

MASTEROPPGAVE

Emnekode: PE323L

Kandidatnummer: 6, 9

Navn: Marthe Fagerheim Nergaard & May Beate Oppgård

Tilbud rettet mot språk og kommunikasjon
til personer med Prader-Willis syndrom
- Fra foreldres og en logopeders perspektiv

Dato: 15.05.2023

Totalt antall sider: 115

Sammendrag

Oppgavens tema og bakgrunn: Prader-Willis syndrom (PWS) er en sjelden diagnose med et sammensatt vanskebilde, der en av vanskene kan være språkforstyrrelser i ulik grad. I Norge har vi rettigheter som skal sørge for at vi får hjelp med språket hvis vi har behov for det. Oppgaven bygger på en forståelse av at språk er essensielt for å ha muligheten til å bli inkludert i det sosiale fellesskapet. Et godt språktilbud kan bidra til å utjevne sosiale forskjeller og gi personer med PWS økte muligheter for inkludering og sosial deltakelse, mestringsfølelse og bedre psykisk helse.

Hensikt: Hensikten med oppgaven er å undersøke hva slags tilbud personer med Prader-Willis syndrom får rettet mot språk og kommunikasjon, sett fra foreldrenes- og en logopeders perspektiv. Vi ønsker å bidra på forskningsfeltet med en avhandling som ser nærmere på det konkrete tilbudet som denne gruppen får og om tilbudet tilsvarer det de har rett på.

Metode: Problemstillingen er undersøkt ved hjelp av en kombinasjon av kvalitativ og kvantitativ forskning. Vi sendte først ut en spørreundersøkelse til foreldre til barn med PWS. Deretter inviterte vi fire foreldre og en logoped til individuelle intervju.

Hovedfunn: Gjennom undersøkelsen har det utpekt seg fem hovedfaktorer som forteller noe om hva slags språktilbudet personer med Prader-Willis syndrom får. *Informasjon* eller mangel på dette, har vist seg å spille en viktig rolle for å få på plass et språktilbud. Personer med Prader-Willis syndrom er forskjellige akkurat som alle andre, og har derfor ulike *behov*. De ulike behovene kan gjøre det vanskelig å forutsi hva denne gruppen trenger, som kan få betydning for planleggingen og gjennomføringen av selve *språktilbudet*. Kvaliteten på tilbudet beror blant annet på *fagpersonenes kompetanse*. *Tilgangen på logopeder* har til slutt vist seg å være utfordrende, på grunn av generelt få logopeder og at det oppleves geografiske forskjeller i tilbudet.

Konklusjon: Det ser i stor grad ut til at personer med PWS mottar et tilbud rettet mot språk og kommunikasjon. Men vi har funnet store variasjoner i hvor god informasjon foreldrene får, hvilke utfordringer og behov for hjelp barna deres har, hva tilbudet innebærer, hvor fornøyde foreldrene er og hvor god tilgang det er på logoped.

Nøkkelord: Prader-Willis syndrom, PWS, språk og kommunikasjon, språkforstyrrelser, rettigheter, språktilbud, logopedtilbud.

Abstract

Theme and background: Prader-Willi syndrome (PWS) is a rare diagnosis with a complex set of difficulties, including varying degrees of language disorders. In Norway, we have rights to ensure that we get help with our language needs. This thesis is based on an understanding that language is essential to be included in the social community. A language service of good quality can help equalize social differences and give people with PWS increased opportunities for inclusion and social participation, sense of mastery and better mental health.

Purpose: The purpose of the thesis is to investigate what kind of service people with Prader-Willi syndrome receive aimed at language and communication, seen from the parents' and a speech-language pathologist's perspective. We want to contribute to the field of research with a dissertation that looks more closely at the specific treatment this group receives and whether the treatment corresponds with what they are entitled to.

Method: The issue has been investigated using a combination of qualitative and quantitative research methods. First, we sent out a survey to parents of children with PWS. Then we invited four parents and a speech-language pathologist to individual interviews.

Main findings: Through the investigation, five main factors have emerged that tell about the kind of language provision people with Prader-Willi syndrome receive. *Information*, or the lack of it, has turned out to play an important role. The different *needs* of people with Prader-Willi syndrome can make it difficult to predict what this group requires, which can have an impact on the planning and implementation of the *language provision* itself. The quality of the service depends, among other things, on the *expertise of the professionals*. *Access to speech-language pathologists* has also proved to be challenging, due to generally few speech-language pathologists and geographical differences in the provision of services throughout the country.

Conclusion: Mainly it seems that people with PWS do receive a service aimed at language and communication. But we have found great variations in the quality of the information the parents receive, challenges and needs their children have, what the service entails, how satisfied the parents are and how good access there is to a speech-language pathologist.

Keywords: Prader-Willi syndrome, PWS, language and communication, language disorders, rights, language services, speech therapy services.

Forord

For halvannet år siden havnet to ferske logopedstudenter på samme praksisplass og oppdaget raskt et felles ønske om å skrive masteroppgave sammen med noen. Vi ble enige om å samarbeide, men hadde lenge til gode å finne et tema. Mange ulike områder fra logopediens brede fagfelt var oppe til diskusjon. Men det var først når vi ble presentert for mulige temaer fra ulike forelesere gjennom første studieår, at vi klarte å bestemme oss. Et tema om logopedtilbudet til personer med Prader-Willis syndrom (PWS) presentert av Kristian Emil Kristoffersen, fanget oppmerksomheten vår umiddelbart.

To spennende og lærerike studieår og en masteroppgaveprosess går nå vemodig mot slutten. Det er mange som skal og bør takkes for deres bidrag og deltakelse.

Vi vil begge rette en stor takk til vår fantastiske veileder, Kristian. Takk for at du fulgte oss så tett opp gjennom hele prosessen og alltid var tilgjengelig for selv det minste spørsmål. Dine gode tilbakemeldinger satte i gang refleksjonsprosessen i to, til tider kaotiske hoder.

Vi ønsker også å takke lederen i Landsforeningen for PWS, Ina Slapgaard Aarhus, for hjelpen til rekruttering av informanter til både spørreundersøkelsen og intervjuene. Stor takk til alle foreldrene som meldte sin interesse for deltakelse, til alle som svarte på spørreundersøkelsen og alle som stilte opp på intervju. Studien hadde ikke vært mulig å gjennomføre uten dere.

Takk til familie og venner, for god hjelp og støtte. Spesielt til dere som tok dere tid til å teste ut og gi tilbakemeldinger på pilot-skjemaet til spørreundersøkelsen.

Takk for at du har bidratt til en fin masteroppgaveperiode, Marthe, bestående av masse hard jobbing, men også god mat, latter og fine opplevelser.

Takk for denne fantastiske reisen, May Beate. For alle gode diskusjoner, treff og turer som også involverte deilig mat.

May Beate Oppgård & Marthe Fagerheim Nergaard

Bodø, 8. mai 2023

Innholdsfortegnelse

Sammendrag	i
Abstract	ii
Forord	iii
Innholdsfortegnelse	iv
1 Innledning	1
1.1 Prader-Willis syndrom	1
1.2 Betydningen av språk for inkludering og deltakelse	3
1.3 Lover og forskrifter med betydning for et språktilbud	4
1.4 Oppgavens oppbygning	5
2 Teorigrunnlag	6
2.1 Språk og kommunikasjon hos personer med PWS	7
2.1.1 Språkutvikling	7
2.1.2 Forskjell i ekspressive og reseptive evner	7
2.1.3 Pragmatiske evner	8
2.1.4 Språklydsvansker	9
2.1.5 Taleflyt	10
2.2 Språktilbud - fagpersoner og tilnærming til behandling	11
2.2.1 Logopedens oppgaver	11
2.2.2 Kunnskapsbasert praksis som tilnærming	12
2.3 Mulige fokusområder for tale- og språkintervensjon	13
2.3.1 Generelle anbefalinger	13
2.3.2 Alternativ og supplerende kommunikasjon (ASK)	14
2.3.3 Språkintervensjon rettet mot munnmotorikk og språklydsvansker	15
2.3.4 Språkintervensjon med hovedvekt på pragmatiske evner	16
2.3.5 Rådgivning som del av intervensjonen	17
2.4 Kunnskapsstatus om språktilbud til personer med PWS	18
2.5 Problemstilling og oppgavens hensikt	19
2.6 Oppsummering	20
3 Metode	21
3.1 Studiens design og vitenskapelige tilnærming	21
3.2 Spørreundersøkelse	22
3.2.1 Spørreskjemaet	22
3.2.2 Utvalg og rekruttering til spørreundersøkelse	23
3.3 Kvalitativt intervju	24
3.3.1 Intervjuguide	24
3.3.2 Utvalg og rekruttering til intervju	25
3.3.3 Gjennomføring av intervjuer	25
3.3.4 Transkribering	26
3.4 Analyse av data	26
3.4.1 Analyse av spørreundersøkelsen	26

3.4.2 Analyse av intervjuer	27
3.5 Forskningens kvalitet	31
3.5.1 Pålitelighet.....	31
3.5.2 Validitet.....	32
3.5.3 Generaliserbarhet	32
3.5.4 Forskningsetiske dilemmaer og hvordan disse ivaretas	32
3.6 Oppsummering	33
4 Resultater	34
4.1 Spørreundersøkelsen	34
4.1.1 Informasjon om respondentenes barn	34
4.1.2 Barn som ikke har fått tilbud.....	37
4.1.3 Barn som har fått tilbud.....	38
4.1.4 Tilbudet	40
4.1.5 Hva respondentene syntes om tilbudet.....	41
4.2 Intervjuer	45
4.2.1 Faktorer vedrørende barnet	46
4.2.2 Faktorer vedrørende fagpersoner	50
4.2.3 Faktorer på systemnivå.....	52
4.3 Oppsummering	56
5 Drøfting	57
5.1 Informasjon	57
5.2 Behov for hjelp med språk og kommunikasjon.....	58
5.3 Arbeidsmetoder	60
5.3.1 Alternativ og supplerende kommunikasjon (ASK).....	60
5.3.2 Munnmotorisk trening.....	61
5.3.3 Artikulasjonstrening	63
5.3.4 Språklig bevissthet	64
5.3.5 Pragmatiske øvelser.....	65
5.3.6 Taleflyt	67
5.3.7 Foreldrerådgivning	68
5.4 Fagpersoners kompetanse.....	69
5.5 Tilgang på logopeder.....	72
5.6 Oppsummering	74
6 Avslutning	75
6.1 Konklusjon	75
6.2 Styrker og svakheter ved oppgaven.....	77
Litteraturliste.....	79
Figur-, tabell og bildeoversikt	86
Vedlegg	87

Antall ord: 26.966

1 Innledning

Denne masteroppgaven omhandler hva slags tilbud rettet mot språk og kommunikasjon personer med Prader-Willis syndrom (PWS) får. Oppgaven bygger på forståelsen av at et funksjonelt språk har en avgjørende betydning for muligheten til å delta og bli inkludert i samfunnet. Barn og voksnes rettigheter til hjelp med språket og kommunikasjonen dersom de har behov for det, spiller en viktig rolle. I det følgende innleder vi oppgaven med områder som bidrar til forståelse av oppgavens tema, herunder en kort presentasjon av Prader-Willis syndrom, språkets betydning for inkludering og deltakelse og lover og forskrifter som har betydning for opprettelsen av et tilbud rettet mot språk og kommunikasjon.

1.1 Prader-Willis syndrom

Prader-Willis syndrom er et medfødt, genetisk betinget syndrom, som ifølge internasjonale anslag forekommer i 1 pr. 10 000-30 000 fødsler (Debladis et al., 2019, s. 1; Dimitropoulos et al., 2013, s. 193; Pansy et al., 2019, s. 17). PWS er en sjelden diagnose sett i norsk sammenheng, da en diagnose regnes som sjelden i Norge når færre enn 1 pr 2 000 har diagnosen (Frambu, 2019). Frambu kompetansesenter for sjeldne diagnoser (2020) anslår at det fødes mellom to og fire barn med diagnosen i Norge hvert år.

Syndromet skyldes et manglende aktivt område på kromosom 15, nedarvet fra far. I dette området befinner det seg et pregingscenter som regulerer (preger) gener, slik at det normalt bare er gener nedarvet fra far som er aktive (Frambu, 2020). Det er tre årsaker til at barn får denne diagnosen: ved ca. 70 % av tilfellene er årsaken parental delesjon (DEL), hvor området på kromosom 15 som skulle vært nedarvet fra far er slettet. Ca. 25 % av tilfellene av PWS er assosiert med maternell uniparental disomi (mUPD), hvor to kopier av kromosom 15 er nedarvet fra mor, og ingen fra far. Færre enn 5 % får diagnosen grunnet pregingsfeil, som skyldes at det såkalte pregingscentret på fars kromosom 15 ikke fungerer slik det skal (Dimitropoulos et al., 2013, s. 193-194; Frambu, 2020).

Syndromet ble første gang identifisert i 1956 (Prader et al., 1956). På den tiden ble det benyttet kliniske kriterier for å stille diagnosen, mens gentesting har tatt over som metode i nyere tid. Variasjonen av kjennetegn som assosieres med PWS er stor og presenterer seg forskjellig ved ulike alder. Typiske kjennetegn er sykkelig slapp muskulatur (hypotoni), overdreven sultfølelse (hyperfagi), nedsatt produksjon av kjønnshormoner (hypogonadisme),

karakteristiske ansiktstrekk, kort vekst, mild til moderat kognitiv funksjonsnedsettelse, atferdsvansker og språk- og kommunikasjonsvansker (Dimitropoulos et al., 2013, s. 194; Dykens et al., 2017, s. 64; Lewis et al., 2002, s. 285).

Ut over nevnte kjennetegn, er det også variasjoner mellom de forskjellige subtypene av syndromet. Ifølge Ho og Dimitropoulos (2010, s. 108) viser forskningen at subtypene mUPD og DEL har ulik risiko for å utvikle psykiske utfordringer, samt ulik frekvens og alvorlighetsgrad for problematferd. Personer med subtypen mUPD har oftere mer alvorlige psykiske utfordringer enn de med subtypen DEL, herunder økt risiko for autistiske trekk, psykose og søvnforstyrrelser. I tillegg viser personer med subtypen mUPD høyere score av verbal IQ, mildere atferdsproblemer og større forekomst av autismespekterforstyrrelser (ASF) (Dimitropoulos et al., 2013, s. 194). Personer med subtypen DEL har derimot økt forekomst av hudplukking, neglebiting, humørsvingninger, surmuling, abstinenser, matstjeling, hamstring og overspising. I tillegg til større alvorlighetsgrad av symptomer på ADHD, insistering på likhet (rigid, rutinemessig og ritualistisk atferd) og atferdsvansker. Forskningen indikerer også forskjeller innen språk og kommunikasjon mellom de genetiske subtypene, selv om dette er mindre utforsket (Dimitropoulos et al., 2013, s. 194).

Syndromet medfører en rekke utfordringer for både personen som har tilstanden, foreldrene og andre omsorgspersoner. Det finnes ingen kur for PWS, men en tverrfaglig tilnærming til behandling blir anbefalt på grunn av syndromets betydelige omfang (Ho & Dimitropoulos, 2010, s. 110). Å komme tidlig i gang med oppfølging fra blant andre fysioterapeut, klinisk ernæringsfysiolog og logoped er viktig. Ulike former for hormonbehandling er også aktuelt; her har for eksempel veksthormonbehandling vist god effekt på vekst og kroppssammensetningen hos personer med PWS (Dykens et al., 2017, s. 64). Slik behandling anbefales i Helsebibliotekets nyfødteveileder (Klingenberg et al., 2021) for barn med PWS, med anbefalt oppstart ved fire til seks måneders alder. Dykens et al. (2017) har funnet at veksthormon også har positiv effekt på språket og kommunikasjonen hos barn med PWS. Etter slik behandling viste barna betydelig høyere verbal og sammensatt IQ, samt tilpasningsdyktige kommunikasjons- og dagliglivsferdigheter, sammenlignet med barn med PWS som ikke hadde mottatt slik behandling. Samtidig hadde barn som fikk behandlingen før fylte ett år, høyere ikke-verbal og sammensatt IQ enn barn som fikk behandlingen mellom ett og fem år.

1.2 Betydningen av språk for inkludering og deltakelse

Språk kan betraktes som et komplekst symbolsystem bestående av ulike deler som virker sammen på intrikate måter. Det kan også betraktes som et kommunikasjonsverktøy man kan benytte for å formulere og utveksle tanker og meninger, og til å etablere og opprettholde sosiale relasjoner (Kristoffersen, 2005, s. 19). På denne måten blir språket et verktøy for læring, for å forstå oss selv, andre og verden rundt oss og for å kunne ta del og bli inkludert i et sosialt fellesskap.

Inkludering handler om å være sammen med andre, dele erfaringer, bygge varige vennskap, bli anerkjent som en del av samfunnet og bli savnet når man ikke er der (Allan, 2008, referert i Skogdal, 2015, s. 218). Det handler om å delta på like vilkår, ha like muligheter og opplevelsen av å ha reell innflytelse i sitt miljø. Man kan unektelig påstå at uten et funksjonelt språk, vil inkludering være utfordrende, om ikke umulig å realisere.

Inkludering og mulighet til deltakelse er viktige samfunnsmessige og utdanningspolitiske prinsipper og verdier i Norge. I 1991 forpliktet Norge seg til å følge FNs konvensjon om barns rettigheter, som blant annet skal sikre at barn med funksjonsnedsettelse får verdige, selvstendige liv, med muligheten for aktiv deltakelse i samfunnet (Forente nasjoner, 1989, artikkel 23). Inkludering forstått som en demokratisk rett til å delta i fellesskapet, ble innført i utdanningssammenheng i forbindelse med verdenskonferansen om spesialundervisning i Salamanca i 1994 (Arnesen, 2012, s. 15). Stortingsmelding 18, *Læring og fellesskap - Tidlig innsats og gode læringsmiljøer for barn, unge og voksne med særlige behov* (2010-2011) presiserer også at den inkluderende barnehagen og skolen er basert på verdier og et menneskesyn med grunnleggende respekt for menneskerettighetene og menneskers likeverd. Flere, relativt nye arbeider tar sikte på å ivareta menneskerettighetene og mål om inkludering, likestilling og likeverd. Her kan vi for eksempel nevne Likeverdsreformen (Meld. St. 25 (2020-2021)), strategiplanene *Et samfunn for alle* (Kulturdepartementet, 2019) og *Nasjonal strategi for sjeldne diagnoser* (Helse- og omsorgsdepartementet, 2021) og Stortingsmelding 8 om menneskerettigheter for personer med utviklingshemming (Meld. St. 8 (2022-2023)).

Tidlig innsats, inkludering og likeverdige muligheter for deltakelse og læring uavhengig av forutsetninger er sentrale temaer i Stortingsmelding nr. 6 (2019-2020), *Tett på – tidlig innsats og inkluderende fellesskap i barnehage, skole og SFO*. Her påpekes det at barns språkferdigheter er av stor betydning for deres trivsel og følelse av mestring i hverdagen. Barn som strever med språket faller ofte utenfor fellesskapet, og har behov for hjelp og støtte

til å delta i lek og til å utvikle språklig og sosial kompetanse parallelt (St. Meld. 6, 2019-2020, s. 28). Ansatte med god kompetanse og nære relasjoner til barna trekkes frem som avgjørende for å skape et inkluderende og godt utdanningsløp for alle (s. 8). Stortingsmeldingen viser derimot til Nordahl-rapporten (Nordahl, 2018, s. 18) når det fastslås store kvalitetsforskjeller i tilbudet til barn med behov for særskilt tilrettelegging. Mange av disse barna møter voksne uten relevant kompetanse og får ikke den hjelpen de trenger.

1.3 Lover og forskrifter med betydning for et språktilbud

I Norge har vi rettigheter som skal sørge for at vi får hjelp med språket dersom vi har behov for det. Ifølge helse- og omsorgstjenesteloven (2011, § 3-2) har hver og en kommune ansvar for å tilby utredning, diagnostisering og behandling, samt sosial, psykososial og medisinsk habilitering og rehabilitering til de som oppholder seg i den aktuelle kommunen.

For barn under opplæringspliktig alder er det barnehageloven (2005) som gjelder, uansett om barnet går i barnehage eller ikke. Her har barn med særlig behov rett til spesialpedagogisk hjelp. Hjelp og støtte til språklige og sosiale ferdigheter nevnes spesifikt (§ 31). Den spesialpedagogiske hjelpen skal omfatte tilbud om foreldrerådgivning og inkludere nødvendig opplæring i bruk av alternativ og supplerende kommunikasjon (ASK) for barn som helt eller delvis mangler funksjonell tale (jf. §§ 31 og 39, 2005).

For barn i opplæringspliktig alder er det opplæringsloven (1998) som gjelder. Her har elever som ikke har eller ikke kan få et tilfredsstillende utbytte av den ordinære undervisningen, rett til spesialundervisning (§ 5-1, 1998). Dette inkluderer også opplæring i og bruk av ASK for elever som helt eller delvis mangler funksjonell tale (§ 2-16, 1998). Opplæringsloven (1998) er også gjeldende for voksne. Her har voksne med særlig behov for opplæring for å kunne utvikle eller holde ved like grunnleggende ferdigheter, rett til opplæring (§ 4A-2, 1998). Slike ferdigheter kan inkludere evne til å mestre dagliglivets gjøremål, samt grunnleggende kommunikasjons-, lese- og skriveferdigheter (Groven, 2013, s. 88). Også voksne med behov for ASK har rett til opplæring i og bruk av dette (§ 4A-13).

