbesparende og mindre slitsomt for brukerrepresentantene. Hospitering og deltakelse på konferanser, samt andre fysiske samlinger og møter i 2020 ble avlyst grunnet koronasituasjonen. Planlagte lønnsutgifter og andre kostnader til disse aktivitetene er derfor ikke belastet prosjektet.

Kapittel 6 Oppsummering, konklusjon og videre planer

Oppsummert mener vi at prosjektet har utviklet viktig kunnskap om:

- å benytte utradisjonelle kommunikasjonskanaler for forskningsformidling
- å involvere brukerne i denne prosessen og nytteverdien av dette
- systematisk oppsummert kunnskap av forskning knyttet til brukermedvirkning i forskningsformidling

- de spesielle utfordringene det er med forskningsformidling og brukermedvirkning innenfor sjeldenfeltet

Selve prosjektet avvikles den 31.12.20, da målsetting om formidling av resultater fra forskningsprosjektet Psykososiale aspekter ved Marfans syndrom er gjennomført. Prosjektet har vært en pilot for brukermedvirkning i forskningsformidling for et helt konkret forskningsprosjekt.

Målsettingen om å gjøre resultatene fra forskningsstudien mer tilgjengelig anser vi som oppnådd, da resultatene nå er lett tilgjengelig både på nett og i form av andre kanaler.

Videre plan er:

- å skrive en eller to vitenskapelige artikler basert på kunnskapen opparbeidet ved gjennomføring av prosjektet. I tillegg er det planlagt en populærvitenskapelig fagartikkel.
- erfaringer fra studien vil bli oppsummert og benyttet internt på TRS for egen læring, samt formidlet på mulige forsknings-/fag-/brukerkonferanser fremover.
- prosjektleder er også ansvarlig for et annet forskningsprosjekt hvor brukermedvirkning er sentralt. Kunnskapen fra prosjektet vil være et godt kunnskapsgrunnlag å bygge videre på i det pågående forskningsprosjektet og andre forskningsprosjektet ved TRS og Nasjonal kompetansetjeneste for sjeldne diagnoser.

Referanser

- Anderson, M., Elliott, E. & Zurynski, Y.A. Australian families living with rare disease: experiences of diagnosis, health services use and needs for psychosocial support. *Orphanet Journal of Rare Diseases*. 2013; 8:22 DOI: 10.1186/1750-1172-8-22.
- Bathen, T., Velvin, G., Rand-Hendriksen, S. & Stendal Robinson, H. Fatigue in Adults with Marfan Syndrome, Occurrence and Associations to Pain and Other Factors. *American Journal of Medical Genetics*. 2014; 16A(8):1931-1939
- Bathen T, Marfans syndrome og fatigue- en tverrsnittstudie I en gruppe voksne personer med verifisert Marfans syndrome. Masteroppgave i helsefagvitenskap ved Institutt for Helse og Samfunn, avdeling for Helsefag. Det medisinske fakultet, UIO 2013
- Barrera LA, Galindo GC. Ethical aspects on Rare diseases, In: posada dela Paz M, Groft SC (ed). *Rare diseases epidemiology. Advances in Experimental medicine and Biology* 686, Springer 2010: pp. 493-511
- Bavisetty S. Grody WW, Yazdani S. Emergence of pediatric rare diseases. Review of present policies and opportunities for improvement. *Rare Dis* 2012; 1: e23579
- Crowe JL, Keifer MC, Salazar MK. Striving to provide opportunities for farm workers community participation in research . *J Agric Saf health* 2008; 14 :2005-219.
- Domecq, J.P., et al., Patient engagement in research: a systematic review. *BMC Health Serv Res*, 2014. 14: p. 89.
- EUROPLAN2016. The Commission Expert Group on Rare Diseases Recommendations to Support the Incorporation of Rare Diseases into Social Services and Politics. April 2016.
http://ec.europa.eu/health/rare_diseases/docs/recommendations_socialservices_policies_en.pdf
- Esquivel-Sada D, Nguyen MT. Diagnosis of rare diseases under focus: impacts for Canadian patients. *J Community Genet*, DOI 10.1007/s12687-017-0320-x
- Forsythe LP, et al., A systematic review of approaches for engaging patients for research on rare diseases. *J Gen Intern Med*, 2014. 29 Suppl 3: p. S788-800.
- Gracia J, Blasco JA, Andredas E. A strategy for patient involvement in clinical guidelines: methodological approaches. *BMJ Quality & Safety* 2011; 20 :779-784
- Graham ID, Kothari A, McCutcheon C, and On behalf of the Integrated Knowledge Translation Research Network Project Leads. Moving knowledge into action for more effective practice, programmes and policy: protocol for a research programme on integrated knowledge translation. *Journal List. Implement Sci* 2018; 13:22. Published online 2018 Feb 2.
doi: [10.1186/s13012-017-0700-y](https://doi.org/10.1186/s13012-017-0700-y)
- Grimshaw, J.M., et al., Knowledge translation of research findings. *Implement Sci*, 2012. 7: p. 50.