Spesialpedagogisk hjelp og tilpasset opplæring gis på bakgrunn av en sakkyndig vurdering utarbeidet av kommunens pedagogisk-psykologiske tjeneste (PPT) (Barnehageloven, 2005, § 33; Opplæringsloven, 1998, § 5-6). Det er ingen av de nevnte lovene som angir at spesialpedagogisk hjelp, spesialundervisning eller helse- og omsorgstjenester skal gis av logoped. Men logopedtjenester kan likevel være essensielt i forbindelse med disse, og kan bli

anbefalt av PPT i barnas sakkyndige vurderinger eller anbefales av lege som del av behandlingen. Kun folketrygdloven (§ 5-10, 1997) nevner logoped spesifikt, men da i forbindelse med stønad til dekning av undersøkelse og behandling av logoped. Ved slik behandling stiller loven krav om henvisning fra lege, samt at behandlingen må være av vesentlig betydning for personens sykdom og funksjonsevne.

1.4 Oppgavens oppbygning

Vi har delt inn oppgaven i seks hovedkapitler. Etter innledningen presenteres oppgavens teorigrunnlag, tilhørende kunnskapsstatus på feltet og problemstilling i kapittel 2. I kapittel 3 presenterer vi de ulike metodene vi har benyttet under datainnsamlingen og analysearbeidet. I kapittel 4 presenterer vi våre funn fra metodene vi har brukt. Videre følger drøftingen av våre funn i kapittel 5. I kapittel 6 konkluderer vi oppgaven og presenterer til slutt noen styrker og svakheter ved denne.

2 Teorigrunnlag

Dette kapitlet beskriver den teoretiske forankringen for oppgaven vår. Her redegjør vi for teorier og begreper i oppgaven og forskning relatert til temaet. I delkapittel 2.1 kommer vi nærmere inn på språket til personer med PWS. Delkapittel 2.2 belyser hvilke fagpersoner som jobber med språkforstyrrelser og tar opp kunnskapsbasert praksis som mulig fremgangsmåte i arbeid med sjeldne syndromer. Mer spesifikke fokusområder for tale- og språkintervensjon for personer med PWS presenteres i delkapittel 2.3. I delkapittel 2.4 oppsummerer vi kunnskapsfeltet på området, og til slutt presenteres oppgavens problemstilling i delkapittel 2.5.

Ved sjeldne diagnoser finnes det gjerne lite forskningsbasert kunnskap. Vi har derfor ikke satt en grense ved hvor gamle artikler vi har valgt å ta med i oppgaven, men primært forsøkt å holde oss til forskningsartikler publisert etter år 2000. For å finne relevant forskning om PWS har vi benyttet Oria, Eric, CINAHL with full text, Pubmed og Google Scholar. Vi brukte søkeord i gruppe A for seg selv og i kombinasjon med gruppene B, C og D, som illustrert i tabell 1. Ekskluderingsprosessen har bestått av å fjerne litteratur som ikke var fagfellevurdert og som ikke hadde relevans for oppgaven vår. Eksempelvis er “PWS” også en forkortelse for “people who stutter”, som gjorde at søkene samlet inn noe litteratur om stamming, uten direkte sammenheng med Prader-Willis syndrom, andre sjeldne diagnoser eller tilbud rettet mot språk og kommunikasjon for denne gruppen.

A	Prader-Willis syndrom / Prader-Willi syndrome / Prader-Willi / PWS
B	Language / Language development / Language disorders / Speech / Speech development / Speech disorders
C	Speech therapy / Speech pathology / Speech language pathologist / SLP / Speech and language therapy / Speech and language assessment
D	Communication / Alternative and augmentative communication

Tabell 1: Søkeord

2.1 Språk og kommunikasjon hos personer med PWS

Følgende presenterer vi forskningen som vi har funnet på språk og kommunikasjon hos personer med PWS, og vansker med språk og kommunikasjon som diagnosen kan medføre.

2.1.1 Språkutvikling

Barn med PWS har gjerne forsinket språkutvikling, der tidlige tegn kan være mindre babling og sen utvikling av ordforrådet (Dimitropoulos et al., 2013, s. 194; Lewis et al., 2002, s. 293). En kasstudie av Atkin og Lorch (2007, s. 273) som undersøkte språkutviklingen til en tre år gammel gutt med PWS, stemmer overens med dette. Resultatene viste at guttens språk var forsinket i forhold til hans kronologiske alder, spesielt i tilegnelsen av grammatikk (som omfatter morfologi og syntaks) og ordforråd, som stemte overens med nivået av kognitiv evne. Funnene tydet på at språkutviklingen var forsinket, men forløp likevel på en måte som lignet på språkutviklingen hos normalutviklede barn.

Studien til Zyga og Dimitropoulos (2020) undersøkte interaksjonen mellom foreldre og barn med PWS, sammenlignet med foreldre og barn med typisk utvikling. Studien fant at små barn med PWS var betydelig mindre sosialt interesserte og kompetente i samspillet enn barna med typisk utvikling (2020, s. 81). Foreldrene og barna med PWS viste mindre engasjement med hverandre under samhandlingen, men det var ikke forskjell i foreldrenes respons til barna. Studien oppsummerte med viktigheten av å erkjenne at hypotoni kan ha påvirket barnas evne til å engasjere seg i felles oppgaver med forelderen, som å vise ulike ansiktsuttrykk og imitere forelderens oppførsel (Zyga og Dimitropoulos, 2020, s. 82).

I tillegg til generelt forsinket språkutvikling rapporteres det om vansker innen artikulasjon, narrative ferdigheter, ekspressivt og reseptivt språk, språkforståelse, samtaleferdigheter og pragmatiske evner (Dimitropoulos et al., 2013, s. 194; Kleppe et al., 1990, s. 307-308; Lewis et al., 2002, s. 293). Lewis et al. (2002, s. 292) sin studie av 55 individer med PWS trakk frem at alle individene hadde tale- og språkforstyrrelser, som er med på å belyse hvor vanlig språkforstyrrelser er hos mennesker med PWS.

2.1.2 Forskjell i ekspressive og reseptive evner

Dimitropoulos et al. (2013, s. 193) viste at språkevnen til personer med PWS er mer svekket enn det som er forventet basert på kognitiv evne. Samtidig viste denne studien betydelige

forskjeller i ekspressivt språk på tvers av subtypene, der personer med subtypen mUPD viste høyere ekspressive enn reseptive språkevner. Dette er noe logopedene bør være spesielt oppmerksom på, da andre fagpersoner eller lærere kan feiltolke større uttrykksevne for høyere forståelse og generell funksjon (Dimitropoulos et al., 2013, s. 200).

At vansker varierer mellom subtypene underbygges senere av Dimitropoulos et al. (2019, s. 4441) som undersøkte sosial kognisjon etter subtype, sammenlignet med ASF. Resultatene fra studien hevdes å være de første til å vise mangler i sosial kognitiv evne tidlig i utviklingen til barn med PWS; altså deres evne til å behandle sosial informasjon og regulere følelser. Studien viste at barn med subtypen mUPD har flere likheter med barn med ASF på enkelte egenskaper. Barn med subtypen DEL hadde et høyere funksjonsnivå enn barn med subtypen mUPD. Ifølge Dimitropoulos et al. (2019, s. 4452-4453) indikerte slike funn at (1) sosial kognitiv evne er redusert tidlig i utviklingen hos barn med PWS, at (2) vanskene varierer etter subtype, og at (3) forskjellene kan være viktige for tidlig intervensjon, som bør skreddersys til subtypes evnenivå og behov. At barn med subtypen mUPD viser likheter med barn med ASF, kan vi også se i forskningen til Debladis et al. (2019, s. 9), som fant at barn med mUPD viste lignende resultat som barn med ASF når det gjaldt ansiktsgjenkjenning. Å skille mellom subtypene så tidlig som mulig blir trukket frem som avgjørende for at rehabiliteringen skal ha størst mulig innvirkning på barnas sosiale kommunikasjonsevner.

2.1.3 Pragmatiske evner

Pragmatiske ferdigheter omhandler språk i bruk og samspill med andre og viser seg ofte å være forsinket hos personer med nevrogenetiske syndromer, som kan utløse gjennomgripende effekter på senere språk- og kommunikasjonsutvikling (Hamrick & Tonnesen, 2019, s. 1).

Flere forskningsartikler peker på vansker innenfor pragmatiske evner hos personer med PWS. Personer med PWS viser ofte mangelfulle narrative ferdigheter, som har negativ påvirkning på hvordan de kommuniserer med andre (Ho & Dimitropoulos, 2010, s. 110). Ho og Dimitropoulos (2010) skriver at de dårlige språkkunnskapene kan være resultat av mangler i auditiv korttidshukommelse, dårlige temporale sekvenseringsferdigheter og dårlige auditive prosesseringsevner. I tillegg har personer med PWS vansker med å opprettholde et samtaleemne, vise passende empatisk tale og turtaking i en samtale (Ho & Dimitropoulos, 2010, s. 110).

Whittington og Holland (2011, s. 82) mener at vanskelighetene personer med PWS har med å forholde seg til jevnaldrende med typisk utvikling, er koblet til manglende evner til å gjenkjenne følelser hos andre. I sin studie fant Strenilkov et al. (2020, s. 2) at personer med PWS har redusert evne til å tolke og reagere hensiktsmessig på sosial informasjon, som skaper problemer for deres sosiale funksjon. Sosial tilbaketrekning og manglende empati kan også hindre dem i å engasjere seg i relasjoner med jevnaldrende. Slike utfordringer relateres til vansker med å analysere ansikt og stemme, de to viktigste kildene til informasjon i kommunikasjonen. Også denne studien fant forskjeller blant to av subtype, hvor deltakere med mUPD viste særlige problemer med å gjenkjenne stemmer og andre lyder (som instrumenter og lyder i miljøet) (Strenilkov et al., 2020, s. 6).

I likhet fant Feldman og Dimitropoulos (2014, s. 279) at personer med PWS har begrenset evne til ansiktsprosessering, som fører til vansker med å lese ansiktsuttrykk. Direkte blikkontakt var i tillegg spesielt vanskelig for personer med subtype mUPD. Videre fant Famelart et al. (2020, s. 12-13) at emosjonelle uttrykksevner hos barn med PWS er svakere enn hos barn på samme kognitive nivå med typisk utvikling. Slike vansker ser ut til å være mer karakteristisk for personer med PWS og mer relatert til atferdsforstyrrelser, fremfor kognitiv svekkelse. Det emosjonelle uttrykket spiller derfor en stor rolle i vansker med emosjonell regulering og sosial tilpasning, da det relateres til forstyrrelser i kroppskontroll, motorisk koordinasjon og kommunikasjon.

2.1.4 Språklydsvansker

Språklydsvansker hos personer med PWS har blitt rapportert av en rekke forskere (Bellon-Harn, 2005; Defloor et al., 2002; Kleppe et al., 1990; Lewis et al., 2002; Miller & Plager, 2014; Åkefeldt et al., 1997). Barn med språklydsvansker er ifølge Dodd (2005, s. 22) en svært heterogen gruppe, som betyr at vanskene kan vise seg på ulike måter og ha ulike årsaker. Dodd (2005, s. 9) presenterte i 1995 en modell for å klassifisere barns språklydsvansker, bestående av fem kategorier for differensialdiagnose med undertypene: artikulatoriske vansker (vansker på fonetisk nivå), fonologisk forsinkelse (avvik i fonologiske prosesser som forekommer i barns typiske utvikling), konsistent fonologisk vanske (avvik i fonologiske prosesser som ikke er vanlige i barns utvikling), inkonsistent fonologisk vanske (vanske tilknyttet fonologisk planlegging) og verbal dyspraksi (vansker med motorisk planlegging).

Det har tidligere virket å være enighet om at språklydsvansker for personer med PWS i stor grad skyldes hypotoni (Kleppe et al., 1990; Åkefeldt et al., 1997). Dette tilsier artikulatoriske vansker på fonetisk nivå, ifølge Dodds kategorisering. Åkefeldt et al. (1997, s. 308) beskriver ulike munnmotoriske vansker koblet til muskelsvakheter, for eksempel problemer med å heve tungespissen, trekke leppene tilbake og utføre raske vekslende tungebevegelser; vansker som kan bidra til utydelig artikulering. Saeves et al. (2011, s. 310) beskriver i sin studie flere orofasiale vanskeligheter personer med PWS kan ha, inkludert karakteristiske ansiktstrekk i spedbarnsalder med liten munn, tannavvik og seigt spytt. Dette er faktorer som kan bidra til upresis artikulering og tale.

I studien til Defloor et al. (2002) ble taleprøver av 13 personer med PWS samlet inn og grundig analysert. I studien ble det blant annet gjort en fonetisk analyse som fant at deltakerne hadde alle målspråkets vokaler i inventaret sitt og at konsonantinventaret nesten var komplett hos de fleste (Defloor et al., 2002, s. 266). Det ble i tillegg utført en analyse av tilstedeværelsen av fonologiske prosesser hos deltakerne. Studien fant at artikuleringen hos personer med PWS vanligvis var svekket, men fremhevet en betydelig variasjon i vanskene, både i art og alvorlighetsgrad. Variasjonen kunne ifølge en korrelasjonsanalyse ha sammenheng med intelligensnivå og barnas kronologiske alder. Videre viste resultatene at utfordringene som reflekterte fonologiske vansker, i større grad avtok med økende alder, mens utfordringene som reflekterte fonetiske vansker ble tydeligere med økende alder (Defloor et al. 2002, s. 275).

Miller og Plager (2014, s. 166) rapporterte i sin studie at tale- og språkforsinkelser er svært vanlige hos barn med PWS, i tillegg til høy forekomst av både ekspressive og reseptive forsinkelser. Studien trekker frem at dyspraksi kan være svært utbredt blant denne gruppen og årsak til noen av tale- og språkforsinkelsene. Resultatene i studien fant at 14 av 30 barn hadde vansker som var konsistente med verbal dyspraksi.

2.1.5 Taleflyt

Grad av taleflyt varierer fra en person til en annen, og ingen tale er helt uten forstyrrelser. Samtidig har man en tendens til å ikke legge så godt merke til de fleste brudd som oppstår i taleflyten, selv om denne består av et betydelig antall forstyrrelser (Ward, 2018, s. 5). Campbell og Hill (referert i Ward, 2018, s. 6) gjorde ikke forskjell på stamming og normal ikke-flyt når de i 1987 identifiserte en rekke forstyrrelser i taleflyten: 1) nøling, 2) fyllord, 3)

omformulering av setning eller frase, 4) uferdig ord, 5) repetisjon av en setning eller frase, 6) repetisjon av ord, 7) del-ords repetisjon, 8) forlengelser, 9) blokkeringer og 10) andre (som uregelmessig pustemønster). Alle disse forstyrrelsene i taleflyten (bortsett fra blokkeringer) kan defineres både som stamming og som naturlig ikke-flyt. Her er det alvorlighetsgraden av hvert brudd-øyeblikk, frekvensen av talebruddet, innsatsen eller spenningen som talebruddet fører med seg, som kan indikere forskjellen mellom normal og unormal taleflyt. Videre er blokkeringer, forlengelser og fonem- og delordsrepetisjoner karakteristiske for stamming, mens repetisjoner og omformuleringer av fraser assosieres mer som normal ikke-flyt (Ward, 2018, s. 6).

I 1981 pekte Branson (referert i Defloor et al., 2000, s. 94) på taleflytvansker hos én av sine 21 deltakere med PWS, mens Kleppe et al. i 1990 (s. 304) mener å ha observert taleflytvansker hos de fleste av sine 18 deltakere med PWS, der likevel bare én av disse ble ansett for å stamme. Studien til Defloor et al. (2000, s. 94) viser også at talen til personer med PWS ofte er ikke-flytende. Studiens 15 deltakere hadde taleflytvansker som inkluderte helordsrepetisjoner, delordsrepetisjoner, blokkeringer, forlengelser og pauser i ord (Defloor et al., 2000, s. 95). Vanskene fulgte derimot ikke det vanlige mønsteret for utviklingsmessig stamming, men hadde trekk som var både karakteristiske og ukarakteristiske for stamming (Defloor et al., 2000, s. 85). I likhet med stamming var taleflytvanskene mer utbredt i leksikalske ord enn i funksjonsord. De oppstod også oftere på de første ordene i en setning, og i første del av ordene. I motsetning til stamming, viste derimot ingen av deltakerne sekundære kjennetegn, som kroppslige bevegelser (Defloor et al., 2000, s. 94-95).

2.2 Språktilbud - fagpersoner og tilnærming til behandling

Vi kommer her nærmere inn på hvem som jobber med personer med språkforstyrrelser og hva som er logopedens arbeidsoppgaver. Vi sier også noe om hvordan fagpersoner som jobber med språkforstyrrelsene kan gå frem i arbeidet med personer med sjeldne diagnoser.

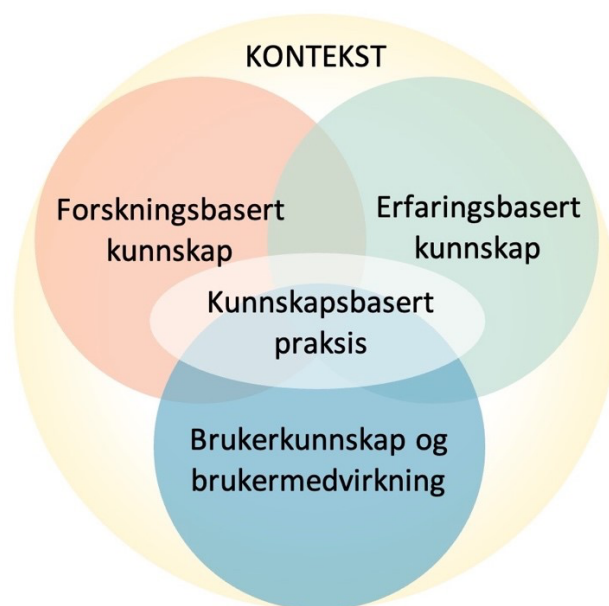
2.2.1 Logopedens oppgaver

Flere fagpersoner kan jobbe med en persons språkforstyrrelser, men spesialpedagoger og logopeder er kanskje de vanligste fagpersonene som jobber spesifikt med dette. Ifølge Norsk logopedlag (Norsk logopedlag, u.å.) varierer arbeidsoppgavene til logopedene mye etter hvor de er ansatt og hvilket fagområde de jobber innenfor, men skriver at logopeders oppgaver går

ut på å utrede og jobbe med mennesker som har ulike former for kommunikasjonsvansker, herunder stemmевansker, språk- og talevansker, taleflytvansker og svelgevansker. Logopeder skal tilby behandling og tjenester i form av forebygging, diagnostisering, undervisning og rådgivning. I denne sammenheng kan Sosial- og helsedirektoratets veileder “En god start - Veileder i diagnoseformidling ved funksjonshemming hos foster og barn” (Hummelvoll & Haug, 2002) nevnes som et nyttig verktøy for personer som møter foreldre i den sårbare perioden der diagnose utredes og stilles. Denne kan gi gode råd for hvordan man tidlig kan skape gode forutsetninger for foreldrenes opplevelse av mestring og håndtering av situasjonen rundt barnet. Logopeder samarbeider med andre fag- og yrkesgrupper, som lærere, barnehagelærere, spesialpedagoger, pedagogisk-psykologiske rådgivere og andre ansatte i skoleverket og skolens støttesystem, i tillegg til helsepersonell som leger, psykologer, fysioterapeuter, sykepleiere og ergoterapeuter. (Norsk logopedlag, u.å.).

2.2.2 Kunnskapsbasert praksis som tilnærming

Kunnskapsbasert praksis kan være en tilnærming til behandling når logopeder skal avgjøre hvordan de skal gå frem i møte med personer med en sjelden diagnose, som Prader-Willis syndrom. Som illustrert i figur 1, består denne arbeidsformen av tre hovedkomponenter: forskningsbasert kunnskap, erfaringsbasert kunnskap og brukerkunnskap og brukervedvirkning (Helsebiblioteket, 2021).



Figur 1: Kunnskapsbasert praksis (modell fra Helsebiblioteket, 2021).

Basert på nevnte komponenter, kan man skille mellom tre ulike typer kunnskap for å finne de beste tiltakene eller den beste behandlingen. Forskningsbasert kunnskap er kunnskap skapt med utgangspunkt i vitenskapelige metoder, med publikasjon i vitenskapelige bøker eller tidsskrifter, og gir ulik evidens for at behandling eller tiltak virker. Den beste kilden til evidens er her systematiske kunnskapsoversikter over randomiserte kontrollerte forsøk. Videre kan også enkeltstudier og kasusstudier gi relevant informasjon (Kristoffersen, 2016, s. 101). Som et supplement til forskningsbasert kunnskap, omfatter evidensbasert kunnskap kunnskapen som logopedene har tilegnet seg gjennom møter med brukere. I så måte blir logopedens erfaring sentral, da brukerperspektivet ivaretas ved at logopedene har inngående kjennskap til den som behandles. Brukerkunnskap og brukervedvirkning er siste kunnskapstype og innebærer at brukeren selv står i sentrum (Kristoffersen, 2016, s. 102). Det er individuelle forskjeller mellom personer med PWS, og ifølge Baker og McLeod (2004, s. 262) står hensynet til individet sentralt i kunnskapsbasert praksis. Forskningen benyttes ikke bare for å avgjøre behandlingsforløpet, men kombineres med klinisk erfaring for å skape gode avgjørelser skreddersydd for hvert individ. For logopeder som arbeider med personer med PWS betyr dette å søke etter nyere, gyldig og pålitelig forskning om PWS og logopedbehandling, og deretter bruke dette i forbindelse med egen klinisk erfaring for å velge og implementere passende behandlinger.

2.3 Mulige fokusområder for tale- og språkintervensjon

Logopedbehandling trekkes frem som nødvendig for denne gruppen i flere av forskningsartiklene vi har presentert (Kleppe et al., 1990, s. 307; Lewis et al., 2002, s. 293; Ho & Dimitropoulos, 2010, s. 114; Dimitropoulos et al., 2013, s. 200; Miller & Plager, 2014, s. 166). I denne delen vil vi derfor legge frem fokusområder for intervensjon som fremkommer som viktig i de ulike forskningsartiklene og annet vi mener er viktig å fremheve i denne sammenhengen. Vi vil også komme inn på noen konkrete tiltak.

2.3.1 Generelle anbefalinger

Blant de mer generelle anbefalingene pekes det på viktigheten av å forstå hvordan ulike trekk ved PWS kan påvirke språk- og taleevner. En slik forståelse gjør logopedene i bedre stand til å evaluere ulike utfordringer og planlegge hensiktsmessige intervensjonsstrategier (Lewis, 2006, s. 272). Etter hvert som det har blitt forsket mer på PWS, er det også flere som har

påpekt viktigheten av å forstå den komplekse sammenhengen mellom de ulike trekkene og de genetiske subtypene (Debladis et al. 2019, s. 9; Bellon-Harn, 2005, s. 462; Dimitropoulos et al., 2013, s. 200). Man bør få kunnskap om dette så tidlig som mulig for å kunne gi god og effektiv behandling rettet mot språk og kommunikasjon. Dette forutsetter at det å fastslå genetisk subtype er en del av rutinen for å stille diagnose, og at de aktuelle subtypene personene har, videreformidles til logopedene og andre fagpersoner som behandler dem.

Andre avgjørende faktorer som nevnes i litteraturen er tidlig utredning og målrettet intervensjon, samt hyppig behandling av logoped (Ho & Dimitropoulos, 2010, s. 114-115; Miller & Plager, 2014, s. 166; Hamrick & Tonnesen, 2019, s. 5). Logopedhjelp kan være nødvendig helt fra spedbarnsalder, og for enkelte gjennom hele livet (Lewis et al., 2002, s. 293; Dimitropoulos et al., 2013).

2.3.2 Alternativ og supplerende kommunikasjon (ASK)

Som tidligere nevnt er rettigheter rundt opplæring i og bruk av ASK nedfelt både i opplæringsloven (§ 2-16 og § 4A-2, 1998) og barnehageloven (§ 39, 2005). ASK er en samlebetegnelse for ulike kommunikasjonsformer, symbolsystemer og hjelpemidler man bruker enten som alternativ til eller som supplement for talespråket (Næss, 2015, s. 27). ASK kan gi mennesker som ellers ikke har mulighet, en måte å uttrykke seg på, muligheten til å være en del av et fellesskap, danne vennskap, oppleve mestring og utvikle sin sosiale kompetanse.

Det er få av forskningsartiklene som sier noe spesifikt om ASK i forbindelse med språktilbudet til personer med PWS. Men en kilde som omhandler ASK, inkluderer også en deltaker med PWS; en jente på 4,3 år (Binger & Light, 2007). Her forklares jentas språklige funksjon og de ASK-metodene hun benytter i korte trekk. Hun beskrives i studien å ha et begrenset lydrepertoar, omtrent 10 forståelige ord, dårlige munnmotoriske ferdigheter, vansker med planlegging av nødvendige motoriske bevegelser for å produsere tale, muskelsvakhet og reseptive språkforsinkelser. Studien rapporterte bruk av bevegelser og tegn, et databasert talende hjelpemiddel og forsøk fra barnet på å uttale målord, som metoder for å kommunisere ekspressivt (Binger & Light, 2007, s. 32).

Avhengig av barnets alder og alvorlighetsgraden av språkforstyrrelsene er det ulike hjelpemidler som kan tas i bruk. Logopeder kan bistå med å kartlegge behovet, finne hjelpemidler som passer til det enkelte barnet, søke om aktuelle hjelpemidler, bistå i

opplæring av personale, samt jobbe individuelt med barnet i forbindelse med innføring og bruk av ASK.

Tegn-til-tale er en form for ASK der man ikke er avhengig av et fysisk hjelpemiddel. Man bruker seg selv, hendene og kroppen, samtidig som man bruker tale (Rydeman, 2015, s. 161). Denne formen for ASK er aktuell som supplerende kommunikasjon for barn med forsinket tale. Rydeman (2015, s. 164) skriver at når en talende kommunikasjonspartner supplerer talespråket med tegn har det positive konsekvenser på flere områder: 1) talen blir automatisk langsommere, 2) samtalepartneren får færre ord å konsentrere seg om, da bare nøkkelord komplimenteres med tegn og 3) man øker muligheten for forståelse og innlæring av både tegn og det talte ordet. Også andre hjelpemidler kan være aktuelle, avhengig av barnets språklige fungering. Man kan skille mellom mer avanserte, digitale hjelpemidler og enklere hjelpemidler som kommunikasjonsbøker, tavler og symbolkort.

2.3.3 Språkintervensjon rettet mot munnmotorikk og språklydsvansker

Som beskrevet tidligere tar flere av studiene for seg språklydsvansker hos personer med PWS. Åkefeldt et al. (1997, s. 309) mener at funnene i deres studie, om at vanskene i stor grad skyldes hypotoni, gir støtte for at munnmotorisk stimulering og øvelser bør settes i gang så fort diagnosen PWS er etablert. Samtidig setter Røste (2018, s. 47) søkelys på hvorfor logopedier er så glade i munnmotorisk trening, og lurer på hvorfor vi øver på noe annet enn tale, når tale er målet. En av de mulige grunnene er at vi observerer redusert styrke i taleorganene. Her hevder Ludlow et al. (referert i Røste, 2018, s. 47) at vi kun bruker 10-20 % av styrken i f.eks. lepper og larynks når vi snakker, og at det ofte er presisjonen som er problemet og ikke styrken. Mye taler derfor for å fokusere mer på andre metoder, som å øve mer direkte på tydelighet i talen. For eksempel ved å redusere taletempo, overdrive talebevegelser, øke stemmevolum og å koble inn et kommunikasjonsaspekt i treningen (Røste, 2018, s. 47).

Da Miller og Plager (2014, s. 167) mener å ha funnet at vanskene kan skyldes verbal dyspraksi for noen, legges det vekt på viktigheten av at barn med PWS må utredes, diagnostiseres og behandles for dyspraksi så raskt som mulig. Kartleggingen kan derimot ikke utføres før barnas ekspressive språkferdigheter er utviklet nok til å gjøre en ordentlig vurdering av talen (s. 164). Videre fant studien at mange av barna hadde blitt behandlet med munnmotoriske styrkende øvelser, muligens fordi språklydsvanskene historisk sett har blitt

tilskrevet hypotoni. Behandlingen ble utført uten særlig hell, da denne ikke forbedrer talen til barn med dyspraksi (s. 166).

Funnene til Defloor et al. (2002) viser at vanskene kan ha både fonologiske og fonetiske årsaker. Resultatene viste at deltakerne hadde så å si komplett språklydsinventar på målspåket, som tilsa at de artikulerte bedre når de deltok i studien enn de vanligvis gjorde. Dette mener forskerne kan indikere at det er mulig å bedre artikulasjonen ved intensiv behandling og utnyttelse av en persons kapasitet (Defloor et al., 2002, s. 275). Statped (2022) skriver på sine nettsider at fonologisk intervensjon baserer seg på fonologi som system. Her er det begreper og mening som er i fokus, ikke motoriske aktiviteter, med målet om at barna skal oppdage systemet og generalisere over det, og på den måten få en mer forståelig tale.

2.3.4 Språkintervensjon med hovedvekt på pragmatiske evner

Flere av forskningsartiklene peker på at det er viktig å jobbe med sosiale kommunikasjonsferdigheter (Ho & Dimitropoulos, 2010; Rosner et al., 2004; Debladis et al., 2019). Rosner et al. (2004, s. 214) hevder at den mest effektive måten for å øke den sosiale kompetansen hos personer med PWS er å konsentrere intervensjonen mot den uhensiktsmessige atferden. Ho og Dimitropoulos (2010, s. 114-115) vektlegger også at språkintervensjon må skje samtidig som man håndterer atferdsproblematikk. Slike problemer begrenser pragmatisk språkevne og mange med PWS klarer ikke å prestere i hverdagen på nivå med sin antatte IQ, hvis deres emosjonelle og atferdsmessige problemer forblir ubehandlet (Ho & Dimitropoulos, 2010, s. 109-115). De presiserer at håndtering av atferdsproblemer er mest effektivt dersom det oppdages tidlig, da denne typen vansker kan øke med alderen (Ho & Dimitropoulos, 2010, s. 110). Videre mener Famelart et al. (2020, s. 13) at tidlig støtte og å fremme utviklingen av barnas uttrykksevner vil bidra til å bedre forholdet til foreldrene deres, noe som igjen er grunnleggende for barnas utvikling.

Av konkrete tiltak mener Garayábal-Heinze et al. (2012, s. 59) at taleintervensjon rettet spesielt mot narrativ produksjon, et område med *både* pragmatiske og lingvistiske aspekter, kan være svært verdifullt. Hamrick og Tonnesen (2019, s. 5) tar opp at personer med PWS sine relative styrker, for eksempel lese- og gåteløsningsferdigheter, som funnet av Ho og Dimitropoulos (2010), potensielt kan utnyttes under behandling for å legge vekt på sosial kommunikasjon og for å maksimere behandlingens effektivitet.

2.3.5 Rådgivning som del av intervensjonen

Rådgivning nevnes av American Speech-Language-Hearing Association (ASHA, 2016) som ett av åtte domener for logopediske tjenester der logopeden skal gi råd gjennom utdanning, rådgivning og støtte. Videre inkluderer rollen til logopeden interaksjoner med mennesker med emosjonelle reaksjoner, tanker, følelser og atferd som følger av det å leve med kommunikasjonsvansker, ernærings- og svelgevansker eller relaterte lidelser. For å rådggi personer med slike vansker, kan logopeden utdanne personen, familien eller andre omsorgspersoner om kommunikasjon eller ernærings- og svelgevansker. Videre kan logopeden tilby støtte individuelt og/eller i gruppe med andre i samme situasjon, diskutere, evaluere og adressere negative følelser og tanker tilknyttet vanskene. Når rådgivningsbehovet faller utenfor kommunikasjon, ernæring eller svelging, kan logopeden henvise personen til andre fagpersoner (ASHA, 2016). Som beskrevet under del 2.2, nevner også Norsk logopedlag (u.å.) rådgivning som en del av logopedens arbeidsoppgaver, da man som logoped må vurdere om tiltak bør være i form av forebygging, diagnostisering, undervisning og/eller rådgivning.

I en brasiliansk longitudinell kausstudie av Misquiatti et al. (2011, s. 79) fulgte de logopedbehandlingen til en gutt med PWS gjennom fire år. Der ble det blant annet lagt vekt på å tilby rådgivning til guttens mor og skole, for å bidra til barnets utvikling. Rådgivning nevnes som en relevant del av tilbudet også av Pansy et al. (2019, s. 20), som skriver at rådgivning av foreldre og tidlig tverrfaglig intervensjon kan forbedre tidlig utvikling og livskvalitet for små barn med PWS. Famelart et al. (2020, s. 13) skriver at å tilby et tidlig omsorgsprogram kan forbedre barnas forhold til foreldrene. Den tidligere nevnte studien til Zyga og Dimitropoulos (2020), som undersøkte dynamikken mellom barn med PWS og deres foreldre, tok også for seg foreldrestress relatert til denne interaksjonen. Resultatene viste at samspillet mellom barn med PWS og deres primære omsorgsperson ble hemmet av blant annet økt foreldrestress. Dette mener de viser et behov for tidlig intervensjon og å inkludere et fokus på både barn og foreldreprosesser for å øke kvaliteten på samhandlingen mellom foreldre og barn. Dette kan ha positive effekter både på barnets sosioemosjonelle utvikling, så vel som foreldrenes mentale helse og partnerforhold.

2.4 Kunnskapsstatus om språktilbud til personer med PWS

Forskning på PWS har primært fokusert på medisinske, genetiske og atferdsmessige aspekter ved diagnosen, mens kognitive aspekter, i tillegg til tale- og språkferdigheter har blitt mindre utforsket (Dimitropoulos et al., 2013, s. 193).

I del 2.1 og 2.3 har vi lagt frem noe av forskningen som er gjort på PWS. Hva slags språktilbud personer med PWS får, finnes det derimot lite om. Vi har derfor ikke klart å finne forskningsartikler som tar for seg for eksempel kvaliteten eller mengden på språktilbudet som disse barna får.

Én av studiene vi har funnet, ser derimot konkret på resultatene av logopedintervensjon rettet mot språk og kommunikasjon ved Prader-Willi syndrom. Kasusstudien til Misquiatti et al. (2011) fulgte gutten fra han var fire til åtte år. Logopedbehandlingen ble i dette tilfellet gitt i 50 minutter, to ganger per uke, og fokuserte på barnets kognitive utvikling, sosialisering og kommunikasjon, ut fra et pragmatisk perspektiv. Hovedmålet var å fremme språkets struktur og dermed øke forekomsten av tilsiktet kommunikativ atferd, med fokus på å fremme forståelse og funksjonell bruk av språket (Misquiatti et al., 2011, s. 79). Underveis jobbet de med dialogisk aktivitet, spill og aktiviteter rettet mot å utvikle narrative evner, oppmerksomhet og sosial interaksjon. Etter studien ble det foreslått å fortsette å jobbe med utvikling av samtaleevner og narrative evner, sammen med oppmerksomhet og sosial interaksjon. Studien beskriver logopedbehandlingen som effektiv for flere språklige evner, herunder fonologiske, syntaktiske, leksikalske og pragmatiske evner. Det vises også til forbedringer innen oppmerksomhetsevne, symbolsk lek, sosial kontakt og atferd, og dessuten en økning i vokabular, utvikling i muntlig forståelse og narrative evner. Til tross for bedringene er det også viktig å ta hensyn til andre forekommende variabler hos barnet, som utviklingshemming, angst, episoder med anfall og fravær, så vel som en naturlig utvikling i forbindelse med økende alder.

Som vi har sett finnes det noe forskning om PWS og ulike språkforstyrrelser, men med unntak av den nevnte studien til Misquiatti et al. (2011), er det lite som spesifikt tar for seg logopedtilbudet denne gruppen mottar. Vi har latt oss inspirere av masteroppgaven til Kvavik og Linnes (2022), en oppgave med tilsvarende problemstilling som oss selv, som tar for seg språktilbudet til personer med Cri du Chat-syndrom. Denne oppgaven viser at det å se på tilbudet til personer med sjeldne diagnoser, er nødvendig.

2.5 Problemstilling og oppgavens hensikt

På bakgrunn av det innledende kapitlet og forskningen og teorien som vi har lagt frem i kapittel 2, tar vi utgangspunkt i følgende problemstilling:

Hva slags tilbud rettet mot språk og kommunikasjon får personer med Prader-Willis syndrom (PWS)?

Målet med problemstillingen er å bidra på forskningsfeltet med økt innsikt og ny kunnskap. Forhåpentligvis vil oppgaven komme til nytte for fagpersoner som skal jobbe med personer med PWS, men også for foreldre som forsøker å finne frem i et mylder av lover, rettigheter, tiltak og byråkrati. Økt kunnskap og innsikt i temaet også har samfunnsverdi, da oppgaven på sikt kan føre til et bedre språktilbud for personer med PWS. Et bedre språktilbud kan bidra til å utjevne sosiale forskjeller og gi personer med PWS økte muligheter for inkludering og sosial deltakelse, mestringsfølelse og bedre psykisk helse.

For å undersøke temaet har vi invitert foreldre til personer med PWS til å svare på en spørreundersøkelse, og fire foreldre og en logoped til å delta på individuelle intervjuer. Foreldre til personer med PWS i alle aldre ble invitert til å svare på spørreundersøkelsen, mens kun foreldre til personer med PWS som mottar eller nylig har mottatt et tilbud rettet mot språk og kommunikasjon ble invitert til intervju. Foreldreperspektivet blir i oppgaven en innfallsvinkel til en bredere forståelse av språk- og kommunikasjonstilbudet som personer med PWS mottar.

Videre i oppgaven bruker vi begrepet ‘språktilbud’ om både logopedisk og annet spesialpedagogisk arbeid rettet mot språk og kommunikasjon. Når vi skriver om hjelp, behov eller utfordringer, mener vi dette i sammenheng med språk og kommunikasjon, dersom ikke annet blir nevnt. Da vi undersøker foreldrenes perspektiv på deres barns språktilbud, og derfor gjerne omtaler personene med PWS i forbindelse med relasjonen til sine foreldre, veksler vi mellom å omtale personer med Prader-Willis syndrom som “personer med PWS” og “barn med PWS”.

2.6 Oppsummering

I dette kapitlet har vi presentert det teoretiske grunnlaget for oppgaven vår. Vi har sett på hva som kjennetegner språket og kommunikasjonen til personer med Prader-Willis syndrom og vansker diagnosen kan medføre på dette området. Videre har vi vært innom fagpersoner som jobber med slike vansker, en mulig tilnærming til behandling og ulike fokusområder for tale- og språkintervensjon. Avsluttende har vi sett på kunnskapsstatus på feltet. I neste kapittel skal vi gå inn på hvilke metoder vi har valgt å benytte oss av for å svare på problemstillingen.

3 Metode

I dette kapitlet beskriver vi metoden vi har benyttet for å svare på problemstillingen. I del 3.1 presenterer vi metodedesign og vår vitenskapelige tilnærming. Deretter presenterer vi hvordan vi har forberedt oss for datainnsamlingen, der vi i del 3.2 legger frem forberedelsen av spørreundersøkelsen, og i del 3.3 forberedelsen til intervju. Videre presenteres analyseprosessen i del 3.4 og faktorer som spiller inn på oppgavens kvalitet i del 3.5.

3.1 Studiens design og vitenskapelige tilnærming

Samfunnsforskning utføres i økende grad med en kombinasjon av kvalitativ og kvantitativ forskning, kalt *metodetriangulering*. Ved bruk av en slik forskningstilnærming undersøkes bestemte sosiale fenomener fra ulike synspunkter og synsvinkler, der man innhenter, analyserer, tolker og trekker konklusjoner ut fra både kvalitative og kvantitative data. Her er begge forskningsmetoder like viktige og de etterfølgende analysene integreres i en helhet (Johannessen et al., 2021, s. 262). En slik tilnærming mener vi kan bidra til en mer allsidig belysning av problemstillingen vår, da vi får flere innfallsvinkler å belyse temaet ut fra. Vi har valgt foreldre til personer med PWS som primære informanter og startet datainnsamlingen med en spørreundersøkelse. Datasettet vi innhentet gjennom undersøkelsen ble også brukt i forberedelsene til forskningsintervjuene.

Studien vår har en fenomenologisk og hermeneutisk forankring. Fenomenologi dreier seg i praksis om studier som tar for seg hvordan mennesker opplever ulike sider ved sin tilværelse (Nyeng, 2012, s. 33) og to av våre datasett gir informasjon om hvordan foreldrene opplever språktilbudet til sine barn.

I hermeneutikken ligger fortolkning og forståelse av mening til grunn. Metoden er relevant for forskningsprosessen vår, da mye av datamaterialet vi har består av meningsfulle fenomener som må fortolkes (Gilje & Grimen, 1993, s. 144). Forskningsintervjuene har blitt tatt opp og transkribert, og de skriftlig nedfelte meningene har blitt tolket. Gjennom denne prosessen har vi fortolket noe som allerede var fortolkninger, som foreldrenes forståelse og fortolkninger av seg selv, av barna, av fagpersoner og av den fysiske verden (Gilje & Grimen, 1993, s. 145). Samtidig har vi som samfunnsforskere brakt med oss vår egen bakgrunn inn i forståelsesprosessen, noe filosofen Hans-Georg Gadamer kaller *forforståelse*. Forforståelsen er et nødvendig vilkår for forståelse, da vi i fortolkningen av de skriftlige nedfelte meningene

begynte med visse ideer om hva vi skulle se etter. Uten dette ville ikke undersøkelsene våre hatt noen retning (Gilje & Grimen, 1993, s. 148). Ved induktiv forskning har vi videre i tolkningsarbeidet sett om vi kunne finne noen felles forestillinger som formet erfaringene til foreldrene. Det har ikke ligget noen hypotese til grunn, vi har derimot først samlet inn empiri og deretter systematisert og analysert den. Gjennom denne induktive fremgangsmåten har vi trukket slutninger fra det spesielle til det mer allmenne (Johannessen et al., 2021, s. 30).

3.2 Spørreundersøkelse

Spørreundersøkelse er en vanlig kvantitativ tilnærming for eksempelvis å kartlegge utbredelse av et fenomen (Johannessen et al., 2021, s. 23). For å få en overordnet oversikt over tilbudet personer med PWS har mottatt med hensyn til språk og kommunikasjon, valgte vi å starte utforskningen av temaet med en spørreundersøkelse for foreldre til barn med PWS.

3.2.1 Spørreskjemaet

Spørreskjemaer kan ifølge Johannessen et al. (2021, s. 292) ha ulik grad av struktur. Vi valgte et semistrukturert skjema med prekodete og åpne spørsmål, som ga oss både kvantitativ og kvalitativ data å jobbe ut ifra. Kvaliteten på de prekodete spørsmålene er viktig, da formuleringen har mye å si for hvor gode svar vi klarer å innhente (Anker, 2020, s. 39). I utformingen av et prekodet spørreskjema må vi også vite hva vi skal spørre om, og hvilke svaralternativer som er aktuelle (Johannessen et al., 2021, s. 291). I forkant av utarbeidelsen av spørreskjemaet hadde vi derfor gått gjennom relevant forskning om PWS. Teorien som er presentert i kapittel 2 har i stor grad dannet grunnlaget for spørsmålene i spørreskjemaet. Vi så også til spørreundersøkelsen i masteroppgaven til Kvavik og Linnes (2022), da de hadde en tilsvarende problemstilling. Gjennom spørreundersøkelsen ønsket vi blant annet svar på hvilke språkforstyrrelser barna eventuelt hadde, om de hadde mottatt språk- eller kommunikasjonstilbud, over hvor lang tid slike tilbud hadde pågått og hvordan foreldrene opplevde dem. For å samle inn informasjon ut over de oppgitte svaralternativene valgte vi også å ta med noen åpne spørsmål, der respondentene fikk mulighet til å formulere svar med egne ord.

Spørreskjemaet (se vedlegg 4) ble til slutt bestående av totalt 27 spørsmål. Men avhengig av hva foreldrene svarte, deler skjemaet seg i ulike retninger (se vedlegg 5 for oversikt). For å

sikre god kvalitet sendte vi på forhånd ut et pilot-skjema til venner og familie, og fikk gjennom tilbakemeldingene mulighet til å forbedre skjemaets forståelighet og brukervennlighet.