- Grue, L. En vanskelig pasient? Sykehusene og pasienter med sjeldne medisinske tilstander [A difficult patient? The hospitals and the patients with a rare medical condition]. NOVA 2008 Rapport 11. Oslo, Norway: NOVA. Norwegian Social Research.
- Grut, L., Kvam, M.H. & Lippestad, J.W. . Sjeldne funksjonshemninger i Norge. Brukeres erfaringer med tjenesteapparatet. Den "sjeldne" erfaringen dreier seg om en opplevelse av å falle utenfor fagfolks kunnskapsunivers. SINTEF 2008 rapport A9231
- Grut, L. & Kvam, M. H.. Facing ignorance: people with rare disorders and their experiences with public health and welfare services. *Scandinavian Journal of Disability Research*, 2013; 15 (1): 20-32.
- Kothari A, McCutcheon C, Graham ID and the IKT Research Network. Defining Integrated Knowledge Translation and Moving Forward: A Response to Recent Commentaries. *Int J Health Policy Manag.* 2017 May; 6(5): 299–300.
- Nathan D et al . Patients and service user engagement in research: a systematic review and synthesized framework. *Health Expectations* 2013;19 : 1151-1166
- Payne H, Nicholls SG, McAllister M, Ellis I Donnai D, Davis LM. Outcome measures for clinical genetics services: a comparison of genetics healthcare professionals and patients`view. *Health Policy* 2007; 84:112-122
- Payne K, Nicholls S, McAllisterM, Macleoad R, Donnai D, Davies LM. Outcome measurement in clinical genetic services: a systematic review of validated measures. *Value Health* 2008: 11(3): 497-508.
- Potter B et al. Translating rare-diseases therapies into improved care for patients and families: what are the right outcomes, design, and engagement approaches in health-systems research. *Review. GeneticsinMedicine* 2016;18 (2) 117-123.
- Schieppati, A., Henter, J.I., Daina , E. & Apena, A.. Why rare diseases are an important medical and social issue. *The Lance.* 2008; 371(9629):2039-204.
- Shippee ND, Domecq GJP, Prutsky LGJ, Wang Z, Elaiyah TA, Nabhan M et al . Patient ans service user engagement in research; a systematic review and synthesized framwork. *Health Expectations*,. 2013 doi:10.1111/hex.12090
- van Staa T-P, Leufkens HG, Zhang B, Smeeth L. A comparison of cost effectiveness using data from randomized trials or actual clinical practice: selective cox-2 inhibitors as an example. *PLoS Medicine* 2009;6:e1000194
- Velvin G a, Psychosocial aspects of adults with Marfan syndrome. A cross sectional study of challenges related to work, satisfaction with life, chronic pain and fatigue. Dissertation for the degree of philosophiae doctor (PhD). Department of Social work, Child Welfare and Social Policy,

Faculty of Social Sciences. Oslo and Akershus University College of Applied Science , Autumn 2016
(a)

- Velvin, G., Bathen, T., Rand-Hendriksen, S. & Geirdal, A.Ø. Systematic review of the psychosocial aspects of living with Marfan syndrome. *Clinical Genetics*. 2015(a); 87:109–116.
- Velvin, G., Bathen, T., Rand-Hendriksen, S. & Østertun Geirdal, A. (B). Work Participation in Adults with Marfan Syndrome Demographic Characteristics, MFS Related Health Symptoms, Chronic Pain, and Fatigue. *American Journal of Medical Genetics*. 2015 (b) Part A, 167 (12): 3082-3090.
- Velvin G, Bathen T, Rand-Hendriksen S, Østertun Geirdal, A. Satisfaction with life in adults with Marfan syndrome (MFS): associations with health- related consequences of MFS, pain, fatigue and demographic factors. *Journal of Quality of life Research*. 2016(a). 25(7):1779-1790.
- Velvin, G., Bathen, T., Rand-Hendriksen, S. & Østertun Geirdal, A. Systematic Review of Chronic Pain in persons with Marfan syndrome. *Clinical Genetics*. 2016(b). 89(6): 647-658.
- Velvin G, Bathen T, Rand-Hendriksen S, Østertun Geirdal A. Voksne med Marfan i hvilken grad er de yrkesaktive. Hvilke faktorer har betydning for arbeidsdeltakelse. *BestPractice, Tidsskrift for fastleger* 2016 (d) nr. 1
- White MA, Verhoef MJ. Toward a patients-centered approach: incorporating principles of participatory action research into clinical studies. *Integrative Cancer Therapies*. 2005; 4:21-24.

Vedlegg 1

Resultat fra litteraturgjennomgangen. Inkluderte studier som beskriver brukermedvirkning i forskning og forskningsformidling

Forfatter, tittel og publikasjonsår	Studiedesign og målsetting	Hvem er brukermedvirkerne i studien? (pasienter/ pårørende/ fagpersoner/ andre?)	Metoder Hva sier studien om hvordan de har jobbet for å få til brukermedvirkning? - Metoder for brukermedvirkning? - Metoder for forskningsformidling / implementering?	Resultater 1 - Hvordan ble brukermedvirkningsprosessen med ble erfart, av brukermedvirkerne og av forskerne? - Hva var nytten av brukermedvirkning i studien – fordeler og ulemper?	Resultater 2 - Hvordan påvirket brukermedvirkning forskningsformidling og forskningsformidlingsproduktene
A. Studier om brukermedvirkning i forskningsformidling, som omhandler sjeldne diagnoser					
Badiu C., m.fl. (2017). "Developing and evaluating rare disease educational materials co-created by expert clinicians and patients: the paradigm of congenital hypogonadotropic hypogonadism."	Deltakende forskning, (community based participatory research), spørreskjemaundersøkelse Studien forteller hvordan internasjonale fageksperter, forskere og pasienter fra mange ulike land sammen utviklet undervisningsmaterie for pasienter	Europeisk Pasientnettverk og flere ulike online communities for personer med congenital hypogonadotropisk hypogonadisme	Pasientnettverkene samarbeidet og brukte sosiale medier for å finne frem til hvilke områder som var viktig for pasientene å få informasjon om, Dette ble diskutert sammen med fagpersoner, kunnskap fra forskning og kliniske retningslinjer. En samarbeidsmodell for input og feedback ble benyttet i prosessen med utvikling av informasjonen. Seks validerte algoritmer ble brukt for å undersøke lesbarhet av det ferdige produktet. Forståelighet, praktisk nytte og brukbarhet ble undersøkt med en spørreundersøkelse og validert spørreskjema: Patient Education Materials Assessment Tool . For å nå flest mulig pasienter ble en web basert plattform brukt for spørreskjemaundersøkelsen.	Studien sier lite om hvordan brukermedvirkningsprosessen ble erfart, men beskriver at brukerrepresentantene ikke kun hadde en rådgivende rolle, men var aktive medvirkere i hele prosessen og pasienters kunnskap og ekspertise ble benyttet på lik linje med fagpersonenes Beskriver utfordringer i prosessen med å utforme pasientinformasjonen og finne en balanse mellom hva pasientene og fagpersonene mente var viktig å ha med. I denne prosessen var det nyttig med fysiske møter for å komme frem til en konsensus på diskusjoner som var vanskelig å løse via e-post	Samarbeid mellom fagpersoner, forskere og pasientorganisasjoner bidro til at informasjonen ble relevant og nyttig. Både fagpersoner og pasientrepresentanter bidro i oversettelse og kulturell validering til 20 ulike land. Det ble også laget planer for spredning av informasjonene til både fagpersoner og pasienter. Undervisningsmaterielet oppnådde målsettingen om lesbarhet på sjetteklassenivå (6th grade). Online spørreundersøkelse til pasienter hvor 63/159 (40%) i aktuell målgruppe svarte fikk gode resultater, hvor 94,2 % opplevde informasjonen som forståelig og 90.5 opplevde den som nyttig – at den hjalp dem å finne ut hva de skulle gjøre for å mestre sykdommen.
d'Udekem Y., m.fl. (2018).	Oppsummering av erfaringer	Brukerorganisasjonsrepresentant og pasienter med og foreldre til	Fonta- registeret i Australia og New Zealand har utviklet en modell for å involvere pasienter og	Studien sier lite om hvordan brukermedvirkningsprosessen ble erfart, men mye	Brukermedvirkning ga flere muligheter for kunnskapstranslasjon. Et eksempel var å

<p>"Involvement of patients and parents in research undertaken by the Australian and New Zealand Fontan Registry."</p>		<p>barn med Fontan sirkulasjon, en alvorlig medfødt hjertefeil</p>	<p>foreldre til barn med diagnosen Fontan sirkulasjon i forskning. Modellen inkluderer brukermedvirkning I den overgripende styringskomiteen, og også flere ulike kommunikasjonskanaler for å muliggjøre tidlig deling av forskningsfunn før fagfelleevaluering og vitenskapelig publisering. I tillegg mulighet for brukermedvirkning og feedback i alle deler av forskningsprosessen.</p>	<p>om fordeler med å involvere pasienter og deres familier: -Får input på hvordan budskap om behandling og prognose formidles til pasienter og familier -Viktig for å evaluere gjennomfør-barheten i planlagte studier, gode måter å kommunisere på og tidsramme for studiene - Mulighet for å dele erfaringer imellom familier ved å Bygge opp et fellesskap ved etablering av facebookside, undervisningsdager og brukerforening har gitt -Nye forskningsideer med input fra pasientene -Økt deltakelse i forskningsprosjekter -Forskningen får større betydning</p>	<p>inkludere unge medisinerstudenter som selv var operert for Fontan sirkulasjon og få de til å presentere studier på internasjonale kongresser for legespesialister (kardiologer), noe som ga større engasjement blant fagpersonene.</p>
<p>Forsythe LP, m.fl.. (2014). "A systematic review of approaches for engaging patients for research on rare diseases."</p>	<p>Systematisk oversiktsartikkel . Målsetningen var å sammenfatte evidens om involvering av pasienter og andre stakeholders i forskning om sjeldne diagnoser, inkludert rollen pasientorganisasjoner for sjeldne diagnoser har for å fremme pasientsentrert forskning.</p>	<p>Pasientrepresentanter (ikke angitt fra hvilke pasientorganisasjoner), var involvert i et ekspertpanel sammen med fagpersoner og forskere</p>	<p>Ekspertpanelet bestående av pasientrepresentanter, fagpersoner og forskere ga input på forskningsspørsmål, definisjon av sjeldne diagnoser, søkestrategi, grå litteratur referanser, tolkning av resultater og råd for videre forskning.</p>	<p>De 35 inkluderte studiene, har minimalt med data om hvordan brukermedvirkningen har foregått eller ble opplevd. Flere viste til at brukermedvirkning krevde betydelig tid og ressurser fra både forskere og de som var engasjert som partnere – medvirkere. Involvering av pasienter og andre relevante stakeholders viste potensiale til å fremme forskning på relevante spørsmål og helseområder som var viktige for personer med en sjelden diagnose.</p>	<p>De inkluderte studiene hadde lite fokus på I hvilken grad brukermedvirkningen hadde betydning for forskningsformidling og spredning av forskningsfunn, Men en antar at det å involvere pasientorganisasjoner også vil bidra til større deling av forskningsfunn, noe som er spesielt viktig med små og sjeldne diagnoser.</p>
<p>Landy, D. C., m.fl. (2012). "How disease advocacy organizations participate in clinical</p>	<p>Tverrsnitts studie, med spørreskjemaundersøkelse Målsetting var å karakterisere</p>	<p>Ledere i 104 av 201 (62%) pasientorganisasjoner for sjeldne genetiske tilstander</p>	<p>Lite informasjon om at brukerrepresentanter har vært involvert i utarbeidelse av forskningsspørsmål og spørreskjema, og formidling av denne</p>	<p>Av de 104 deltakende organisasjonene hadde 91% deltatt i å rekruttere deltakere, 75% å samle inn data, 60% finansiell støtte</p>	<p>Mange brukerorganisasjoner rapporterte at de hadde en aktiv rolle I forskningsformidling, 89% delte forskningsfunn via sin</p>