3.2.2 Utvalg og rekruttering til spørreundersøkelse

Ifølge Johannessen et al. (2021, s. 57) er utvelgelse av informanter en viktig del av samfunnsforskningen, både i kvantitative og kvalitative forskningsprosjekter. Vi mener at foreldre er et hensiktsmessig utvalg for å besvare problemstillingen vår. De er representert i mange av sine barns arenaer og er til stede i mange av overgangene og fasene gjennom deres liv.

Frambu kompetansesenter for sjeldne diagnoser har 166 personer med diagnosen i sitt register (K. E. Kristoffersen, personlig kommunikasjon, 28. september 2022). Landsforeningen for Prader-Willis Syndrom, som er en landsomfattende organisasjon for alle som er født med PWS, pårørende og andre med interesse for denne gruppen, skriver på sine nettsider at de har omtrent 350 medlemmer (Landsforeningen for Prader-Willis syndrom, u.å.). Selv om vi ikke kan gå ut fra at alle med PWS er registrert hos Frambu eller at alle foreldre er medlemmer i Landsforeningen, kan vi likevel konkludere med at foreldregruppen til personer med PWS utgjør en relativt liten populasjon. Vi ønsket å nå ut til så mange av disse foreldrene som mulig, og det var derfor ikke nødvendig å gjøre et bestemt utvalg.

For å nå ut til de rette informantene tok vi kontakt med lederen i Landsforeningen for Prader-Willis syndrom, som bisto med å videreformidle invitasjonen til deltakelse på e-post til medlemmer med barn med PWS. I tillegg delte lederen invitasjonen i en lukket Facebook-gruppe for foreningen og på foreningens nettside. Det er ikke sikkert vi har nådd ut til alle foreldre til barn med PWS, da vi som nevnt ikke kan vite om alle er medlem i foreningen. Vi hadde heller ingen innvirkning på hvem som kom til å svare på spørreundersøkelsen, men oppfordret til at kun én forelder svarte for sitt barn. På bakgrunn av svarene vi har fått inn, mener vi at ingen barn er representert mer enn én gang.

Spørreskjemaet ble laget i *Nettskjema* og var åpent og tilgjengelig i tre uker, fra 27. november 2022 til 18. desember 2022. I denne perioden var det mulig for foreldrene å trykke seg inn på den delte lenken og svare på spørreundersøkelsen.

3.3 Kvalitativt intervju

For å få en dypere innsikt i språk- og kommunikasjonstilbudet til personer med PWS, valgte vi å ta i bruk kvalitativt forskningsintervju av fire foreldre til barn med PWS og en logoped som arbeider med et barn med denne diagnosen. En kvalitativ tilnærming egner seg godt til å belyse problemstillingen, da den setter søkelys på opplevelsedimensjonen til personene det forskes på (Dalen, 2011, s. 15). Kvalitativt intervju benyttes ifølge Johannessen et al. (2021, s. 106) når man ønsker å samle inn detaljerte beskrivelser av informantens forforståelse, følelser, erfaringer, oppfatninger, meninger, holdninger og refleksjoner til et fenomen.

Gjennom invitasjonen til spørreundersøkelsen informerte vi også foreldrene om at vi på et senere tidspunkt ønsket å rekruttere foreldre som deltakere til forskningsintervju, samt noen av barnas logopeder. Sistnevnte ville kunne gi en beskrivelse av tilbudet barna får, direkte fra fagpersoner som gir dette.

3.3.1 Intervjuguide

Også kvalitative intervjuer kan gjennomføres med ulik grad av struktur. Vi valgte å benytte oss av semistrukturert intervju med intervjuguide, da vi ønsket å få frem foreldrenes opplevelse av deres barns språktilbud. En slik struktur tillot oss å bevege oss frem og tilbake i intervjuet, samtidig som spørsmål, temaer og rekkefølge kunne variere (Johannessen et al., 2021, s. 108).

Intervjuguiden til intervju av foreldrene (se vedlegg 6) bestod av en innledende del, der vi introduserte oss selv og prosjektet vårt. Informasjon om deltakernes rettigheter og anonymitet ble også gjennomgått. I den innledende delen fikk foreldrene også mulighet til å stille spørsmål, før taleopptaket ble startet. Med utgangspunkt i temaene fra spørreundersøkelsen, var intervjuguiden videre temabasert med fire overordnede temaer: *bli kjent med barnet, språktilbudet, foreldrerådgivning og lovfestet rett til hjelp*. Underspørsmålene var utformet i stikkordsform og oppfølgingsspørsmål ble stilt til foreldrenes utsagn for å innhente utdypende informasjon om språk- og kommunikasjonstilbudet.

Intervjuguiden til logopeden (se vedlegg 7) var bygget opp på lignende måte, men med litt andre spørsmål og formuleringer, og med svarbokser under hvert spørsmål. Dette for å gjøre intervjuet lettere å svare på, da logopeden ønsket å gjennomføre skriftlig.

3.3.2 Utvalg og rekruttering til intervju

Utvalget til intervjuene er hentet fra samme populasjon som spørreskjemaene; foreldre til barn med PWS. Rekruttering til intervjuene ble gjort med hjelp fra lederen i Landsforeningen for Prader-Willis syndrom, som sendte ut forespørsel om deltakelse til intervju på e-post til alle foreldrene i foreningen. I denne e-posten delte vi også kontaktinformasjonen vår, slik at de interesserte kunne kontakte oss på e-post eller telefon. Videre ble vårt ønske om å intervju barnas logoped presentert i denne e-posten til foreldrene.

Med hensyn til tid og kapasitet ble vi enige om at fire foreld reintervju og ett skriftlig logopedintervju var tilstrekkelig, siden vi også satt med et datasett etter spørreundersøkelsen. I alt var det syv foreldre som meldte interesse for å stille til intervju. En av disse hadde et voksent barn som hadde mottatt logopedhjelp utenlands, noe vi vurderte som litt utenfor vårt forskningsområde for denne oppgaven. Videre hadde tre av foreldrene barn på to år eller yngre, der vi valgte forelderens som hadde vært i kontakt med logoped til barnet sitt angående deltakelse til intervju. Vi valgte også å intervju de resterende tre foreldrene med litt eldre barn på 6, 8 og 10 år. Det var altså tilfeldig hvem som meldte interesse, men ut ifra de som gjorde det, gjorde vi et strategisk utvalg. Dette for å få størst mulig variasjon i barnas alder og muligheten for å innhente synspunktene til en logoped gjennom lenkeutvalg via en forelder.

3.3.3 Gjennomføring av intervjuer

Vi gjennomførte foreld reintervjuene over Teams 19. og 20. januar 2023 og hvert intervju tok ca. en halv time. Alle foreldrene ble intervjuet individuelt, da utfordringen med å la alle slippe til og terskelen for å dele personlige opplysninger foran andre i et gruppeintervju, ble diskutert og valgt bort. Det skriftlige intervjuet av logoped ble gjennomført over e-post og sendt ut 18. januar 2023, mens svaret kom inn 26. januar 2023.

I de muntlige intervjuene fikk foreldrene snakke relativt fritt. Men vi hadde underspørsmål til hvert tema, for å sørge for at vi fikk svar på det vi lurte på og at de ulike foreldrene var innom omtrent de samme temaene. For hvert intervju byttet vi på at den ene hadde hovedansvar for å stille spørsmål, mens den andre observerte, tok notater og kom med oppfølgingsspørsmål underveis. Dette ga intervjueren mulighet til å henge seg til samtalen med forelderens, mens observatøren sikret at spørsmål ble besvart og nødvendig data innhentet. Vi benyttet begge Nettskjemas diktafonapp på hver vår mobile enhet, slik at hvert lydopptak ble lastet trygt opp

til Nettskjema etter intervjuet. Ved å benytte oss av to opptaksenheter parallelt, unngikk vi å miste opptaksdata dersom tekniske feil skulle oppstå.

3.3.4 Transkribering

For å klargjøre datamaterialet for analyse måtte vi først transkribere det, som betyr å transformere opptakene av talespråk over til skriftspråk (Kvale & Brinkmann, 2015, s. 204-205). Lydopptakene ble som nevnt lastet opp via Nettskjemas diktafonapp til Nettskjema, og ble slettet etter 90 dager. Vi brukte i overkant av to uker på transkripsjonene og begge hørte gjennom lydfilene flere ganger, både for å dobbeltsjekke at vi hadde hørt det samme og for at vi begge skulle bli godt kjent med datamaterialet. Dataene ble først transkribert ortografisk; de ble nedskrevet ordrett og med stor vekt på detaljer, inkludert viktige momenter som pauser og følelsesuttrykk som latter og sukk. Deretter ble transkripsjonene bearbeidet til en tekst med mer litterær stil. Kvale og Brinkmann (2015, s. 212) skriver at ved å overføre en samtale til litterær stil, gjør man det mulig å formidle meningen bak intervjupersonenes historier til leseren. Underveis i transkripsjonsarbeidet har vi notert oss stikkord og tanker som vi har tatt med oss videre inn i analysearbeidet. For å sikre foreldrenes og barnas anonymitet er transkripsjonene skrevet uten navn og stedsnavn. Videre er sitatene overført til og lagt frem på bokmål i oppgavens resultatkapittel.

3.4 Analyse av data

Valg av metodetriangulering har også påvirket måten vi har analysert og tolket de innsamlede data på. Etter gjennomføringen av spørreundersøkelsen og intervjuene hadde vi tre datasett som på hver sine vis omhandlet språktilbudet til personer med PWS. I resultatkapitlet blir datasettet fra spørreskjemaet og datasettene fra intervjuene (skriftlig intervju med logoped og muntlige intervju med foreldre) fremlagt hver for seg, mens i drøftingskapitlet blir alle funnene sammenlignet og fortolket under ett. Datasettene har stilt krav til ulike analysemetoder, som vi beskriver nærmere her.

3.4.1 Analyse av spørreundersøkelsen

For spørreundersøkelsen har vi tatt i bruk deskriptiv statistisk analyse, med bruk av enkle grafer, tabeller og beskrivelser. En foreløpig analyse av spørreundersøkelsen ble først lagt til

grunn i utarbeidelsen av spørsmålene i intervjuguiden. Etter vi hadde fullført all datainnsamling, gjennomførte vi en grundigere bearbeiding og analyse. Da spørsmålene i skjemaet og svarene vi innhentet var mange, var den enkleste formen for statistisk analyse å undersøke hvordan dataenhetene fordelte seg på verdiene på én variabel (Johannessen et al., 2021, s. 303), for eksempel ved å se på hvor mange personer som hadde mottatt et språk- og kommunikasjonstilbud, i hvilken alder de mottok et tilbud, hva tilbudet innebar og så videre. Etter å ha gjennomført slik univariat analyse, var det naturlig å fortsette med bivariat analyse, da vi ønsket å undersøke statistisk sammenheng mellom to variabler (Johannessen, 2021, s. 317). Dette innbar å lete etter forskjeller eller sammenhenger mellom flere variabler, for eksempel barnas alder og utfordringer eller hva foreldrene synets om tilbudet sammenlignet med om fagpersoner tar diagnosespesifikke hensyn. Under denne analyseprosessen delte vi datasettet inn i fem ulike temaer. Første tema handler om informasjon vedrørende respondentens barn. Neste tema består av resultater fra barn som ikke hadde mottatt hjelp, mens det tredje temaet inneholder resultater om barn som har mottatt hjelp. Fjerde tema handler om selve tilbudet og femte tema om hva foreldrene syntes om tilbudet. Inndelingen av temaer falt seg naturlig etter hvordan spørreskjemaet var bygget opp, med sine ulike retninger og spørsmål om barn, foreldre, tilbud og fagpersoner. Navngivningen av temaene lot seg naturlig nok også påvirke av spørsmålene og retningene i spørreskjemaet.

3.4.2 Analyse av intervjuer

For å finne sammenheng i intervjudata er det viktig å starte med å organisere datamaterialet for å få oversikt og identifisere mønstre (Johannessen et al., 2021, s. 153). Vi valgte å benytte oss av refleksiv tematisk analyse, en form for tematisk analyse utarbeidet av Braun og Clarke (2022), spesielt egnet for kvalitativ forskning. Vi hadde allerede en inndeling i intervjuguiden, men ønsket å løsrive oss fra denne og åpne opp for å se andre, kanskje mer skjulte temaer. Braun og Clarke (2022, s. 4) skriver at tematisk analyse er en allsidig metode som kan benyttes til å analysere forskjellige kvalitative datatyper, med både større og mindre datasett, både i deduktive og induktive analyser og for å fange opp eksplisitt og underliggende mening. På nettsiden til University of Auckland (u.å.) presenteres en oppdatert versjon av Braun og Clarke sin modell for refleksiv tematisk analyse, bestående av seks faser. Disse seks fasene er organisert i en logisk sekvensiell rekkefølge. Men her påpeker også Braun og Clarke (referert i Byrne, 2021, s. 1398) at forskeren må være klar over at analysen likevel ikke er en lineær prosess, men en fleksibel og organisk prosess.

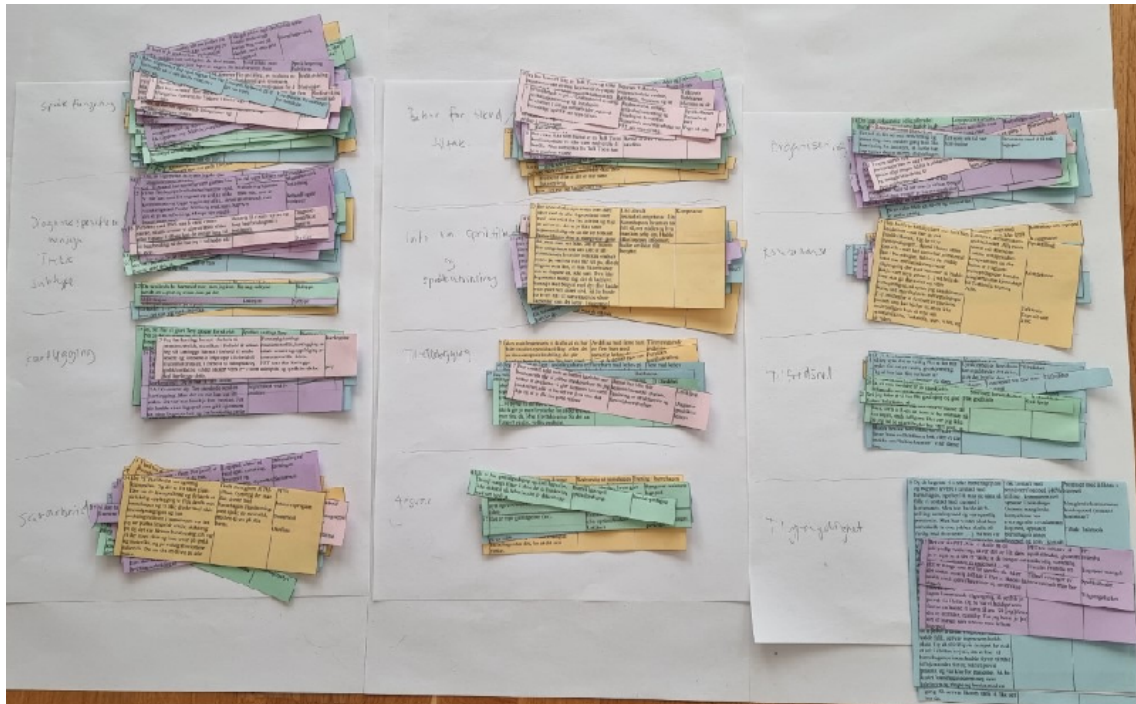
Første fase handler om å gjøre seg kjent med datasettet og involverer tre ulike prosesser: utvikle dyp kjennskap til datasettet, engasjere seg kritisk til informasjonen som data og lage notater av tanker relatert til datasettet (Braun & Clarke, 2022, s. 42-43). Disse prosessene har vi eksemplifisert og beskrevet nærmere i del 3.3.4 om transkriberingen.

For å få bedre oversikt over datamaterialet flyttet vi de transkriberte intervjuene over i hver sin tabell, der svar vi oppfattet som interessante eller relevante for problemstillingen ble plassert i hver sin nummererte boks. Her ble vi sittende igjen med fem tabeller med mye informasjon, og var nå klare for å kode. Ifølge Braun og Clarke (2022, s. 60) involverer denne prosessen å jobbe seg systematisk gjennom hvert dataelement og hele datasettet. Hver dataenhet ble nøye gjennomlest, bearbeidet og videre kodet. I denne prosessen gikk vi frem og tilbake mellom kodingstabellen og transkripsjonene som helhet, for å se kodenenes sammenheng i det større bildet. Kontinuerlig måtte vi vurdere om dataenhetene tilhørte en eksisterende kode, eller om vi måtte utvikle nye koder.

#	Dataenhet	Bearbeiding	Kode
4/1	Men sammenlignet med en annen på 2 år, så snakker hen mye færre ord.	Mindre ordforråd enn jevnaldrende	Forsinket språkutvikling

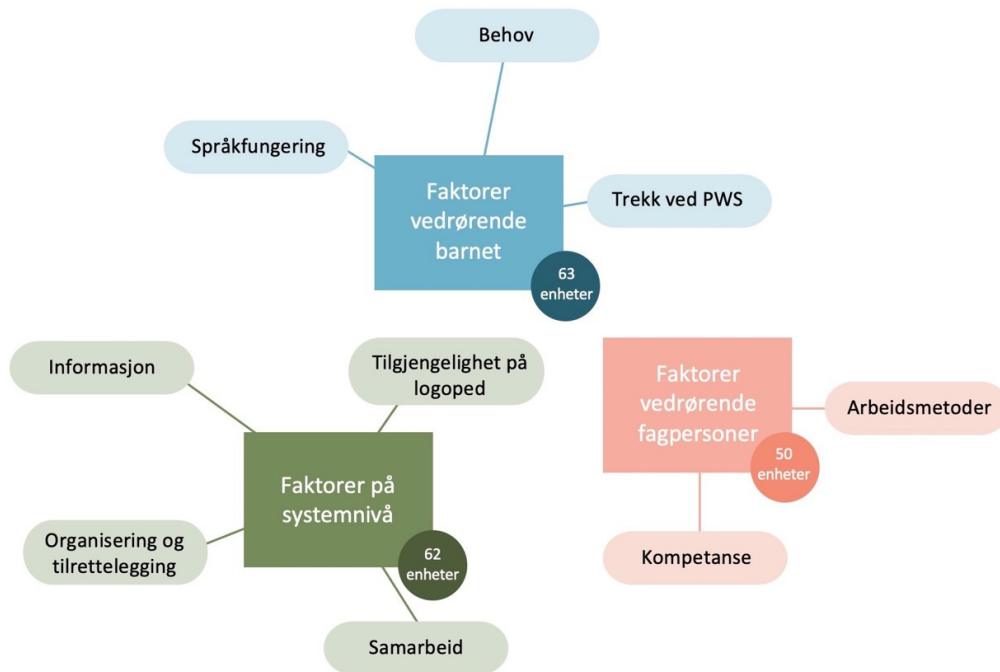
Tabell 2: Utdrag fra egen kodingstabell

Neste fase handler om å skape innledende temaer. Analysen begynner her å ta form når man skifter fokus fra mindre meningsenheter – koder, til større meningsmønstre - temaer (Braun & Clarke, 2022, s. 79). I refleksiv tematisk analyse defineres temaer som et mønster av delte meninger organisert rundt et sentralt begrep (Braun & Clarke, 2022, s. 77). Vi skrev ut intervjuene på hver sine fargede ark, for så å klippe ut alle dataenhetene med tilhørende bearbejdede tekst og kode. Enhetene ble videre samlet i en bunke og gjennomgått en etter en. Ved første gjennomgang dukket de første temaene opp, etter hvert som dataenhetene ble gjennomgått. Enhetene ble sortert under nedskrevne temaer og også i denne prosessen måtte vi kontinuerlig vurdere om disse hørte til under noen av de eksisterende temaene, eller om vi måtte utvikle nye temaer. Etter denne gjennomgangen satt vi igjen med totalt 12 ulike temaer.



Bilde 1: Første inndeling i temaer

I foregående fase jobbet vi hovedsakelig med koder for å utforske mulige grupper av mening og opprettet foreløpige temaer. Gjennom en prosess av nytt engasjement med alle kodete datautdrag og hele datasettet, tilbyr og utvider fase fire en viktig sjekk på den innledende utviklingen av de foreløpige temaene. Her er hensikten å teste levedyktigheten til de første temaene, og undersøke om det er rom for forbedringer av meningsgruppene (Braun og Clarke, 2022, s. 97). Vi hadde nå 12 foreløpige temaer fremfor oss, som igjen skulle få gjennomgå en grundig analyse. Sammen gikk vi derfor over alle dataenheter og koder i flere omganger, og flyttet rundt på lappene til vi endte opp med tre temaer, med ni tilhørende undertemaer. Denne gjennomgangen innebar at temaene vi hadde funnet i første omgang måtte splittes, kombineres eller forkastes helt. Å være to i denne prosessen var svært nyttig og bidro til mange refleksjoner rundt både kodene, temaene og undertemaene. Ved overføringen av dataenhetene til oppgavedokumentet opplevde vi å vende tilbake til denne fasen, da noen enheter måtte splittes, flyttes eller forkastes siden de ikke stemte overens med resten av temaet likevel.



Figur 2: Oversikt over endelige temaer med tilhørende undertemaer

Sjette og siste fase handler om å presentere de funnene man har, samt tolkningene man har gjort i sammenheng med den eksisterende litteraturen. Dette presenteres i oppgavens kapittel 4 om resultater og kapittel 5 om drøfting.