<p>research: a survey of genetic organizations.</p>	<p>hvordan bruker/pasientorganisasjoner deltar i forskning og hvordan de opplever sitt bidrag</p>	<p>diagnoser svarte på undersøkelsen</p>	<p>undersøkelsen. Ledere fra 7 brukerorganisasjoner var med å pilotteste spørreskjema.</p> <p>Artikkelen beskriver ikke at de spesielt har spurt om på hvilken måte eller brukermedvirkningen var organisert i de ulike studiene brukerorganisasjonene hadde vært involvert i, men 70 (56%) har rapportert at de bidro i studie design</p>	<p>til forskere og 56% bidro i studie design.</p> <p>De fleste (68%) opplevde at brukerorganisasjonens deltakelse hadde økt mengden av forskning om deres tilstand og at forskere bør forespørre pasientorganisasjoner om rekruttering av deltakere og i valg av forskningstema.</p>	<p>website/ nyhetsbrev, 60% organiserte eller støttet vitenskapelige konferanser og 30% hadde presentert på vitenskapelige konferanser.</p> <p>Artikkelen gir ikke informasjon om i hvilken grad brukerorganisasjonene samarbeidet med forskerne om forskningsformidlingen og hvilke metoder som var brukt for å få til samarbeidet eller hva slags type formidlingsmåter som var brukt.</p>
<p>Merkel P A., m fl. (2016).</p> <p>"The partnership of patient advocacy groups and clinical investigators in the rare diseases clinical research network."</p>	<p>Tverrsnitts studie, online spørreskjema.</p> <p>Mål var å undersøke hvilken rolle brukerorganisasjoner spiller i det internasjonale nettverket for forskning om sjeldne diagnoser RDCRN</p>	<p>Forskere fra 17 forskningsconsortier i RDCRN og brukerrepresentanter fra 28 av 76 brukerorganisasjoner tilknyttet RDCRN</p>	<p>Beskriver ikke brukermedvirkning i utforming av denne undersøkelsen, men har spurt både forskere og brukerrepresentanter om på hvilken områder de har vært involvert i brukermedvirkning i forskning og hvilken betydning det har hatt.</p>	<p>Denne studien sier ikke så mye om hvordan brukermedvirkningsprosessene ble organisert og erfart. De rapporterer at det var stor enighet mellom forskere og brukerorganisasjoner om at samarbeid om forskningsprosjekter og i forskergrupper vanligvis hadde positiv effekt. Et flertall av brukerorganisasjonene rapporterte at de var aktivt involvert i å vurdere studieprotokoller, definere forskningsspørsmål og studiedesign. På spørsmål om hva som har vært de viktigste fordelene med å samarbeide om forskning har 14 av 28 brukerorganisasjoner svart mulighet til å delta på forskergruppemøter, 13 av 28 – det kunne bidra i rekruttering til studier. Forskerne beskriver det å få hjelp til pasientrekruttering som den viktigste fordelene.</p>	<p>Både et flertall av forskere og av brukerorganisasjoner (>90%) rapporterte at de samarbeidet om å spre informasjon om forskningsaktivitet og undervisningsmateriale til bruker/pasientmiljø, via møter, sosiale medier, nettsider, nyhetsbrev osv.</p>

				De viktigste utfordringene for brukerorganisasjonene var det å kunne bidra inn i utvikling av studieprotokoller, mens for forskerne var den største utfordringen å få studiefinansiering.	
Pinto D., m fl.. (2016). "The involvement of patient organisations in rare disease research: a mixed methods study in Australia."	En mixed metode studie med: analyse av brukerforenings websider, online spørreskjemaundersøkelse og kvalitative intervjuer Målsetting var å undersøke hvilke erfaring ledere for brukerforeninger for sjeldne diagnoser har med å fremme og bidra til forskning	Ledere for 61 brukerorganisasjoner for sjeldne diagnoser besvarte spørreundersøkelsen, 10 av disse deltok i kvalitative intervjuer	Lederne for 3 brukerorganisasjoner var involvert i pilot-teste spørreskjema, det rapporteres ikke om annen brukermedvirkning i utarbeidelsen av denne studien.	Et flertall av brukerorganisasjonene (92%) rapporterte at det å støtte eller fremme forskning var et viktig mål for organisasjonen. Et flertall hadde også deltatt i forskning på ulike vis, blant annet ved finansiering og lobbyvirksomhet. 26% hadde initiert og utført egne forskningsprosjekter. De som svarte på spørreskjema var i hovedsak mer fornøyd enn misfornøyd med i hvilken grad forskere hørte på råd og forslag fra brukerorganisasjonene. Flere rapporterte at forskeres motvilje mot å jobbe sammen med pasientorganisasjoner eller ta deres ideer på alvor var en barriere for brukerorganisasjonenes medvirkning og involvering. Lederne for brukerorganisasjonene beskriver flere utfordringer med deltakelse i forskning: - Mangel på finansielle ressurser og kunnskap, både om finansiering og om forskning - Manglende interesse for forskning på	Syttini brukerorganisasjonsledere svarte at organisasjonene hadde bidratt i spredning av forskningsresultater, både ved å ha informasjon om pågående studier og forskningsresultater på websider og sosiale medier. Artikkelen gir ikke informasjon om i hvilken grad organisasjonene har samarbeidet med forskere om tilpasning av eller spredning av informasjon.

				<p>sjeldne diagnoser hos fagpersoner, og også i institusjoner for forskningsfinansiering.</p> <ul style="list-style-type: none"> - Utfordringer med å finne deltakere – behov for registre for sjeldne diagnoser 	
--	--	--	--	---	--

B. Studier om brukermedvirkning i forskningsformidling – ulike diagnoser, ikke sjeldne

<p>Camden, C., et al. (2015). "Engaging stakeholders in rehabilitation research: a scoping review of strategies used in partnerships and evaluation of impacts."</p>	<p>Scoping review</p> <p>Målsetting: Å beskrive hvordan medvirkning fra ulike involverte parter (stakeholders) er foretatt og evaluert i rehabiliteringsforskning.</p>	<p>I de 19 artiklene som er inkludert i artikkelen er personer med funksjonshemming (13) og deres familier (6), oftere inkludert i medvirkning enn andre «stakeholders» som fagpersoner, beslutningstakere mm</p>	<p>Konkluderer med at det er behov for at studier i større grad og på en bedre måte beskriver metode og strategier for medvirkning fra «stakeholders, og også metoder for evaluering av brukermedvirkningen (og rapportering av resultater fra evalueringen).</p>	<p>De inkluderte studiene beskrev strategier for brukermedvirkning i ulike deler av forskningsprosessen – fra å identifisere forskningsspørsmål, samle inn data, analysere og tolke resultater til spredning av resultater og implementering av kunnskap. Ingen av studiene evaluerte strategiene de hadde brukt for medvirkning.</p> <p>Kun 3 studier hadde samlet inn data for å evaluere faktorer som påvirket medvirkning, og kun 6 studier hadde samlet inn data for å evaluere faktorer som evaluerte resultatet av medvirkningen.</p> <p>Artikkeloppsommeringen beskriver strategier for identifisering av relevante medvirkere – stakeholders., tilsvarende også strategier for opplæring og veiledning av medvirkere.</p> <p>Faktorer som påvirket medvirkning var:</p>	<p>Få av studiene beskrev konkrete strategier for spredning og implementering av resultater.</p>
---	--	---	---	--	--

				<ul style="list-style-type: none"> - God rekruttering og veiledning av medvirkere - Klargjøre forventninger og skape en god samarbeidskultur, unngå forskerspråk osv. - Ansvars og maktdeling - Tid, finansiering og ressurser 	
<p>Ehde, D. M., et al. (2013). "Developing, testing, and sustaining rehabilitation interventions via participatory action research."</p>	<p>Deskriptiv literatur review (ikke systematisk review).</p> <p>Målsetting: Fremme integrering av deltagende forskning (Participatory action research) for å bedre utvikling, spredning og implementering av rehabiliteringsforskning</p>	<p>I de fem studiene de har inkludert beskrives brukermidvirkning ifht studier om pasienter med traumatisk hodeskade, Pagets disease of bone, diabetes, bevegelsesinnknninger og mild demens</p>	<p>Beskriver ikke brukermidvirkning i arbeid med artikkelen. Beskriver at flere av studiene beskrev brukermidvirkning, både fra pasienter, pårørende og andre «stakeholders» i ulike deler av forsknings/metodeimplementerings prosessen</p>	<p>Beskriver i liten grad evaluering og hvordan forskere og medvirkere opplevde prosessen. Rapporterte fordeler av brukerinvolvering var økt relevans av funn, bedre kunnskapstranslasjon og disseminering.</p>	<p>Kun en artikkel (Langston et al 2005) beskriver brukermidvirkning i spredning av funn</p>
<p>Ellis, L. E. and N. E. Kass (2017). "How are PCORI-funded researchers engaging patients in research and what are the ethical implications?"</p>	<p>Kvalitative intervjuer. Målsetting: å karakterisere pasient-medvirkning i forskning finansiert av PCORI</p>	<p>Deltakere i studien var 19 PCORI støttede forskere og 33 pasienter/ brukermidvirkere engasjert i 18 av de samme 19 prosjektene</p>	<p>Beskriver ikke brukermidvirkning for denne studien, men beskriver ulike måter/ metoder for brukermidvirkning i de 18 inkluderte studiene. Den vanligste brukermidvirkningsmåten var medvirkning i referansegrupper (16 studier). Flere brukte også mange ulike måter for medvirkning.</p>	<p>Effekt av medvirkningen beskrives av både forskere og brukermidvirkere. Begge grupper beskriver økt relevans og gjennomførbarhet, at forskningen ble mer målrettet og akseptabel for deltakerne, og at forskningskvaliteten økte.</p> <p>Dilemmaer som trekkes frem er at:</p> <ul style="list-style-type: none"> - rekruttering av brukermidvirkere ofte ikke var systematisk, de rekrutterte ofte de de kjente - brukermidvirkning var ikke så utbredt tidlig i forskningsprosessen, med mindre mulighet til å påvirke forskningsagenda og spørsmål 	<p>Berører også disseminasjon, men ikke veldig detaljert. Pasienter beskrev at spredning av kunnskapen som prosjektet og forskningen gir blir mer gyldig og effektiv på grunn av brukermidvirkningen.</p>