3.5 Forskningens kvalitet

3.5.1 Pålitelighet

Hvor pålitelig en studie er, kan knyttes til hvilke data undersøkelsen bruker, hvordan data samles inn og hvordan de bearbeides (Johannessen et al., 2021, s. 256). Den kvantitative spørreundersøkelsen kan i teorien gjennomføres på et senere tidspunkt og av andre forskere, med antagelse om lignende resultater, dette kalles test-retest-reliabilitet (Johannessen et al., 2021, s. 27). I den kvalitative delen av studien har vi derimot benyttet oss av en ikke-strukturert innsamlingsmetode gjennom semistrukturert intervju, der vi selv har vært hovedinstrumentet i datainnsamlingen. Det vil ikke være mulig for andre å duplisere denne delen av arbeidet vårt, da ingen har samme erfaringsbakgrunn eller kan analysere dataene på samme måte som oss. Vi styrker påliteligheten gjennom åpne og detaljerte beskrivelser av fremgangsmåtene vi har brukt, i alle deler av forskningsprosessen (Johannessen et al., 2021, s. 256). Transparens er viktig, slik at leseren selv kan gjøre vurderinger av de valg vi har tatt.

3.5.2 Validitet

Validitet eller gyldighet i kvalitative studier dreier seg om «[...] i hvilken grad forskerens fremgangsmåter og funn på en riktig måte reflekterer formålet med studien og representerer virkeligheten» (Johannessen et. al., 2021, s. 256). Her snakker vi blant annet om «researcher bias», der forskerens forventninger og forforståelse påvirker objektiviteten. Joseph A. Maxwell (1992, referert i Befring, 2015, s. 55) beskriver fem kategorier for validitet, som har vært viktige punkter under arbeidet og for gyldigheten i studien: entydig og nøyaktig beskrivelse av intervjudata (deskriptiv validitet), beskrivelse av fenomener fra informantens perspektiv (tolkningsvaliditet), troverdig sammenheng mellom fenomenet og teorien (teoretisk validitet), å gjøre forskningens resultat gjeldende for andre (generaliseringsvaliditet) og å stille evalueringsspørsmål og vurdere informantenes fortellinger (evalueringsvaliditet).

3.5.3 Generaliserbarhet

Ifølge Johannessen et al. (2021, s. 275) vil generalisering si at vi som forskere konkluderer med at resultatet fra et utvalg også gjelder for hele populasjonen. Den kvalitative studien vår har ikke statistisk generaliserbarhet, men dette har heller ikke vært hensikten. Målet er heller overførbarhet, i form av at kunnskapen vi frembringer kan benyttes av andre og at vi avdekker kunnskapshull det er mulig å følge opp. Kunnskapen studien vår gir, kan være nyttig ved vurderingen av språktilbudet for andre sjeldne diagnoser, med både lav og høy forekomst.

3.5.4 Forskningsetiske dilemmaer og hvordan disse ivaretas

Det er mange etiske refleksjoner vi har måttet gjøre, spesielt tilknyttet menneskene som direkte eller indirekte har deltatt i studien vår. Vi har intervjuet foreldre og logoped, foreldre har deltatt i spørreundersøkelse, og barna med PWS er deltakere som tredjepersoner. I Forskningsetiske retningslinjer for samfunnsvitenskap og humaniora (NESH, 2021, s. 8) står det at vi som forskere har ansvar overfor alle personer som inngår eller deltar i forskningen, at vi skal respektere deres menneskeverd og ta hensyn til deres personlige integritet, sikkerhet og velferd. Samtykke, personvern og hensyn til barna mener vi er de viktigste etiske prinsippene å trekke frem. Prinsipp om samtykke har blitt ivaretatt ved bruk av informasjonsskriv og samtykkeskjema (se vedlegg 2 og 3). For å opprettholde prinsippet om personvern har vi måttet vurdere hvilke spørsmål vi skulle stille og ta valg som opprettholder

anonymiteten til deltakerne. Dette har vært utfordrende nettopp fordi PWS er en sjelden diagnose. Hensynet til barna over og under 18 år er viktig. Fordi PWS er et sjeldent syndrom og gruppen av barn med PWS og foreldre til barn med PWS er liten, har vi gjort en vurdering om forskningen har verdi for den enkelte og gruppen det forskes på, og om belastningen og risikoen er ubetydelig for de inkluderte (NESH, 2021, s. 20). Da det videre er gjort lydopptak under forskningsintervjuene og fordi lydopptak av en persons stemme regnes som en personopplysning, meldte vi prosjektet vårt inn til Sikt – Kunnskapssektorens tjenesteleverandør 25. oktober 2022 (se vedlegg 1).

3.6 Oppsummering

I dette kapitlet har vi redegjort for vårt vitenskapelige ståsted og for valg av metode for å svare på problemstillingen. Vi har kort nevnt etiske prinsipper og andre viktige faktorer som påvirker forskningens kvalitet, herunder pålitelighet, validitet og generaliserbarhet. I neste kapittel skal vi se nærmere på resultatene fra spørreundersøkelsen og intervjuene.

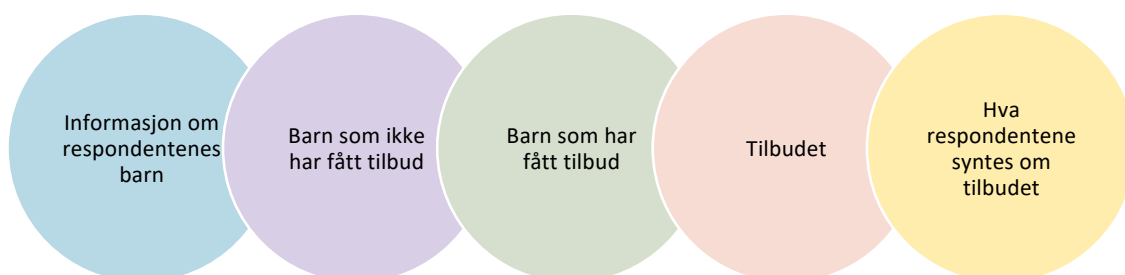
4 Resultater

I dette kapitlet presenterer vi funn fra undersøkelsene vi har gjort under masterprosjektet vårt. Som nevnt reflekterer resultatene foreldrenes oppfatning av deres barns utfordringer og språktilbudet som barna har fått.

I delkapittel 4.1 presenteres funn fra spørreundersøkelsen fordelt på fem underkapitler, og foreldrene blir her omtalt som respondenter. I delkapittel 4.2 presenterer vi funn fra intervjuene fordelt på tre underkapitler. Her omtales foreldrene som informanter. Resultatet fra intervjuet med logopeden integreres sammen med resultatene fra intervjuene med foreldre og presenteres i alle tre underkapitlene.

4.1 Spørreundersøkelsen

Gjennom deskriptiv analyse i metodekapitlet identifiserte vi fem ulike temaer, som bidrar til å svare på problemstillingen og forskningsspørsmålene for denne oppgaven. Nedenfor skisseres disse fem temaene nærmere.



4.1.1 Informasjon om respondentenes barn

Spørreundersøkelsen ble sendt ut til foreldre som har barn med PWS i alle aldre. 32 respondenter svarte på spørreundersøkelsen. Ved å svare har respondentene samtykket til lagring av deres personopplysninger og at opplysningene skulle bli brukt til å undersøke hvorvidt barn og voksne med PWS mottar tilbud rettet mot språk og kommunikasjon.

Spørsmålet vedrørende kommunestørrelsen der barnet bor, viser at flesteparten av respondentene bor i en kommune med mer enn 10 000 innbyggere. Vi samlet inn følgende:

Antall innbyggere	Antall barn
2000 – 4999 innbyggere	3
5000 – 9999 innbyggere	2
10 000 – 19 999 innbyggere	8
20 000 – 49 999 innbyggere	6
50 000 eller flere innbyggere	13

Tabell 3: Kommunestørrelse

Videre spurte vi om barna hadde fått veksthormonbehandling og i hvilken alder de startet med denne. Her svarte alle respondentene ja, mens alder for oppstart av behandling fordelte seg slik, med en hovedvekt på null til tre år:

Alder	Antall barn
0 – 3 år	23
4 – 6 år	6
7 – 10 år	2
11 – 14 år	0
15 – 17 år	1
Over 18 år	0

Tabell 4: Starttidspunkt for veksthormonbehandling

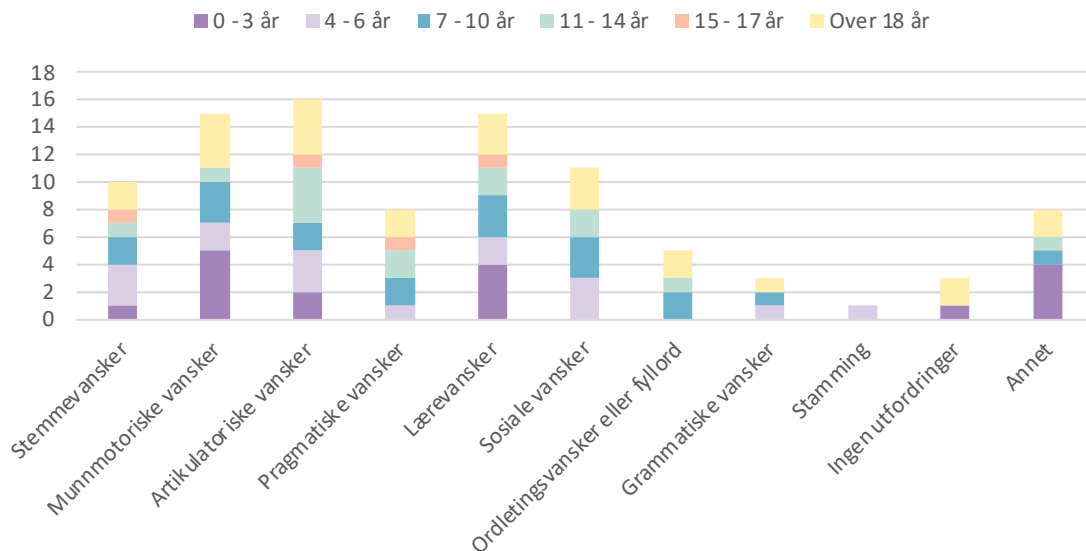
På neste side gir tabell 5 en oversikt over hvor gamle barna var på spørreundersøkelsens tidspunkt, hvilken subtype av PWS barna har, hvilke utfordringer med språket og kommunikasjonen respondentene rapporterte at barna hadde, om respondentene opplevde at barna hadde behov for hjelp og om de som foreldre hadde mottatt informasjon om lovfestet rett til slik hjelp. Av respondentene som haket av på “Annet” på spørsmålet om utfordringer, svarte fire at barna (19-22 mnd.) deres var for unge til å kunne si noe om språket enda, en respondent svarte at barnet (7-10 år) ikke hadde fått verbalt språk enda, mens en annen respondent svarte at barnet (11-14 år) ikke hadde problemer lenger. En siste respondent nevnte en utfordring med at de hjemme hadde andre morsmål (samisk og svensk) enn logopedien.

Informant	S1	S2	S3	S4	S5	S6
1	0-3 år	mUPD	11	Ja	Nei	Nei
2	0-3 år	mUPD	2	Ja	Ja	Ja
3	0-3 år	Vet ikke	2	Ja	Nei	Ja
4	0-3 år	DEL	10	Nei	Ja	Ja
5	0-3 år	DEL	1,2,3,5,11	Ja	Ja	Ja
6	0-3 år	DEL	2,5,11	Ja	Nei	Ja
7	0-3 år	mUPD	3,5	Ja	Ja	Ja
8	0-3 år	DEL	2	Ja	Nei	Ja
9	0-3 år	mUPD	5	Ja	Nei	Ja
10	4-6 år	mUPD	1,3,6	Ja	Ja	Ja
11	4-6 år	DEL	1,2,3,4,5,6,9	Ja	Ja	Ja
12	4-6 år	DEL	1,2,3,5,6,8	Ja	Nei	Ja
13	7-10 år	DEL	2,3,4,5,6	Ja	Nei	Ja
14	7-10 år	DEL	1,2,5,6,7,8	Ja	Ja	Ja
15	7-10 år	mUPD	11	Ja	Nei	Ja
16	7-10 år	Pregingsfeil	1,2,3,4,5,6,7	Ja	Ja	Ja
17	11-14 år	mUPD	3,5,6	Ja	Ja	Ja
18	11-14 år	DEL	3,4	Ja	Ja	Ja
19	11-14 år	mUPD	11	Ja	Nei	Ja
20	11-14 år	DEL	3	Ja	Nei	Ja
21	11-14 år	Vet ikke	1,2,3,4,5,6,7	Ja	Nei	Ja
22	15-17 år	DEL	3,5	Ja	Ja	Ja
23	15-17 år	mUPD	1,4	Ja	Ja	Ja
24	Over 18 år	DEL	2,3,6,8,11	Ja	Nei	Ja
25	Over 18 år	Vet ikke	3,5,6	Ja	Nei	Ja
26	Over 18 år	DEL	10	Nei	Ja	Nei
27	Over 18 år	Vet ikke	10	Nei	Nei	Nei
28	Over 18 år	Vet ikke	4,11	Nei	Nei	Nei
29	Over 18 år	DEL	1,2,3,5,6,7	Ja	Nei	Ja
30	Over 18 år	DEL	2,3,4	Ja	Nei	Ja
31	Over 18 år	DEL	1	Ja	Ja	Ja
32	Over 18 år	Vet ikke	2,5,7	Nei	Nei	Nei

Tabell 5: Individuelle data fra de ulike deltakerne i spørreundersøkelsen (S står for spørsmål).

S1: barnas alder; **S2:** subtype (mUPD: maternell uniparental disomi, DEL: parental delesjon, pregingsfeil, vet ikke); **S3:** utfordringer med språk og kommunikasjon (1: stemmevansker, 2: munnmotoriske vansker, 3: artikulatoriske vansker, 4: pragmatiske vansker, 5: lærevansker, 6: sosiale vansker, 7: ordletingsvansker og bruker mye fyllord, 8: grammatiske vansker, 9: stamming, 10: ingen utfordringer, 11: annet); **S4:** har eller har barnet hatt behov for hjelp (ja, nei); **S5:** har foreldrene fått informasjon om lovfestet rett til hjelp (ja, nei); **S6:** har barna mottatt et språktilbud (ja, nei)

Figur 3 illustrerer tydeligere fordelingen mellom barnas alder og de ulike utfordringene med språk og kommunikasjon (der Y-aksen viser antall rapporteringer). Her kan vi se at artikulatoriske vansker, munnmotoriske vansker, lærevansker og sosiale vansker er utfordringene som rapporteres mest. Stemmevansker, pragmatiske vansker, ordletingsvansker eller fyllord, grammatiske vansker, stamming og annet rapporteres i mindre grad.



Figur 3: Alder og utfordringer

4.1.2 Barn som ikke har fått tilbud

Fem respondenter oppga at deres barn ikke hadde fått hjelp rettet mot språk og kommunikasjon. Av disse begrunner fire respondenter at barna ikke hadde behov for hjelp, mens den siste svarte at de ikke ante hvorfor barnet deres ikke hadde fått hjelp. De hadde bedt habiliteringen om henvisning til logoped, men fikk til svar at det ikke lot seg gjøre. Kun en av de fem respondentene i denne gruppen svarte videre at de hadde fått informasjon om lovfestet rett til hjelp, men svarte ikke på hvem eller fra hvor vedkommende hadde fått denne informasjonen.

I spørreundersøkelsens siste fritekstfelt kommenterte en av respondentene at barnet deres hadde fått lesehjelp i vanlig skole og senere i spesialskole, men ikke hjelp fra logoped. Vedkommende la også til at det å snakke, artikulere og snakke høyt nok aldri hadde vært et

problem for barnet deres, mens det å forstå begreper, enkeltord og sarkasme/ironi var vanskelig.

I tabell 6 viser vi alderen på disse barna og søkeprosessen for respondentene.

Informant	S1	S2
1	0-3 år	Søkt, ikke fått hjelp
26	Over 18 år	Ikke fått tilbud, ikke søkt
27	Over 18 år	Ikke fått tilbud, ikke søkt
28	Over 18 år	Ikke fått tilbud, ikke søkt
32	Over 18 år	Ikke fått tilbud, ikke søkt

Tabell 6: Data om søkeprosessen for gruppen som ikke har mottatt hjelp (S står for spørsmål).

S1: barnas alder; **S2:** om respondentene har søkt om/fått hjelp

4.1.3 Barn som har fått tilbud

27 respondenter oppga at deres barn fikk eller hadde fått hjelp rettet mot språk og kommunikasjon. 14 av disse svarte at de ikke hadde fått informasjon om lovfestet rett til hjelp, mens de andre 13 respondentene svarte at de hadde fått slik informasjon. Det varierer hvor respondentene hadde fått denne informasjonen; her ble Frambu, PPT, habiliteringstjeneste, Helfo, sosionom på sykehus, koordineringstjeneste i kommune, bydelsadministrasjon, helsestasjon og andre foreldre nevnt som kilder. En av respondentene ga også uttrykk for at hen selv måtte skaffe til veie slik informasjon.

Én av de 27 respondentene svarte at deres barn ikke hadde behov for hjelp, mens resten svarte at deres barn hadde behov.

I tabell 7 viser vi hvor lang tid det gikk fra respondentene søkte om hjelp, til barna fikk hjelp.

Informant	S1	S2	S3
2	0-3	Søkt, fått hjelp	1 år
3	0-3	Fått tilbud, uten å søke	
4	0-3	Fått tilbud, uten å søke	
5	0-3	Søkt, fått hjelp	2 mnd
6	0-3	Søkt, fått hjelp	1 mnd
7	0-3	Fått tilbud, uten å søke	
8	0-3	Fått tilbud, uten å søke	
9	0-3	Søkt, fått hjelp	4-6 mnd
10	4-6	Søkt, fått hjelp	1-2 mnd/1-2 år
11	4-6	Søkt, fått hjelp	Ikke lenge
12	4-6	Søkt, fått hjelp	Annet
13	7-10	Søkt, fått hjelp	½ år
14	7-10	Søkt, fått hjelp	½ år
15	7-10	Søkt, fått hjelp	1 år
16	7-10	Fått tilbud, uten å søke	
17	11-14	Søkt, fått hjelp	1 mnd
18	11-14	Søkt, fått hjelp	3 mnd
19	11-14	Søkt, fått hjelp	Ikke lenge
20	11-14	Søkt, fått hjelp	3 år
21	11-14	Søkt, fått hjelp	Lenge
22	15-17	Søkt, fått hjelp	6-12 mnd
23	15-17	Søkt, fått hjelp	Annet
24	Over 18	Annet	
25	Over 18	Fått tilbud, uten å søke	
29	Over 18	Søkt, fått hjelp	6 mnd
30	Over 18	Fått tilbud, uten å søke	
31	Over 18	Fått tilbud, uten å søke	

Tabell 7: Data om søkeprosessen for gruppen som har mottatt hjelp (S står for spørsmål).

S1: barnas alder; **S2:** om respondentene har søkt om/fått hjelp; **S3:** hvor lang tid det fikk fra respondentene søkte om hjelp, til barna fikk hjelp (svar fra fritekstfelt)

En respondent haket av på “Annet” og la til at familien ikke bodde i Norge før skolealder og hadde fått noe hjelp av logoped. Hjelpen lot seg derimot ikke gjennomføre etter at barnet begynte på videregående skole, da ansvaret her falt på barnet og foreldrene, som måtte ta fri fra jobb for selv å komme seg til logopedens lokale.

Vedrørende hvor gamle barna var da de fikk hjelp med språket og kommunikasjonen for første gang, svarte et flertall av respondenter at barna fikk hjelp første gang mellom null og tre års alder (jf. tabell 8):

Alder	Antall barn
0 – 3 år	17
4 – 6 år	6
7 – 10 år	3
11 – 14 år	1
15 – 17 år	0
Over 18 år	0

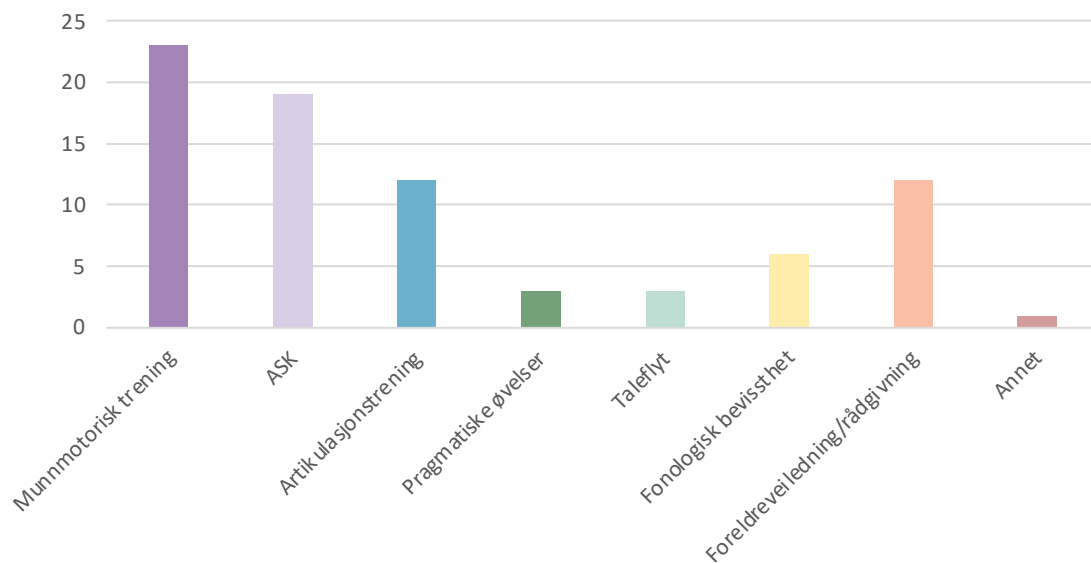
Tabell 8: Barnas alder da de fikk hjelp første gang

Når respondentene ble spurt om hvor barna fikk hjelp med språket og kommunikasjonen, svarte 23 at barna hadde fått hjelp i barnehagen, 15 hadde fått hjelp på skolen, syv hjemme i foreldres bolig, tre i eget hjem, en hos barnehabilitering, en hos PPT og en hos TAKO-sentret (nasjonalt kompetansesenter for oral helse ved sjeldne diagnoser). Av fagpersoner som hadde hjulpet barna, hadde 23 barn fått hjelp hos logoped, 20 hos spesialpedagog, 16 hos pedagog i barnehagen, 10 hos lærer i skolen, en hos opplært assistent i barnehagen, en annen hos fysioterapeut på TAKO-sentret og en tredje hos sin egen forelder.

4.1.4 Tilbudet

Tilbudet rettet mot språk og kommunikasjon innebar munnmotorisk trening for 23 av barna, ASK for 19 av barna, artikulasjonstrening for 12 barn, pragmatiske øvelser for tre barn, taleflyt for tre barn, fonologisk bevissthet for seks barn og foreldrerådgivning for 12 respondenter. En av respondentene hadde også krysset av for “annet” og skrev at tilbudet i tillegg innebar Talktools (Barnas språksenter, u.å.), et konkret verktøy for å jobbe med munnmotoriske ferdigheter.

Se figur 4 for fremstilling over hva tilbudet innebar for barna.

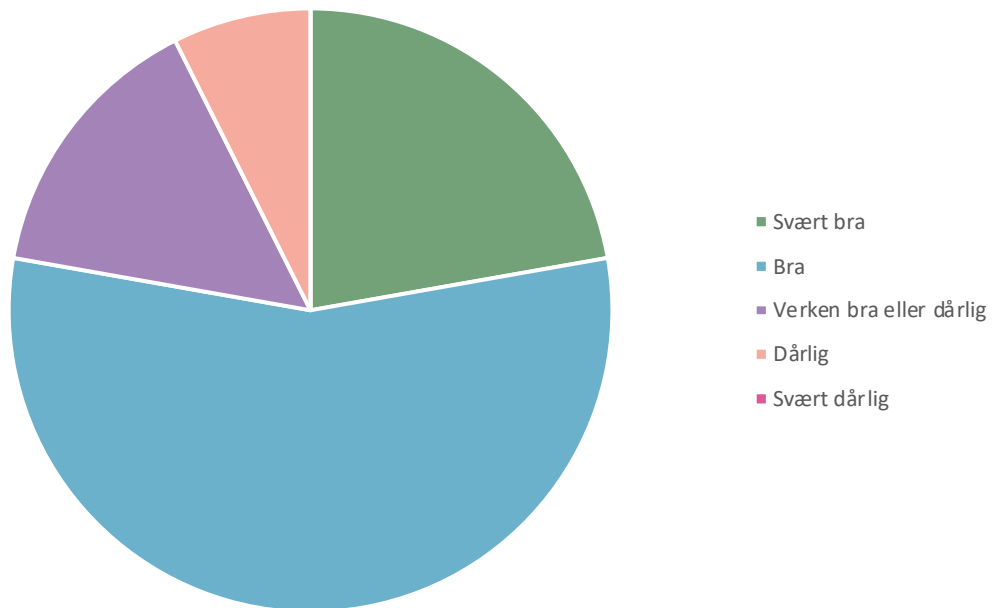


Figur 4: Hva tilbudet innebar

Tilbudet ble i hovedsak gitt en-til-en for alle barna, mens fire barn i tillegg mottok tilbudet i gruppe. Videre fikk syv barn hjelp med språket og kommunikasjonen daglig, 15 barn 1-4 ganger i uka, ett barn 2-3 ganger i måneden og fire barn sjeldnere.

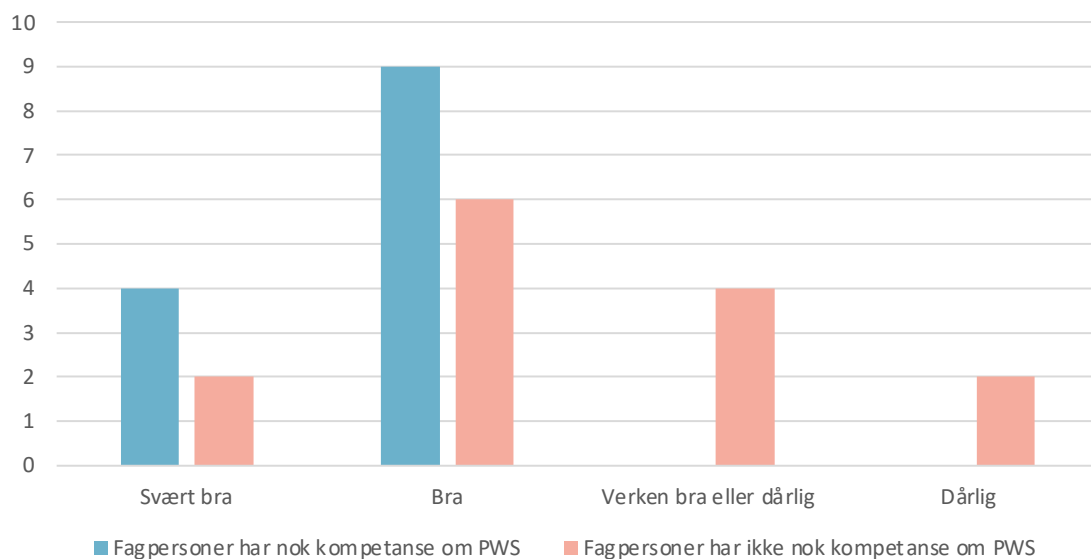
4.1.5 Hva respondentene syntes om tilbudet

Seks respondenter syntes tilbudet som barna deres hadde fått var svært bra, 15 syntes tilbudet var bra, fire syntes det verken var bra eller dårlig, mens to syntes tilbudet var dårlig. Ingen svarte at de syntes tilbudet var svært dårlig. Se figur 5 for oversikt.



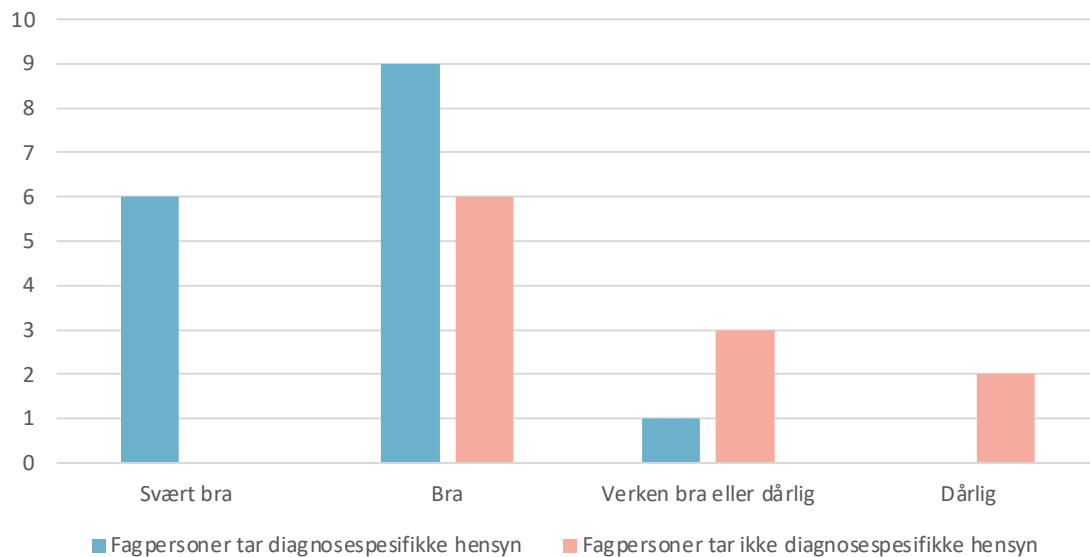
Figur 5: Hva respondentene syntes om tilbudet

Videre presenteres variabelen for hva respondentene syntes om tilbudet sammenlignet med ulike andre variabler. Av respondenter med barn som hadde mottatt hjelp, opplevde 13 at fagpersoner hadde nok kompetanse til å møte deres barn, mens 14 respondenter opplevde at fagpersoner *ikke* hadde nok kompetanse. Se figur 6 for sammenligning mellom hva respondentene syntes om tilbudet og om fagpersoner hadde nok kompetanse om PWS.



Figur 6: Hva respondentene syntes om tilbudet sammenlignet med om fagpersoner hadde nok kompetanse om PWS (Y-aksen viser antall rapporteringer).

Videre opplevde 16 respondenter at fagpersoner tok hensyn til diagnosespesifikke forhold ved PWS, mens 11 respondenter i motsetning opplevde at fagpersoner ikke tok hensyn til diagnosespesifikke forhold som syndromet medfører. Se figur 7 for sammenligning mellom hva respondentene syntes om tilbudet og om fagpersoner tok diagnosespesifikke hensyn.

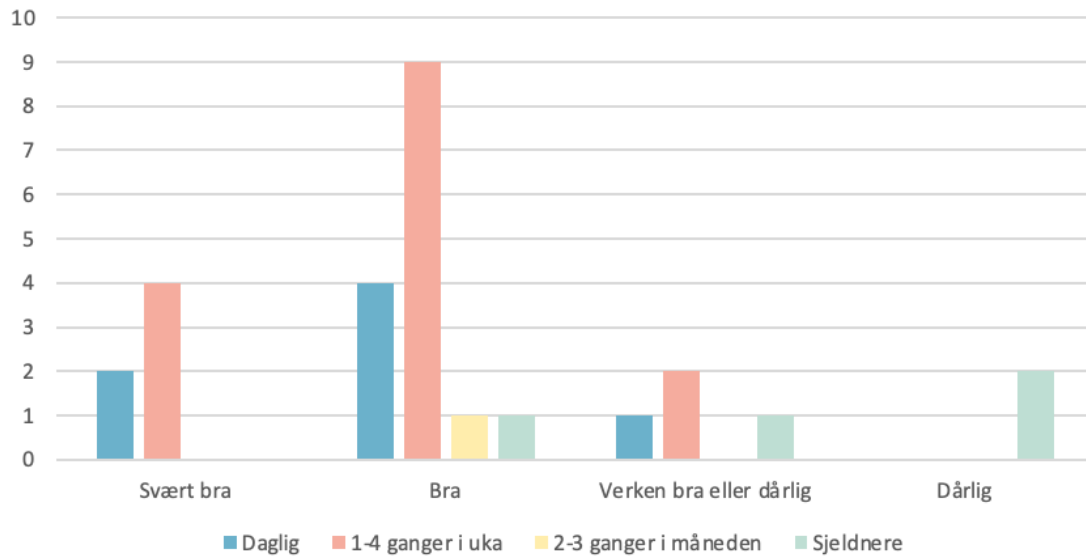


Figur 7: Hva respondentene syntes om tilbudet sammenlignet med om fagpersoner tok diagnosespesifikke hensyn (Y-aksen viser antall rapporteringer).

Av barna som hadde fått hjelp, skrev 13 respondenter i fritekstfeltet om ønsker for hva mer tilbudet skulle innebære; mer og tidligere logopedisk hjelp og oppfølging ble nevnt av syv respondenter, inkludert et ønske om at barn med PWS automatisk burde få hjelp fra logoped. En respondent beskrev tilbudet og ønsket slik:

Logopeden har svært begrenset med mulighet og tid, og i barnehagen er det bare vært mulig å få logoped en gang i mnd. I skolen er det sjeldnere, kanskje en gang i året. Mye avhenger av andre personer som skal følge opp. Tettere oppfølging av logoped hadde kanskje vært ønskelig.

Se figur 8 for sammenligning mellom hva respondentene syntes om tilbudet og hvor ofte barna fikk hjelp med språket og kommunikasjonen.

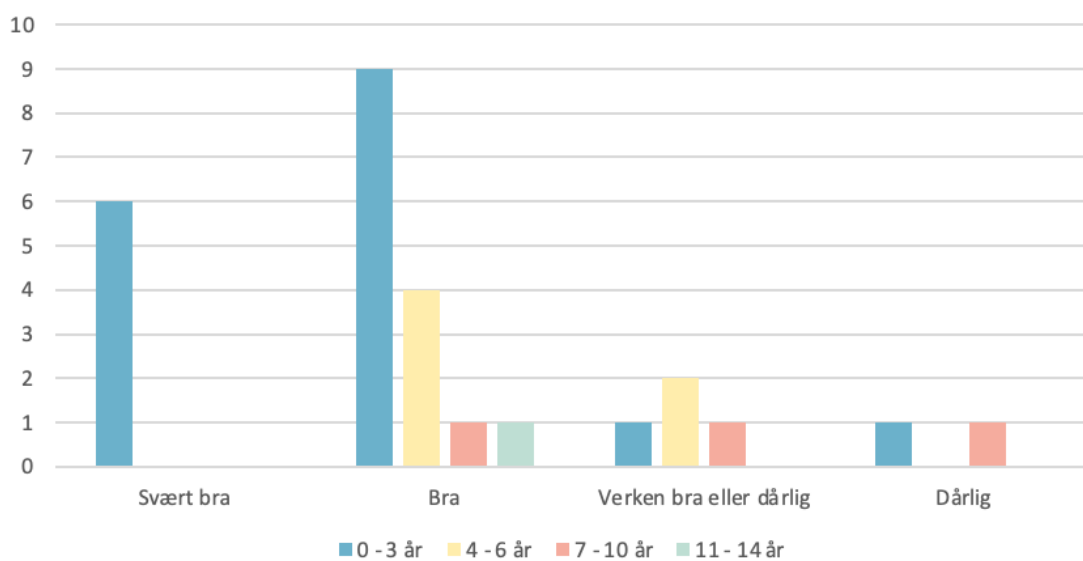


Figur 8: Hva respondentene syntes om tilbudet sammenlignet med hvor ofte barna fikk hjelp med språket og kommunikasjonen (Y-aksen viser antall rapporteringer).

En annen respondent skrev:

Har fått henvisning til logoped nå (barnet har blitt 3 år) skulle ønske logoped hadde blitt koblet inn før.

Se figur 9 for sammenligning mellom hva respondentene syntes om tilbudet og hvor gamle barna var da de fikk hjelp første gang.



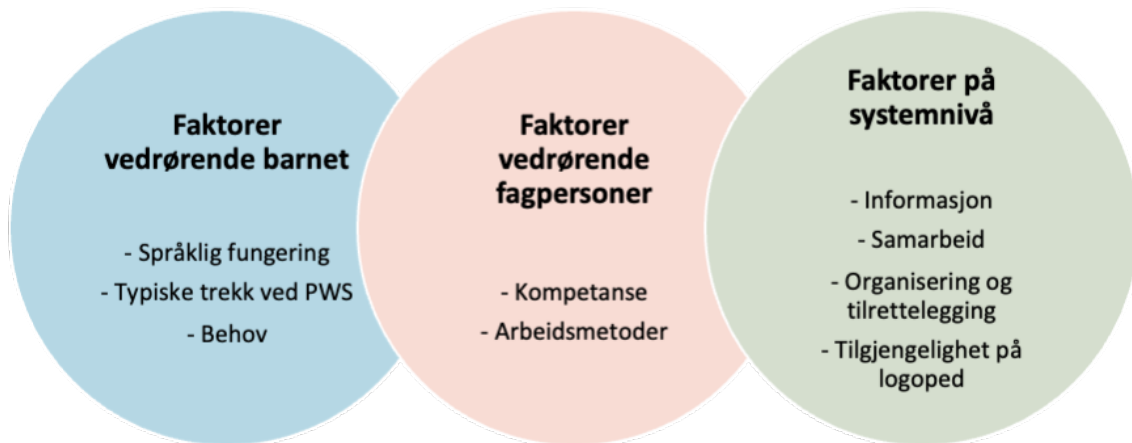
Figur 9: Hva respondentene syntes om tilbudet sammenlignet med hvor gamle barna var da de fikk hjelp første gang (Y-aksen viser antall rapporteringer).

Videre ble det nevnt ønsker om mer kompetanse om PWS, utagering, forebygging av utagering, tegn-til-tale, kursing av personell og økt fokus på verktøy som styrker og støtter språkutviklingen. Én respondent hadde ønske om at logopeden brukte mindre tid på munnmotoriske øvelser, da dette var noe de fint kunne gjøre hjemme. Samme respondent syntes kommunen var fastlåst i bruk av verktøy for å jobbe med språk og opplevde et veldig fokus på PODD (Abilia, u.å.), en form for kommunikasjonsbok, selv om respondenten opplevde at dette ikke fungerte bra. En annen respondent tilføyde et svar om problematikk tilknyttet bruk av mat i munnmotorisk trening (sugerør med ulik væske, tygge mat av ulik konsistens og tyggis) og fremhevet viktigheten av at logopeden tok diagnosehensyn.

En respondent visste fra andre foreldre at tilbudet de hadde i Oslo, var mye bredere enn tilbudet på for eksempel Vestlandet. En annen respondent påpekte også geografisk ulikhet i behandlingstilbudet, da vedkommende bodde i en liten kommune med en logoped i 40% stilling. Logopeden på stedet hadde heller ikke nok kunnskap om diagnosen eller aktuelle hjelpemidler (Talktools), derfor ønsket verken barnehagen eller foreldrene å benytte vedkommende. Alle logopeder i nærområdet ble kontaktet av barnehagen, men ingen hadde plass. Barnet fikk derimot plass etter nesten ett år, hos privatpraktiserende logoped i nabokommunen. Videre tilføyde en annen respondent et svar om at det hadde vært svært vanskelig å få logopedhjelp, og når barnet fikk vedtak om hjelp, fantes det ingen logoped. En siste respondent meddelte at barnet deres hadde lært seg tegn-til-tale tidlig og brukte dette lenge sammen med språket. Bruk av Talktools hadde også god effekt for barnet.

4.2 Intervjuer

I denne delen presenterer vi funn fra intervjuene. Informantene består av fire foreldre til barn med PWS og en logoped som behandler et barn med PWS. Gjennom tematisk analyse i metodekapitlet identifiserte vi tre ulike temaer i datamaterialet og totalt ni tilhørende undertemaer, som bidrar til å svare på problemstillingen og forskningsspørsmålene for denne oppgaven. Nedenfor skisserer vi disse temaene nærmere.



4.2.1 Faktorer vedrørende barnet

Innledningsvis i intervjuene fikk informantene mulighet til å beskrive sine barns språklige fungering og typiske trekk ved syndromet. Dette var også en naturlig overgang til å snakke om hvilke behov de som foreldre mente at barna deres hadde for å få hjelp og støtte med språket og kommunikasjonen.

4.2.1.1 Språklig fungering

En av informantene mente at barnet hadde hatt en fin og ikke så unormal progresjon på språket, men alle fire fortalte at barna hadde vært forsinket i språkutviklingen.

En informant fortalte at deres barn uttrykte seg med færre ord sammenlignet med jevnaldrende barn. Logopeden til barnet fortalte at barnet hadde hatt en fin utvikling, brukte flere ord, babet mer og brukte mer tegn-til-tale, og mente dette kunne komme både av modning, men også av treningen som hadde blitt lagt ned. Informanten mente også at uttalen til barnet hadde blitt tydeligere og sammensetningen av stavelser bedre etter at logopeden kom inn. Ved bruk av kroppsspråk, tegn, lyder og egne ord gjorde barnet seg godt forstått av både foreldrene og de ansatte i barnehagen.

En annen informant fortalte at bablingen til barnet lenge var utydelig og foreldene forstod kun få ord og tegn, frem til barnet ble litt eldre. Nå fortalte informanten at barnet kunne ha en samtale med andre hen ikke kjente så godt, der de også forstod barnet. Hvis barnet ikke ble forstått, supplerte hen med tegn. Denne og en annen informant fortalte også at det var i de senere årene at uttalen til barna hadde blitt mer tydelig, men at uttalen fremdeles kunne variere.

En av informantene fortalte at den største utfordringen for deres barn var språklydsvansker i form av uttale av r-lyden. Foreldrene forsøkte å rette på og minne barnet på at hen skulle ta seg tid til å si ordene ordentlig, da hen i utgangspunktet mestret lyden. Barnet tok av og til i bruk forklaringer og omformuleringer som ikke krevde bruk av r-lyden, og unngikk slik å måtte uttale denne.

Flere av informantene var inne på barnas språkforståelse. En av informantene ga uttrykk for at barnet hadde god språkforståelse, forstod det foreldrene sa og responderte godt på det.

Logopeden var enig og mente barnet hadde bedre reseptive enn ekspressive evner. En annen informant mente at barnet deres hadde godt ordforråd, men kunne lure deg ved å gjenta det som ble sagt, uten helt å forstå innholdet:

Men hen gjentar da mye, jeg hører at hen gjentar en del av det vi sier, men uten at hen nødvendigvis helt skjønner hva vi sier. [...] Hen plukker opp veldig mye og klarer å bruke det, også høres det veldig viktig ut, og så kan det lure ganske mange egentlig.

Ifølge skolen hadde det tredje barnet god forståelse under lesingen, noe informanten trakk frem som en av barnets styrker.

I forhold til det sosiale språket fortalte en informant at dette var noe hen hadde sett logopeden jobbe med. Informanten sa at dette var noe som var svært viktig, særlig etter hvert som barna begynte på skolen. Vedkommende sa videre at barn med PWS havner litt på utsiden sosialt, og at det sosiale er noe de må trene på. Her ble det nevnt turtaking som et eksempel på noe barnet hadde behov for å øve på. Det sosiale språket tenkte hen både var spesialpedagogen sitt ansvar, men også logopeden i form av det språklige:

Ja, jeg ser for meg at hen trenger det mer og mer og mer og mer egentlig, fremover. For nå klarer hen seg og hen klarer å søke mot gjerne de litt eldre elevene, fordi de klarer jo å regulere.. altså de skjønner det på en måte, at de tilpasser seg. Men de jevnaldrende er vanskeligere.

Å ha problemer med å delta i samtalen på grunn av svak munnmotorikk og å ha lettere for å snakke med eldre, var også noe en annen informant trakk frem:

De er jo veldig sånn motorisk svake [...] Det fører jo også til at språket blir dårligere og sånn i starten for du er liksom ikke med, du kommer deg ikke rundt da. Du får ikke være med i samtalen eller kan ... plutselig går alle de andre.