				- metode og hyppighet av medvirkning hadde ikke nødvendigvis påvirkning på hvilken innflytelse brukermidvirkerne fikk.	
Forsythe, L., et al. (2017). "Methods and impact of engagement in research, from theory to practice and back again: early findings from the Patient-Centered Outcomes Research Institute."	Tverrsnitt studie, spørreskjema med kvantitative data og frittekstspørsmål (kvalitative data). Målsetting: beskrive kortsiktig og langsiktig effekt (impact) av brukermidvirking.	B: Forskere i PCORI støttede prosjekter og deres forskningspartnere (pasienter/forbrukere, pårørende og fagpersoner) besvarte spørsmål ved års rapportering etter år 1 og år 2 av prosjektet	I arbeid med denne artikkelen/ studien beskrives ikke brukermidvirking. DE 124 forskjellige prosjektene som det presenteres data fra beskriver ulike metoder og strategier for brukermidvirking i prosjektene. Den hyppigste fasen for brukermidvirking var ved utvelgelse av målemetoder. (75%).	Beskriver i liten grad hvordan brukermidvirkingsprosessen ble opplevd av de ulike partene. Effekt av medvirkning beskrevet av både forskere og partnere var blant annet mer fokus på hva som var viktig for pasientgruppen i studieprosesser og målsettinger/ utfallsmål, bedre studiedesign, bedre strategier for rekruttering	Prosjektene er ikke ferdigstilt, så mange rapporterte ikke enda erfaringer med formidlings og implementeringsfasen. Ved evaluering etter år 2 rapporterer (30%) av partnerne og 53% av forskerne brukermidvirking i spredning av forskningsfunn. De indikerer at brukermidvirking har effekt i analyse og tolkning i funn i bedre og mer effektive måter for målrettet informasjon til spesifikke målgrupper, nye måter å spre resultater og økt troverdighet av funn. Konkrete eksempler var at brukermidvirkerne var medforfattere på fagartikler, på presentasjoner på møter/ konferanser for fagpersoner, deltok i paneldiskusjoner og presentasjoner på konferanser, skrev nyhetsbrev, intervjuer med media osv.
Price, A., et al. (2018). "Frequency of reporting on patient and public involvement (PPI) in research studies published in a general medical"	Oversiktsartikkel i En analyse av studier publisert i BMJ open mellom 01.06. 2013 og 31.05.2016. Målsetting: evaluere hvor mange studier som rapporterer	Selve studier har tre brukermidvirkere som forfattere (pasienter med langvarige medisinske tilstander) I de 17 studiene som ble vurdert var det i hovedsak pasientrepresenta	De beskriver metode for brukermidvirking i denne studien og i hvilken fase av forskningsprosessen det var medvirkning i de 17 inkluderte studiene.	Har ikke undersøkt og evaluert hvordan brukermidvirkingsprosessen ble opplevd i studiene de evaluerte. Fant at før innføring av BMJ policy om patient and public involvement i 2014 rapporterte 1 av 189 studier (1%) brukermidvirking, mens fra 2015 – 2016	En av de inkluderte studiene hadde brukermidvirking i analysefasen, 3 i skrivning av vitenskapelig artikkel og 3 studier i utvikling av materiale for spredning av forskningsresultater, blant annet ved å tilpasse produktene til ulike målgrupper

<p>journal: a descriptive study."</p>	<p>medvirkning fra pasienter og andre (public), og hva slags type medvirkning som rapporteres etter at dette ble krav i tidsskriftet</p>	<p>nter fra flere ulike pasientgrupper som var bruker-medvirkere</p>		<p>rapporterte 16 av 152 studier det (16%).</p> <p>Dvs. rapporteringen økte, men var fortsatt lav og med varierende kvalitet. De inkluderte studiene rapporterte brukermedvirkning i flere faser v forskningsprosessen., den hyppigste var i vurdering av relevante måleinstrumenter (44%) . Studien gir ikke data på fordeler og utfordringer av brukermedvirkning – da også rapporteringen av metoder for og evaluering av brukermedvirkning var svært varierende i de inkluderte studiene</p>	<p>og bidra til spredning i ulike kanaler.</p>
<p>Schipper, K., et al. (2016). "Strategies for disseminating recommendations or guidelines to patients: a systematic review."</p>	<p>Systematisk review</p> <p>Evaluere hvilke strategier for disseminering/spredning som er brukbare for å informere og opplære pasienter om anbefalinger – guidelines</p>	<p>De inkluderte studiene har hatt brukermedvirkning med pasienter fra like diagnosegrupper</p>	<p>Metode for brukermedvirkning er i liten grad beskrevet</p>	<p>Beskriver ikke evaluering av brukermedvirkning – hverken opplevelse eller fordeler og utfordringer. Men beskriver at de 21 inkluderte studiene viste at nøkkelfaktorer for en vellykket disseminering og implementering av guidelines var: å ha en plan for spredning og implementering, involvering av pasienter i hele utviklingsprosessen av anbefalingene og bruk av mange ulike formidlingskanaler og verktøy</p>	<p>Brukermedvirkning i utvikling og spredning av anbefalinger/guidelines gjorde implementering mer effektiv, Gjorde guidelines og produkter mer forståelig for målgruppen. Omhandler egentlig ikke brukermedvirkning i forskning, med i implenetering av guidelines</p>
<p>Shippee, N. D., et al. (2015). "Patient and service user engagement</p>	<p>Systematisk oversikt</p> <p>Målsetting Utvikle et evidensbasert</p>	<p>En patient advisory group ga input i arbeidet med studien</p>	<p>41 studier inkludert i oversiktsartikkelen ga noe input på utvikling av rammeverket, men de fleste var ikke systematiske reviewer og</p>	<p>Studien foreslår på bakgrunn av noe varierende forskningsbelegg et rammeverk for brukermedvirkning i</p>	<p>Fase III Translasjonsfasen ble beskrevet i ulike studier 1) Spredning - disseminering-</p>

<p>in research: a systematic review and synthesized framework."</p>	<p>rammeverk for pasient og tjenestebruker-medvirkning ved hjelp av systematisk oversikt og kartlegging av omgivelser</p>		<p>presenterte ikke egne forskningsdata. Isteden ga søk i andre kilder, eksempler på forskningsprosjekter mm nyttig informasjon</p> <p>Studiene beskrev tre faser for brukermedvirkning i forskningsprosessen</p> <p>Fase 1 . Forberedelsesfasen, fase 2 gjennomføringsfasen, fase 3 translasjonsfasen,</p>	<p>forskning med 4 hovedkomponenter:</p> <p>1. Inkludering av pasienter og tjenestebrukere i forskningsprosessen (viktig med tidlig involvering! viktig å involvere de riktige medvirkere – som er interessert, som kan delta aktivt, potensiale for at brukerrepresentantene kan medvirke aktivt).</p> <p>2. Bygge gjensidige og likeverdige samarbeidsforhold med brukerrepresentantene som teammedlemmer. Rolleavklaring viktig.</p> <p>3. Samlæringsprosess. Viktig med opplæring i forskningsprosessen for brukerrepresentantene, forskerne trenger å lære mer om deltakelse og medvirkning</p> <p>4. Revurdering og feedback., kontinuerlig.</p> <p>Peker på at det er fortsatt behov for forskning som evaluerer ulike metoder for brukermedvirkning med standardiserte metoder for rapportering og målemetoder.</p>	<p>12 studies – omhandler bla brukermedvirkning i tilpassing av språk og formidlingsmåte til målgruppen, og også spredning til aktuelle målgrupper via nyhetsbrev mm</p> <p>2) Implementering – 28 studier</p> <p>3) Clinical practical guidelines -1 systematisk review</p> <p>4) Evaluering – 5 studier, de fleste hadde ikke tilstrekkelig med detaljer og data til å gi gode svar på evaluering av effekt av brukermedvirkning.</p>
--	---	--	---	---	---

C- Studier om kunnskapstranslasjon og medvirkning hvor primært fagpersoner, forskere, beslutningstakere er medvirkere

<p>Case, A. D., et al. (2014). "Stakeholders' perspectives on community-based participatory research to enhance</p>	<p>Kvalitativ deltakende forskning (Community-based participatory research (CBPR)),</p>	<p>Forskere, Administrasjon Teamledere og direktører Consumer researchers (personer med som er brukere av mental helse helsetjenester)</p>	<p>De ønsket å få input på kvalitet av tjenester og fornøydhet i et community mental health senter – hvor tidligere årlige tilfredshetsundersøkelser avdekket at 92 % av brukerne av senteret var fornøyd. Lederen ønsket</p>	<p>Beskriver godt hva de gjør og nytten av brukerledede fokusgrupper, men er veldig lite konkrete på beskrivelse av utfordringer og nytteverdi, synes ikke de har data på evaluering av</p>	<p>Relevant artikkel som omhandler både forskere og brukere, inkludert noe analyse og formidlig, samproduksjon. Målsetting at brukernes rolle skal bidra til å forbedre helsetjenesten</p>
--	---	--	---	---	--

<p>mental health services."</p>	<p>Målsetting: Bidra til diskusjonen om verdien av consumer-involved CBPR</p>		<p>å få tak i hva de som ikke var fornøyde mente. Derfor ble CBPR prosjektet igangsatt og en gruppe av 4 brukere – consumers ble ansatt for å holde fokusgrupper for å finne ut av nåværende oppfatning av tjenestene, omgivelser og komme med anbefalinger for forbedring. De beskriver konkret om hvordan medvirkning med ulike grupper som var stakeholders i senteret (ledelse, forskere og tjenestebrukere) ble gjort</p>	<p>medvirkning, eller evaluering av tjenester og spredning av informasjon</p>	<p>Samtidig er det usikker om den handler om brukermedvirkning i utvikling av tjenestetilbudet innholdsmessig, selv om dette er noe av målsettingen. Lite konkrete bidrag til forståelsen av brukermedvirkning</p>
<p>Gagliardi, A. R., m fl. (2016). "Integrated knowledge translation (IKT) in health care: a scoping review."</p>	<p>Scoping review: Syntetisere studier som empirisk evaluerer IKT og identifisere kunnskapshull</p>	<p>Beskriver ikke brukermedvirkning i arbeid med denne studien. De har søkt etter studier som evaluerer IKT intervensjoner som involverer forskere og beslutningstakere på organisasjons eller policy making nivå</p>	<p>Metoder for hvordan brukermedvirkning har foregått er kun overfladisk omtalt I de 13 studiene de har inkludert, ingen av metodene var basert på teori.</p> <p>Møter og presentasjoner på konferanser eller workshops var den hyppigst rapporterte måten for samhandling.</p> <p>Noen studier rapporterte hvilke faser medvirkning foregikk, beslutningstakere var oftest involvert i konsept og planleggingsfasen (10 studier) og i disseminering og implementering (7 studier).</p> <p>I alle inkluderte studier var IKT aktiviteter mangelfullt beskrevet, evaluert og rapportert</p>	<p>Flere studier rapporterte positive effekter – outcomes av IKT bl.a:</p> <ul style="list-style-type: none"> - Økt kompetanse hos forskere og beslutningstakere - Beslutningstakere begynte å verdsette forskning - Økt verdsettelse av samarbeidsprosesser - Økt relevans av forskningen - Økt felles forståelse av språk, arbeidsmåter, behov og hinder <p>Flere studier rapporterte hva som fremmet IKT prosessen, bl.a:</p> <ul style="list-style-type: none"> - Flere og varierte muligheter for samhandling - En tilnærming i faser for å utvikle et felles språk - Enighet og avklaring av mål, roller og forventninger - Etablere partnerskap og samarbeid tidlig i prosessen <p>Flere studier rapporterte hva som hemmet IKT prosessen, bl.a:</p>	<p>Artikkelen beskriver lite detaljer om brukerinvolvering i forskningsdisseminasjon og implementering. De har inkludert 7 studier som beskriver at de har hatt det.</p>