Snakker med alle, hvert fall voksne da. Kanskje snakke mer med voksne fordi hen er jo vant til å ha støtte og de er jo mer interessert og tar seg mer tid til å forstå.

Videre fortalte en tredje informant at barnet deres lekte med ganske mange på skolen og at det var et veldig inkluderende klassemiljø. Samtidig så foreldrene at barnet hang litt mer igjen på dukkelek enn det de andre barna gjorde:

Men vi ser jo at forskjellene øker, selvfølgelig òg ... men sånn er det jo med syndromet.

4.2.1.2 Typiske trekk ved syndromet

Flere typiske trekk ved syndromet kom opp som tema i intervjuene. Hensynet til mat ble fremhevet og en av informantene sa dette var noe av det vanskeligste for andre å ta hensyn til:

Så selv med sine utfordringer, så er det kanskje det med maten som er det vanskeligste og det vanskeligste for andre å forstå og der vi må passe mest på.

For det yngste barnet hadde ikke informanten merket så mye til spesifikke diagnoseutfordringer enda, men fortalte at barnet var veldig sta og bestemt. Dette kunne ha med personlighet og alder å gjøre, men informanten mistenkte at det også kunne ha en sammenheng med syndromet.

Hypotoni og slapp kjevemuskulatur ble presisert som en utfordring av flere informanter, og noe som påvirket munnmotorikken og språket til barna. En informant fortalte at barnet nesten ikke hadde muskler i munnen i begynnelsen, som førte til at hen måtte mates med sonde helt til 8 måneders alder. Spising og tygging hadde derfor vært en utfordring, og barnet brukte muligens munnen litt feil, ifølge informanten. En annen informant fortalte at barnet brukte tungen til å flytte rundt på maten, fremfor å tygge den. En tredje informant trodde barnet ble hemmet av hypotonien i form av utydelig tale. Dette var en tematikk tre av informantene var inne på, og det ble nevnt at uttalen til barna ble mer utydelig spesielt når barna var slitne.

Av andre diagnoserelaterte trekk, fremhevet en av informantene at barnet var rigid og repeterende:

Og så er det jo litt med Prader-Willis syndrom, er jo litt repeterende også.

Hen er jo litt rigid da. Hen er jo det, så du må jo kjenne [barnet] litt for å få det til å ... få motivert [barnet] også når hen er sliten da.

En av informantene fortalte at hen hadde møtt mange med Prader-Willis syndrom og syntes det var ganske store variasjoner i taletydigheten, men trakk språket frem som et tydelig trekk ved diagnosen:

[Språket] er jo noe man kjenner igjen med en gang man snakker med en med Prader-Willis syndrom. Så det er jo et tydelig trekk, tenker jeg da.

Likevel var både logopeden og noen av informantene forberedt på at språket skulle være verre. Logopeden ble positivt overrasket under første møte med barnet, og en annen informant uttrykte at barnet egentlig fungerte ganske godt og mye bedre enn det de hadde sett for seg.

Når informantene ble spurt om hvilken subtype av PWS barna deres hadde, var det kun en som var helt sikker, mens tre var usikre og måtte dobbeltsjekke. Den ene informanten uttrykte det slik:

Jeg husker vi var veldig opptatt av det i starten, men det er hvert fall den som kan stamme fra far. Nå husker jeg ikke..

4.2.1.3 Behov

Alle informantene ga uttrykk for at deres barn hadde behov for hjelp. En informant fortalte at språktilbudet var borte under koronaperioden, og at det da var sårt behov for at en logoped veiledet dem hjemme. Her ønsket andre å avslutte språktilbudet til barnet deres, fordi det gikk så bra med språket akkurat da. Men selv jobbet informanten med å holde på tilbudet, fordi det er vanskelig å komme inn igjen og barnet hadde behov for å trene munnmuskulatur:

Når vi ser på [barnet vårt] så tenker jeg: "hen trenger å trene". Altså sånn som hen trenger fysioterapi hele tiden, resten av livet. Det er vi veldig bevisst på, med syndromet da. Men det burde jo også gjelde munnmuskulatur.

Videre ble det fremhevet et behov for å vedlikeholde barnas taleferdigheter, og at det virket som at språktilbudet forsvant litt når barna ble eldre:

[Barnet] snakker ganske tydelig, enn så lenge. Så får vi se om vi klarer å opprettholde det. Jeg tror det er mye det, at det skal opprettholdes litt.

[...] det er veldig mange som får logoped når de er små, og så virker det som om det bare forsvinner litt [...] altså vi nå som tvivholder litt på det. Og det er jo fordi vi tvivholder på det, ellers så hadde vi nok ikke hatt noe [...] og så hører man jo veldig lite om at de litt eldre har det.

En annen informant ytret håp om at barnet skulle fortsette med logoped, da det var behov for det. Her fremhevet informanten også språk som ett av mange behov:

Hvis du har et barn med spesielle behov så er det så mange behov du har. Du har så mange ting du skal følge opp, sånn at språk er jo bare én av tingene.

4.2.2 Faktorer vedrørende fagpersoner

Gjennom intervjuene ble det snakket om ulike faktorer vedrørende fagpersonene som har arbeidet med barna. Faktorene har vi sammenfattet til to undertemaer: kompetanse og arbeidsmetoder.

4.2.2.1 Kompetanse

En informant ga uttrykk for at logopeden til deres barn aldri hadde jobbet med barn med PWS før, men at vedkommende hadde lest seg opp, sett filmer av barn og unge med PWS og studert munnmotorikk og andre utfordringer tilknyttet diagnosen. Selv sa logopeden at hen hadde funnet informasjon om PWS på Frambu og Lovisenberg Diakonale sykehus, og fremhevet kjennskap til at personer med PWS var visuelt sterke og kunne trenge lang tid til bearbeiding. Logopeden tok dette med i vurderingen under alle øvelser, med bruk av bilder eller figurer til støtte, i tillegg til å ta hensyn når barnet begynte å bli mer bestemt/sta:

Så jeg tenker at øvelsene vi gjør sammen bør være strukturert, slik at barnet vet hva som skal skje og at vi får inn gode rutiner.

Videre ble det ytret et ønske om å vite mer om hvordan andre jobbet med barn med PWS:

Jeg skulle ønske jeg kunne få vite mer om det som gjaldt mitt fagområde og hvordan andre logopeder har jobbet med barn med PWS.

En annen informant sa at logopeden deres var litt kjent med syndromet grunnet tidligere arbeidserfaring. Samme informant fortalte at det var de som foreldre som kunne mest om syndromet, i møte med andre fagpersoner. Dette står i kontrast til en annen informant som sa at:

Vi har blitt veldig rolig og ikke så stresset på det her med språk, fordi vi har jo ikke visst hvordan hen har ligget an sammenlignet ... fordi vi er jo ikke eksperter på det her, som foreldre.

To informanter sa at de var veldig fornøyde med logopeden til sine barn, der en sa logopeden hadde vært veldig til drahjelp, og den andre fortalte at logopeden hadde veldig fin kontakt med barnehagen og barnet, som jublet når hen kom. Sistnevnte informant snakket om at spesialpedagogen var veldig flink til å ta hensyn til diagnosen ved å være tydelig, forberede og snakke med barnet. En annen informant syntes det var dårlig at så få folk og barnehager hadde kompetanse om tegn-til-tale, og at kurs var så vanskelig å melde seg på. Spesialpedagogen kunne ingenting om tegn-til-tale når hen begynte å jobbe med barnet til denne informanten, men hadde lært seg selv opp gjennom årene. Videre fremhevet informanten viktigheten av spesialistkompetanse hos personene som arbeidet rundt barnet og at det ikke var så lett for foreldrene å vite at det var en logoped barnet trengte:

Hen hadde kanskje lært mer hvis hen hadde hatt enda mer av [språktilbudet]. De må liksom læres opp alle rundt hen [...] Så hvis det hadde vært mer spesialistkompetanse tilgjengelig der hvor barna er, så hadde det jo vært mye lettere.

Hvis du får en god logoped så kan du komme langt, tror jeg. Men det er ikke bare bare å vite at det er det man trenger heller.

4.2.2.2 Arbeidsmetoder

En informant oppga at barnet hadde blitt observert av barnehagen og PPT. Logopeden hadde kartlagt barnet i forhold til munnmotorikk og planla senere å kartlegge uttale, men ikke talespråk eller språkforståelse, da dette mest sannsynlig ville bli gjort av PPT. Kartleggingen hadde vært preget av lek, der logopeden hadde undersøkt hvor hypotont barnet var og hvilke problemer hen hadde med å få frem lyder. En annen informant fortalte at det hadde blitt gjort kartlegginger av logoped, PPT, fysioterapeut og på PITH - Program intensiv trening og habilitering. En tredje informant fortalte at logopeden både hadde vært hjemme og i barnehagen og observert barnet. Når barnet ble eldre, ble det også gjort en kartlegging på TAKO-sentret. Fjerde informant snakket om kartlegginger gjennom leseprøver på skolen, PPT-tester, nasjonale prøver og ordkjeder/ordkjedetester.

Tre av informantene fortalte at logopeden hadde jobbet en-til-en med barna deres, og at spesialpedagogen som oftest var med. Alle barna begynte i tidlig alder med tegn-til-tale, noe som også ble innført i barnehagen. Den ene informanten fremhevet at tegn-til-tale ble benyttet på hele barnegruppen i barnehagen og at det aktivt ble tatt i bruk fra barnehagen og over i de første årene på skolen. I barnehagen hadde barnet en egen perm med tegn som stadig ble skjøttet på og benyttet med dem hen var mye sammen med. Tegnene ble benyttet dersom det

var noe barnet ikke forstod eller ikke fikk sagt ordentlig. En annen informant fortalte at tegn-til-tale ble benyttet som visuell støtte for å underbygge tydelighet for barnet.

Talktools ble også benyttet tidlig med tre av barna, mens det fjerde barnet ikke virket å være en Talktools-kandidat. En informant utdypet at denne treningen innebar å blåse i sugerør, blåse opp ball gjennom sugerør, blåse bobler i vann og drikke fra flaske med tut. En annen informant nevnte her problematikk tilknyttet mat i den munnmotoriske treningen:

Vi har hatt med litt sugerør og drikke ulike konsistenser og tygge tyggis og ulike.. det er vanskelig med Prader-Willis og mat, sant. Så det er jo en utfordring. Mange tips med å tygge ulike matkonsistenser, som da kan være litt sånn.. vrient.

Her fremhevet også to informanter en enighet med logopeden om at all mattrening skulle skje hjemme, slik at foreldrene hadde kontroll over hva barna fikk i seg. Av andre tiltak hadde Babblarna (Babblarna, u.å.), et konkret verktøy som fokuserer på språklyder, blitt benyttet tidlig med to av barna. Et tiltak som informantene syntes var gjenkjennelig, effektivt og lett å ta i bruk hjemme. Videre ble det nevnt spill for språk og uttale av forskjellige konsonanter og vokaler, begreper, ulike munnmotoriske øvelser, språktrening, turtaking, boka “Momme og de tidlige språklydene”, ulike rim, regler og sanger med medbevegelser til. Talemaskin ble også fremhevet som et nyttig verktøy der barnet kunne se bilder og høre maskinen uttale ordene riktig, men som informanten sa var noe overflødig i forhold til barnets språklige fungering.

4.2.3 Faktorer på systemnivå

For å undersøke språktilbudet for personer med PWS var det naturlig å komme inn på forhold vedrørende systemet rundt barnet. Her presenteres undertemaene organisering, samarbeid, informasjon og tilgjengelighet på logoped.

4.2.3.1 Organisering og tilrettelegging

Alle informantene beskrev at tilbudet gitt av logoped startet opp i tidlig barnehagealder. Men per i dag var det varierende hvor ofte barna møtte logopeden. Det yngste barnet på to år møtte logopeden en gang i uka og det var satt av omtrent én time til språkarbeidet, samtale og rådgivning av spesialpedagog og barnehageansatte. Barnet på seks år så logopeden en til to ganger i måneden. Barnet på åtte år så logopeden ca. en gang i måneden, mens barnet på ti år hadde vedtak på ti timer med logoped dette skolesemesteret. Alle informantene nevnte også at

barna hadde spesialpedagog eller støttepedagog, og minst ett av barna hadde assistent i fulltid på skolen.

To av informantene kom inn på det rent praktiske i forbindelse med organiseringen når de snakket om når på dagen det var mest hensiktsmessig at et tilbud skulle bli gitt. De presiserte viktigheten av at treningen måtte skje på dagtid, når barna deres var opplagte:

Og så er det jo veldig begrenset hva [man] tenker man får gjort hjemme. For det er så kort tid på slutten [av dagen], og da er hen egentlig allerede sliten.

Når man kommer hjem etter en lang dag i barnehagen og barnet er slitent fra før og kanskje trenger enda mer hvile enn vanlige barn. Så er det egentlig helt nødvendig at barnehagen tar det, for at det skal funke.

Flere av informantene var også inne på ulike tilrettelegginger eller faktorer angående barnehageavdeling og skoleklasse. En informant fortalte at barnet hadde utsatt skolestart på grunn av forsinket språkutvikling, og at det gikk flere barn med spesielle behov på barnets avdeling i barnehagen. I tillegg fortalte hen at det var et redusert barnetall, flere støttepedagoger og flere som kunne tegn-til-tale, noe informanten uttrykte som et positivt tiltak ved flere anledninger i intervjuet. En annen informant fortalte at det var flere flerspråklige barn på barnets avdeling, slik at de hadde fokus på tegn-til-tale til *alle* barna.

4.2.3.2 Samarbeid

Når vi stilte spørsmål om informantene hadde mottatt rådgivning rettet mot språk og kommunikasjon, dreide mange av svarene inn på samarbeid, mer enn direkte rådgivning. En informant fortalte:

Det er jo litt sånn [foreldrerådgivning] når vi er på sykehuset eller habiliteringen. [...]. Det er jo noen tips, men kanskje ikke så veldig organisert [rådgivning].

Flere fortalte at det var viktig med dialog og samarbeid med logopeden, men det varierte hvordan dette foregikk. Flere var inne på at de ikke hadde direkte kontakt med logopeden så ofte. Dette ble begrunnet ut fra flere forhold, for eksempel nødvendighet. En informant sa at når det var fin flyt i arbeidet med barnet, var det ikke noe poeng med oppdateringer hele tiden. Det skapte mye ekstraarbeid for logopeden og mye for foreldene å måtte forholde seg til. Et av barna hadde mindre logopedoppfølging nå enn tidligere, men informanten fortalte om et

godt samarbeid med logopeden omkring diagnosen. Hen fortalte om en åpen dialog, der både de som foreldre og skolen kunne ta kontakt ved behov.

Et annet tema som dukket opp i tre av intervjuene var overganger mellom opplæringsinstitusjoner. En informant ønsket seg mer informasjon om overgangen fra barnehage til skole når det gjaldt språktilbudet og videreføringen av tilbudet til skolen. En annen informant uttrykte at hen syntes overgangen til skolen var vanskelig på denne måten:

Det er kanskje vi da, som synes [overgangen til skolen har vært tøff]. For det var ganske godt system i barnehagen [...]. Og så har vi ikke helt fått det med over i skolen. Så nå jobber vi med å få det på plass igjen.

En tredje informant fortalte derimot om en positiv overgang i bytte mellom to skoler, der assistenten fikk følge barnet over til en ny og større skole, som også viste mer forståelse for krav om tilrettelegging.

4.2.3.3 Informasjon

Informasjon var et undertema som utpekte seg. Svarene omhandler viktige kilder til kunnskap og informasjon for foreldre til barn med PWS og fagpersoner som jobber med personer som har PWS. Men noen svar handlet også om mangel på informasjon og kunnskap, og betydningen av dette.

Det varierer hvor informantene selv har fått informasjon fra. Helsestasjon, barnehabilitering, PPT, Landsforeningen for Prader-Willis syndrom og Frambu ble alle nevnt som kilder til informasjon. En informant forklarte at de fikk noe informasjon om barnets rettigheter via ulike kilder, men trakk frem andre foreldre som den absolutt viktigste kilden til informasjon. Informanten foreslo at helsestasjonen burde ha gitt mer informasjon. En annen informant var inne på noe lignende og fortalte:

Jeg tror kanskje [informasjon om lovfestet rett til hjelp] har vært litt dårlig. Man finner ut av det meste selv egentlig. Og så har man litt tips fra andre foreldre og så finner man ut av ting og da får man jo høre om det. Men man må kanskje etterspørre det. [...] Men generelt så tenker jeg at du må stå på da, som foreldre, for å få det du skal ha.

En tredje informant snakket om tilgangen på informasjon om barnets rettigheter, og uttrykte seg slik:

Så det var vel ting hen kanskje hadde rett på før hen egentlig begynte i barnehagen, som vi ikke benyttet oss av da. Det var i hvert fall ikke tydelig kommunisert at det var en mulighet ... Det er mulig det var kommunisert, men det bør man liksom "overkommunisere".

To av informantene trakk frem utfordringen ved at foreldre kanskje ikke har nok informasjon til å avgjøre om barnet får tilstrekkelig eller godt nok språktilbud:

Så tenker jeg jo at noen av de som kan si at de ikke har behov for hjelp, kanskje ikke helt vet hva de kan få hjelp til. [...] Ja, jeg tror man tenker at "så lenge de nå har lært seg å snakke så er det ferdig med logoped" på en måte. Og det tenker jeg er feil.

[...] Det er litt skremmende hvor lite folk kan om helt sånn ... Ja, om hva man har rett på, alle de tingene som finns, at man liksom søker om de tingene da, ikke sant. Hvis ikke logopeden hadde sagt det, så hadde vi kanskje ikke begynt med det eller vært på et helt annet nivå.

I møte med fagpersoner og andre som skal ha med barnet å gjøre ble Landsforeningen for Prader-Willis syndrom og Frambu sine informasjonssider trukket frem som nyttige kilder til informasjon. En informant hevdet at informasjonen som kom fra Frambu veide tyngre enn foreldrenes, spesielt når det gjaldt selve diagnosen. En annen informant la derimot vekt på at det var de som foreldre som kjente sitt barn best.

4.2.3.4 Tilgjengelighet på logoped

Noe som utpeker seg som sentralt er tilgjengeligheten på logoped. Ulike faktorer vedrørende dette fremkommer i intervjuene. Flere av informantene snakket om prosessen med å skaffe en logoped til sitt barn, og også her er det varierende svar. En av informantene fortalte at de selv etterspurte logoped når barnet skulle begynne i barnehagen, fordi de hadde fått tips av andre foreldre om dette. De opplevde ulike retningslinjer for at slik informasjon skal nå ut til foreldre:

Noen foreldre vi har snakket med har allerede når de blir skrevet ut etter fødsel, blitt oppfordret til å begynne å søke om logoped, fordi det er logopedmangel og ting kan ta litt tid. Men det er det ingen som har sagt til oss, det er forskjellig fra plass til plass da.

På spørsmål om hvem som tok initiativ til språktilbudet fortalte en av informantene at PPT la inn behov for logoped i sakkyndig vurdering med en gang, men at dette kanskje skjedde fordi foreldrene hadde hintet om at det var et vanlig behov:

Når vi skulle ha en sakkyndig vurdering, så var det vel litt sånn at vi også sa at det er vanlig at de trenger det. [...] Så vi føler oss jo litt heldige da, at PPT fikk det med på sakkyndig vurdering med en gang.

Videre omtalte informanten det som “flaks” at noen visste om en privat logoped de kunne kontakte, da det ikke var kommunal logoped å få tak i. Tre av informantene var inne på samme problematikk og sa at det var vanskelig å få tak i logoped, fordi det var så få logopeder. I tillegg ble henvisningsprosessen beskrevet som tidkrevende.

En av informantene fortalte at barnet hadde hatt logoped omtrent en gang i måneden, og begrunnet dette med at logopeden ikke hadde så god tid. Samme informant hadde i løpet av intervjuet nevnt at de kjempet for å beholde tilbudet for sitt barn, men fortalte at man ikke nødvendigvis blir prioritert dersom vanskene ikke er “store nok”:

Når du kanskje ikke har de største, tydelige vanskene da, så blir du nødvendigvis ikke prioritert. Det kan jo være en utfordring.

Informantene uttrykte at de måtte stå på mye selv som foreldre. En informant beskrev at hen i mangel på logoped hadde måttet bestille og teste ut hjelpemidler på egenhånd, basert på tips og råd fra andre foreldre, med varierende hell. En annen informant var inne på samme tematikk, men påpekte også at mange foreldre kanskje ikke klarte å stå på for å få inn det barna trengte:

Jeg tenker at mange [foreldre] får jo til å stå på. Men det er [det] jo så mange som ikke gjør. Så det må jo være mye man ikke får gjort da.

4.3 Oppsummering

I dette kapitlet har vi presentert resultatene fra spørreundersøkelsen og intervjuene. Resultatene fra spørreundersøkelsen har blitt lagt frem i første del av kapitlet og delt inn etter fem ulike temaer, herunder informasjon om barna, barn som ikke har fått et tilbud, barn som har fått et tilbud, tilbudet og hva respondentene syntes om tilbudet. Gjennom analyseprosessen med de kvalitative intervjuene delte vi resultatene inn i tre store temaer, faktorer vedrørende barnet, fagpersoner og på systemnivå, med ni respektive undertemaer, som også er slik vi har delt inn og lagt frem siste del av dette kapitlet. I neste kapittel skal vi drøfte alle resultatene i lys av den valgte teorien for denne oppgaven.

5 Drøfting

Hensikten med oppgaven er å undersøke hva slags tilbud personer med Prader-Willis syndrom får rettet mot språk og kommunikasjon, sett fra foreldres og en logopeders perspektiv. I dette drøftingskapitlet skal vi forsøke å besvare problemstillingen ut fra fem hovedfunn vi har gjort gjennom studien.