				<ul style="list-style-type: none"> - Motstridende behov og prioritinger hos deltakerne - Mangel på kunnskap og kompetanse om IKT prosessen - Mangel på finansiering og insentiver for IKT - Deltakere som er travle med mange ansvarsområder 	
<p>Ryan, S. E., m fl. (2015). "Towards Advancing Knowledge Translation of AAC Outcomes Research for Children and Youth with Complex Communication Needs."</p>	<p>Rapport av erfaringer fra en workshop for fagpersoner fra 20 pедиатрике klinikker for alternativ kommunikasjon og forskere.</p>	<p>Medvirkere her var fagpersoner og forskere</p> <p>I forberedelse til workshopen hadde to rådgivingsgrupper av foreldre og ungdom med behov for alternativ og supplerende kommunikasjon gitt sine råd om hvilke tjenestesystemer og helse relaterte utfall de syntes var viktige.</p>	<p>Beskriver hvordan en via en workshop jobbet frem en felles utvikling av spørsmål for forskning og utvikling av tjenester for barn med komplekse kommunikasjonsutfordringer og behov.</p>	<p>Beskriver pasient/brukermedvirkning i rådgivingsgruppe og fagperson/forskersamarbeid i utvikling av videre forskningsspørsmål ved både presentasjoner av research evidence og brukeres råd + diskusjoner på workshopen.</p> <p>Det ble lagt planer for videre kunnskapstranslasjon</p>	<p>Har lite informasjon om brukermedvirkning i forskningsformidling og implementering. Men omhandler noe om brukermedvirkning i de andre fasene av forskningsprosessen.</p>
<p>Sibbald, S. L., et al. (2014). "Research funder required research partnerships: a qualitative inquiry."</p>	<p>Mixed-methods. Tverrsnittsstudie med spørreskjema og kvalitative telefonintervjuer. Målsetting: evaluere erfaringer til forskere og knowledge users i kunnskapstranslasjonsprogrammer finansiert av det Kanadiske instituttet for helse forskning</p>	<p>Både forskere og kunnskapsbrukere i programmene ble spurt om sine erfaringer. Det fremgår ikke eksplisitt hvem kunnskapsbrukerne, kan se ut som om det er mest fagpersoner og beslutningstakere.</p>	<p>Beskriver ikke veldig konkret metoder for medvirkning for denne studien eller de analyserte prosjektene.</p>	<p>Beskriver at både forskere og kunnskapsbrukere opplevde samarbeidsprosesser som nyttig og meningsfylt. Viktige barrierer var manglende avklaring av roller, organisasjonsendringer og kulturforskjeller, også finansiering. Fasilitatorer var å ha etablerte samarbeidsforhold, samkjøring av mål, erfarne forskere og kommunikasjon. 273 svarte at finansiering som krevde partnerskap mellom forskere og kunnskapsbrukere hadde mer impact – effekt enn</p>	<p>Har lite informasjon om brukermedvirkning i forskningsformidling.</p>

				<p>forskningsprosjekter hvor det ikke var krav. Impact ble beskrevet på ulike områder:</p> <ul style="list-style-type: none"> - Kulturendring – partnerskapet bygde bro - Mer relevant forskning - Mer effektiv bruk og nytte av forskningen- kunnskapsbrukerne fikk mer eierskap til resultater og til å ta kunnskap i bruk. 	
<p>Sibley, K. M., m fl. (2017). "A descriptive qualitative examination of knowledge translation practice among health researchers in Manitoba, Canada."</p>	<p>Kvalitativ studie.</p> <p>Målsetting: undersøke og forstå erfaringene til helseforskere involvert i kunnskapstranslasjonsprosjekt i Manitoba, Kanada.</p>	<p>Informanter var 26 forskere involvert i forskning på ulike felt, biomedisinsk, klinisk, helse-systemer og tjenester, sosial, kulturell, omgivelser og folkehelseforskning.</p>	<p>Beskriver ikke brukermidvirkning i arbeid med studien. Noen av informantene har rapportert at de har jobbet sammen med stakeholders gjennom forskningsprosessen; de beskriver metoder som rådgivingsgrupper, bygging av partnerskap og samarbeidsdiskusjoner. Noen få beskrev bruk av participatory action research med mer aktiv pasientmedvirkning.</p>	<p>De konseptene respondentene hyppigst beskrev ved kunnskapstranslasjon var: - bruk av forskning for å endre eller forbedre helsetjenester, spredning av resultater ved slutten av forskningsprosessen, og det å jobbe sammen med stakeholders for å identifisere forskningsbehov, spørsmål, studiedesign og tolkning av resultater.</p> <p>Halvparten av deltakerne beskrev KT som enten utfordrende, tidkrevende, og eller kompleks, de beskrev behov for spesifikk kompetanse., Det hyppigst betydningen av KT var relatert til konteksten av relevant og nyttig forskning.</p>	<p>Alle deltakerne beskrev at de brukte ulike metoder for spredning av kunnskap – disseminering. Målgruppe for strategiene var både tradisjonelle akademiske publikum (konferanser, reviewer osv) og ikke akademiske målgrupper (videoer, sosiale medier, websider osv). Flere av deltakerne pekte på en mangel på kunnskapstranslasjons praksis erfaringer som pasientinvolvering spesielt utenfor tradisjonelle forskerkanaler.</p>
<p>Vingilis, E., et al. (2003). "Integrating knowledge generation with knowledge diffusion and utilization: a case study analysis of"</p>	<p>Kvalitativ studie. Målsetting: beskrive integrering av praksis og teori for å ta i bruk og spre kunnskap (knowledge diffusion and utilization KDU),</p>	<p>Beskriver at det er Consortiets (forskere?) sin aktivitet de har studert.</p>		<p>Studien beskriver at CAREMH har tatt i bruk ulike strategier for å øke KDU capacity:</p> <ol style="list-style-type: none"> 1) viewing research as a means and not as an end; 2) bringing the university and 	<p>Beskriver I liten grad brukermidvirkning i forskningsformidling</p>

<p>the Consortium for Applied Research and Evaluation in Mental Health (CAREMH)."</p>	<p>via en casestudie analyse av CAREMHs aktiviteter</p>			<p>researcher to the community; 3) using participatory research methods; 4) embracing transdisciplinary research and interactions; and 5) using connectors.</p>	
--	---	--	--	--	--