Informasjon har vist seg å spille en viktig rolle for å få på plass et språktilbud for personer med PWS. Dette drøftes i del 5.1. Personenes ulike behov for hjelp presenteres i del 5.2. Videre diskuterer vi i del 5.3 de ulike arbeidsmetodene som benyttes av fagpersoner som gir språktilbudet. Kvaliteten på tilbudet personene mottar vil nødvendigvis også bero på kompetansen til den som tilbyr hjelp, så i del 5.4 drøfter vi fagpersoners kompetanse. Avslutningsvis diskuterer vi tilgjengeligheten på logopeder i del 5.5.

5.1 Informasjon

For at personer med PWS skal få et godt språktilbud, er det viktig at det finnes gode rutiner for å gi informasjon til foreldre om deres barns rettigheter og eventuelle behov for hjelp med språket og kommunikasjonen.

Spørreundersøkelsen viser at under halvparten (14 av 32) av respondentene har mottatt informasjon om lovfestet rett til hjelp. Av de 27 barna som har hatt behov for hjelp, er det kun 12 av respondentene som har fått informasjon om lovfestet rett til hjelp. Ulike kilder til informasjon ble nevnt både i intervjuene og i spørreundersøkelsen, og noen opplevde å ha fått mer av dette enn andre. Som en informant påpekte, er språk bare én av mange ting foreldrene må følge opp. Informasjon om hva de kan trenge og ha behov for, må derfor “overkommuniseres”. En annen informant fortalte at informasjonen de fikk var noe dårlig og at de som foreldre måtte søke etter informasjon selv eller få den via andre foreldre. Vi stiller spørsmål ved om det finnes rutiner som sikrer foreldrene informasjon om rettigheter de har til hjelp for sine barn. Dersom slike finnes, virker det å være dårlig oppfølging av hvem som har ansvar for at foreldrene får slik informasjon og hvordan denne distribueres. Dette til tross for arbeid som gjøres nasjonalt for å sikre kvalitet i tilbudet for mennesker som trenger det. Et eksempel av eldre dato er veilederen “En god start” (Hummelvoll & Haug, 2002). Nyere eksempler er *Nasjonalt strategi for sjeldne diagnoser* (Helse- og omsorgsdepartementet, 2021)

eller Stortingsmelding 8 *Menneskerettar for personar med utviklingshemming* – *Det handlar om å bli høyrte og sett* (Meld. St. 8 (2022-2023)).

Dersom foreldre mangler informasjon om hva barna deres trenger, hvilke rettigheter de har og hvordan språkforstyrrelser kan påvirke barna deres, kan man undre seg over om foreldrene innehar tilstrekkelig kunnskap til å oppsøke den nødvendige hjelpen for sitt barn eller stille spørsmål ved hjelpen barnet får. Dette er gjeldende også etter hvert som barna blir eldre. En informant nevnte at de nå kjempet for å beholde logopedtilbudet for sitt barn, og kom senere inn på at det å gå inn i en slik prosess krevde både kunnskap om hva barnet hadde behov for og overskudd til å ta kampen. Barna kan muligens få behov for hjelp igjen på et senere tidspunkt, når forventningene til hva barna skal mestre er større. Etter at et tilbud eventuelt er avsluttet vil foreldrenes kunnskap og overskudd være av betydning for skulle klare å sette i gang kampen om et tilbud igjen. Slik resultatene viser, er det et langt lærer å bleke for å få på plass et tilbud. Som foreldre har man kanskje ikke kapasitet til å sette i gang med dette, etter å ha vært gjennom en slik prosess tidligere. Hva slags tilbud barna får, bør ikke avhenge av hvor ressurssterke foreldrene er, hvilken kunnskap foreldrene innehar eller overskuddet de har til å ta kampen.

5.2 Behov for hjelp med språk og kommunikasjon

Behovene og vanskene er ulike for hver enkelt person med PWS. Men som en av informantene trakk frem, er språkforstyrrelser et tydelig trekk ved PWS, og noe man kjenner igjen med en gang man snakker med en person med PWS.

Alle informantene svarte at deres barn hadde behov for hjelp, og så mange som 27 av 32 respondenter svarte at deres barn hadde behov for hjelp. Blant denne gruppen er det stor variasjon i hvilke utfordringer respondentene rapporterer om. Fra spørreundersøkelsen svarte halvparten at barna deres hadde artikulatoriske vansker, mens lærevansker og munnmotoriske vansker ser ut til å være de nest hyppigste utfordringene. Videre blir sosiale vansker, stemmevansker, pragmatiske vansker, vansker med å finne ord eller at barna bruker mye fyllord, grammatiske vansker og stamming, nevnt i synkende rekkefølge. I intervjuene kan vi se noen likhetstrekk til de mest høyfrekvente vanskene i spørreundersøkelsen, da munnmotoriske vansker og artikulatoriske vansker ble nevnt i større grad enn andre utfordringer. Det er også variasjon vedrørende barnas alder, da alle aldersgruppene var representert i spørsmål om barna hadde behov for hjelp. Samtidig kan vi se en tendens til at

majoriteten av barna representert i vårt materiale som hadde behov for hjelp, fikk hjelp for første gang før de fylte tre år. Dette kan tyde på at det for flertallet hadde blitt oppdaget et behov for hjelp med språket og kommunikasjonen tidlig, som er positivt med tanke på denne gruppens forsinkede språkutvikling.

Et av funnene vi gjorde var at absolutt alle barna i spørreundersøkelsen hadde fått veksthormonbehandling, et flertall før de hadde fylt tre år. Dette er i tråd med nyfødteveilederen til Helsebiblioteket (Klingenberg et al., 2021), og det ser ut til at rutiner for dette følges opp. Studien til Dykens et al. (2017) viste at veksthormonbehandling har god effekt på både vekst og kroppssammensetning, og også på språk og kommunikasjon hos barn med PWS. Det er positivt at barna representert i vår studie har mottatt slik behandling. På samme måte er det positivt hvis mange begynte denne behandlingen før fylte ett år. Det kan ha bidratt til høyere ikke-verbal og sammensatt IQ hos barna, slik Dykens et al. (2017) fant i sin studie. Vi mener at hjelp med språk og kommunikasjon, på lik linje med veksthormonbehandling, burde blitt tilbudt alle barn med PWS og at det fantes rutiner for å få i gang også et slikt tilbud for disse barna.

Av de fem respondentene som svarte at deres barn ikke hadde behov for hjelp, var fire av barna over 18 år og hadde ikke mottatt hjelp. Det er interessant at to av respondentene likevel haket av for at barna hadde enkelte utfordringer med språk og kommunikasjon. For det ene barnet ble det rapportert om munnmotoriske vansker, lærevansker og ordletingsvansker eller bruk av mye fyllord. Pragmatiske vansker ble rapportert for det andre barnet. Vi vet ikke hvorfor respondentene mente at barna deres ikke hadde behov for hjelp, selv med sine utfordringer. Da disse barna aldri har fått hjelp med språket eller kommunikasjonen, kan vi undre oss over om respondentene har god nok kjennskap til hva slik hjelp innebærer. Spørsmålet om respondentene hadde mottatt informasjon om lovfestet rett til hjelp, kan gi oss en indikasjon på denne kjennskapen. Her svarte tre av fire at de *ikke* hadde mottatt slik informasjon. Det kan det være nærliggende å tenke at respondentene mener at barna ikke har behov for hjelp, fordi de ikke vet hva barna kan få hjelp til.

Da vi ikke stilte spørsmål ved lengden på tilbudet i spørreskjemaet, vet vi ikke hvor lenge tilbudet pågikk eller når tilbudet ble avsluttet for de eldre barna med PWS. Det hadde vært interessant å undersøke hvor lenge barna fikk hjelp, når og hvorfor tilbudet ble avsluttet og om respondentene opplevde at barna fortsatt hadde behov, selv etter at tilbudet ble avsluttet. Ut ifra utsagn i intervjuene, kan det muligens se ut til at hjelpen gradvis forsvinner etter som barna blir eldre og at foreldrene må kjempe for å bevare tilbudet.

5.3 Arbeidsmetoder

Vi gikk inn i studien med en forforståelse av at språktilbudet til personer med PWS var noe mangelfullt, og at andre utfordringer som diagnosen medfører, kanskje overdøver behovet for hjelp med språket og kommunikasjonen. Vi ble derfor positivt overrasket over å se at så mange som 27 av totalt 32 respondenter svarte at barnet deres hadde fått en eller annen form for hjelp. I tillegg svarte så mange som 23 av disse at barna for første gang fikk hjelp med språket og kommunikasjonen i tidlig alder, 17 før fylte fire år og seks før fylte syv år. De resterende fire svarte at hjelpen begynte i skolealder, tre barn før fylte 11 år og ett barn før fylte 15 år. Denne overrepresentasjonen av tidlig intervensjon sammenfaller med svarene fra forskningsintervjuene, der alle barna hadde fått hjelp med språket og kommunikasjonen for første gang i barnehagen. Det er derfor ikke så stor variasjon i hvor gamle barna var da tilbudet begynte.

Når det gjelder hvilke arbeidsmetoder og tilnærminger som har blitt benyttet, vil vi i de påfølgende avsnittene ta for oss de ulike arbeidsmetodene som respondentene og informantene oppga at fagpersonene hadde brukt i møte med deres barn, i tillegg til foreldrerådgivning som en del av tilbudet.

5.3.1 Alternativ og supplerende kommunikasjon (ASK)

På bakgrunn av studien til Binger og Light (2007), det vi vet om språkforsinkelser hos barn med PWS og rettighetene personer med forsinket tale har til ASK, mener vi ASK er et viktig fokusområde som logopeder kan bistå med.

På spørsmål angående ASK, svarte alle informantene at deres barn tidlig fikk hjelp med tegn-til-tale, mens en nevnte bruk av en type talemaskin, som opplevdes som nyttig da barnet kunne se bilder og høre ordet uttalt riktig. Fra spørreundersøkelsen nevnte 19 av de 27 som hadde fått hjelp med språket og kommunikasjonen, at tilbudet til deres barn inkluderte hjelp med ASK. En av respondentene skrev i tilhørende fritekstfelt om et høyt fokus på PODD, men opplevde ikke at dette fungerte i særlig grad. Da vi ikke stilte flere, utdypende spørsmål om hva ASK-hjelpen innebar, har vi ikke mer data om hvilke kommunikasjonsformer, symbolsystemer eller andre hjelpemidler tilbudet med ASK eventuelt innebar. Derfor kan vi heller ikke trekke slutninger om alt som ASK innebærer for personer med PWS. På den andre siden vet vi at tegn-til-tale er kommunikasjonssystemet som respondentene og informantene har nevnt mest i denne sammenheng. Hvorfor et tilbud om ASK tilsynelatende ser ut til å

være til stede for så mange personer med PWS, kan ha bakgrunn i at barn og voksne med særlige behov har rett på opplæring og bruk av ASK, som en del av den spesialpedagogiske hjelpen nedfelt i barnehageloven (2005) og opplæringsloven (1998). ASK er med andre ord en nedfelt rettighet, i motsetning til andre arbeidsmetoder som er rapportert benyttet av fagpersoner i denne studien.

Det kan også tenkes at så mange mottar denne type hjelp fordi diagnosen ofte medfører forsinket språkutvikling. I del 2.1.2 så vi på forskjellene innen ekspressive og reseptive evner barn med subtypene DEL og mUPD kan vise (Dimitropoulos et al., 2013, s. 193), og ASK kan være et godt hjelpemiddel for de som har større reseptive enn ekspressive evner. Det kan for noen personer med PWS også bidra til at man bedre og oftere gjør seg forstått blant andre, noe som igjen bidrar til å øke muligheten for deltakelse og inkludering i henhold til del 1.2. I intervjuene nevnte informantene at tegn-til-tale også ble brukt av andre rundt barnet, som hele barnegruppen i barnehagen eller på skolen. For å skape gode kommunikasjonspartnere for barnet med PWS, tenker vi det er viktig at andre barn og voksne som samhandler med barnet på daglig basis, får opplæring i bruk av ASK. At andre benytter samme kommunikasjonsform, kan bidra til å øke mestringen i hverdagen for barnet med PWS. Barnet får også en reell sjanse til å bli inkludert blant andre. Her er det ulike erfaringer rundt personalets kompetanse, men det ble nevnt både i intervjuene og i spørreundersøkelsen at flere skulle ønske at personalet som jobbet med barna deres, hadde mer kunnskap om tegn-til-tale.

5.3.2 Munnmotorisk trening

De fleste informantene, samt 23 respondenter, trakk frem at fagpersoner hadde jobbet med munnmotorisk trening med deres barn. Dette ser tilsynelatende ut til å være et vanlig tiltak for fagpersoner å jobbe med i møte med barn med PWS. Hvorfor så mange hadde mottatt hjelp med munnmotorisk trening, kan vi ikke være sikre på. Det kan tenkes at dette har årsak i hypotoni, et typisk kjennetegn ved syndromet, da alle informantene fortalte om slapp munnmuskulatur. Vi har sett i del 2.1.4 at Kleppe (1990) og Åkefeldt (1997) har fremhevet hypotoni som årsak til artikulasjonsvansker hos personer med PWS, men også sett at senere forskning fremhever variasjon i både type og alvorlighetsgrad av vanskene, så vel som årsak. I intervjuene nevnte tre informanter at Talktools var noe av det første logopedens jobbet med i møte med barna deres. I første møte med det fjerde barnet hadde også logopeden med seg Talktools i kofferten, men endte opp med å ikke bruke det, da barnet ikke ble regnet som en

Talktools-kandidat. Forståelsen av at munnmotorisk trening er et behov hos personer med PWS ser ut til å være mer utbredt enn kun blant fagpersoner, da foreldrene og barnehagen til det sistnevnte barnet brukte ett år på å finne en logoped som hadde nok kompetanse om diagnosen og Talktools. På bakgrunn av dette kan det tenkes at også foreldre kommer med en viss forventning til at logopeder tar i bruk munnmotorisk trening som arbeidsmetode, da slik trening kanskje er noe en automatisk tenker vil hjelpe munnmotorikken og den upresise uttalen til barnet. I spørreundersøkelsen nevnte derimot en respondent at kommunen virket litt fastlåst i sine verktøy, og at logopeden brukte for mye tid på munnmotorisk trening. Dette var noe foreldrene mente de kunne gjøre hjemme selv. I nyere tid har også Røste (2018) stilt spørsmål ved logopeders bruk av munnmotorisk trening nettopp for forbedring av artikulasjonsvansker. Visshet om at man kun bruker 10-20% av styrken i lepper og larynks for å snakke og at presisjon ofte kan være problemet til at talen er utydelig eller avvikende, fremfor muskelstyrke, gir støtte for å benytte arbeidsmetoder som øver mer på tydelighet i talen også for noen personer med PWS. Samtidig må vi ta i betraktning at Røste ikke har tatt høyde for en genetisk tilstand som PWS og symptomet hypotoni i sin artikkel.

Munnmotorisk trening ble i spørreundersøkelsen og under intervjuene nevnt som både nyttig og mindre nyttig. Her fortalte flere respondenter og informanter at det var problematisk å bruke mat i denne treningen. Dette grunner kanskje i at foreldrene føler et behov for å ha kontroll over hva barna får i seg, da overdrevet sultfølelse er et av de mest utpregede symptomene ved diagnosen. En av informantene fortalte at hensynet til mat var noe av det vanskeligste ved diagnosen, og noe av det vanskeligste for andre å forstå. En annen informant syntes også det var vanskelig og en utfordring med PWS og mat, mens en respondent svarte at det var problematisk med bruk av mat i munnmotorisk trening. Hvorfor det blir benyttet mat og tippet om å drikke og tygge mat av ulike konsistenser i treningssammenheng, har vi ingen klare funn på. Av barn som *kun* mottok munnmotorisk trening som en del av tilbudet, opplevde to av fire respondenter at fagpersoner ikke tok diagnosespesifikke hensyn til det PWS medfører. Vi kan ikke vite det for sikkert, men dette kan muligens tyde på en misnøye ved bruk av mat eller drikke i den munnmotoriske treningen eller at foreldrene opplever denne treningen alene som lite virksomt for barnas utfordringer. Dersom fagpersoner som jobber med barna benytter en kunnskapsbasert tilnærming til behandlingen, slik vi presenterte i del 2.2.2, og dermed bruker forskningsbasert kunnskap som utgangspunkt for valgte metoder, kan vi anta at fagpersoner er klar over denne utfordringen ved diagnosen. Overdreven sultfølelse er et av de mest utpregede symptomene og noe som dukker opp i de

fleste forskningsartikler om syndromet. Vi lurer derfor på hvorfor flere fagpersoner likevel inkluderer mat og drikke i treningen. Muligens kan det ha en sammenheng med at man mangler gode, alternative øvelser, som ikke inkluderer mat. Eventuelt at fagpersoner ikke klarer å ta innover seg i hvilken grad denne utfordringen påvirker barna og foreldrene.

Vi mener at munnmotorisk trening kan være nyttig for personer med PWS, når målet er å øve opp kontroll over musklene i munnen og forbedre tygge- og svelgefunksjonen. I intervjuene ble det spesielt nevnt to barn som ville hatt nytte av slik trening. Informantene fortalte at de to barna hadde slitt med spising og tygging, der det ene barnet muligens ikke brukte munnen helt rett, mens det andre barnet dyttet maten rundt med tungen, fremfor å bruke tennene til å tygge. Samtidig sa alle informantene at barna deres slurvet med uttalen når de ble slitne, noe informantene gjerne merket senere på dagen, når barna kom hjem fra barnehage eller skole. At artikulasjonen blir dårligere når barna føler seg slitne, tyder på et behov for munnmotorisk trening og for at denne treningen bør foregå når barna er opplagte, som tidlig på dagen. Her kan munnmotorisk trening bidra til bedre artikulasjon for barna som har utfordringer med uttalen, som bunner i hypotoni.

5.3.3 Artikulasjonstrening

Som vi har beskrevet i del 2.1.4, tar flere av studiene for seg språklydsvansker hos personer med PWS (Bellon-Harn, 2005; Defloor et al., 2002; Kleppe et al., 1990; Lewis et al., 2002; Miller & Plager, 2014, Åkefelt et al., 1997). Disse studiene viser at slike vansker er svært vanlige, men at det kan være ulikt hva som er årsak eller medvirker til artikulasjonsvanskene. Artikulasjonstrening, som går ut på å trene på å uttale enkeltlyder, kan tas i bruk for barn med fonetiske vansker (jf. Dodds klassifikasjonsmodell, 2005, s. 9), altså når barn ikke mestrer å uttale lyden riktig, men klarer å skille lydene fra hverandre auditivt. Det er nødvendig for fagpersoner som benytter artikulasjonstrening som arbeidsmetode å forholde seg åpen til ulike tilnærminger og legge til grunn en nøyaktig vurdering og kartlegging av språkfunksjonene til hver enkelt person med PWS. Dette er nødvendig for å komme frem til den mest hensiktsmessige hjelpen for artikulasjonsvanskene og samsvarer med funnene i de ulike forskningsstudiene, som viser at artikulasjonsvanskene kan kategoriseres i ulike undergrupper.

Resultatene fra spørreundersøkelsen sammenfaller med forskningen vi har funnet på området, om at artikulasjonsvansker er svært vanlig hos personer med PWS. Spørreundersøkelsen viser

at artikulasjonsvansker er det mest utfordrende ved språket og kommunikasjonen hos personer med PWS, og av 16 personer som hadde artikulatoriske vansker, var artikulasjonstrening en del av tilbudet for ti av disse. Totalt mottok 12 personer med PWS slik trening. Her kan det se ut til at munnmotorisk trening i større grad blir brukt som hjelp til artikulatoriske vansker, enn artikulasjonstrening. Dette underbygges av diskusjonen i foregående avsnitt, om en vanlig tendens til å bruke munnmotorisk trening som hjelp til språklydsvansker. Vi mener at dersom fagpersonen har gjort en grundig kartlegging og funnet at vanskene kan kategoriseres som fonetiske, kan artikulasjonstrening være effektivt. I tråd med funnene til Defloor et al. (2002), om at deltakerne i studien hadde alle målspråkets vokaler og nesten alle konsonanter i inventaret sitt, kan høy frekvens på artikulasjonstrening og full utnyttelse av personenes kapasitet bidra til generelt bedre artikulasjon også i spontantale.

En annen informant beskrev derimot at barnet deres hadde utfordringer med å uttale r-lyden og at dette for tiden var hovedfokuset for språkintervensjonen. Informanten fortalte at barnet noen ganger hadde korrekt uttale av lyden, andre ganger ikke. Foreldrene forsøkte å minne barnet på å konsentrere seg om å uttale lyden riktig. Videre fortalte informanten at barnet kunne ta i bruk unngåelsesstrategier ved å bytte ut ord som inneholdt /r/ med synonymer uten /r/. Dersom denne vansken skulle dreie seg om verbal dyspraksi, slik Miller og Plager (2014) fant hos nesten halvparten av deltakerne i studien sin, vil for eksempel ikke munnmotorisk trening, som vi skrev om i forrige delkapittel og i del 2.3.3, ha noe for seg. Grunnen til dette er at vansken da handler om den motoriske planleggingen og ikke den motoriske gjennomføringen. Øvelsene må rette seg mot å automatisere de motoriske bevegelsene i talen, og på den måten få en mer forståelig uttale.

5.3.4 Språklig bevissthet

Som vi har beskrevet tidligere i oppgaven, har barn med PWS ofte forsinket språkutvikling og vansker med språkforståelse. I spørreundersøkelsen svarte tre av totalt 32 respondenter at barna deres hadde grammatiske vansker (vansker med morfologi og syntaks), fem svarte at barna deres hadde ordletingsvansker eller brukte mye fyllord, og 15 svarte at barna deres hadde lærevansker som påvirket læringen av språket og kommunikasjonen. På spørsmålet om hva tilbudet innebar, har vi derimot ikke klart å inkludere svaralternativer som var dekkende nok for å beskrive tilbud rettet mot de nevnte vanskene. Her var svaralternativet “fonologisk bevissthet” kanskje det eneste som kunne være aktuelt, som handler om bevissthet om

hvordan språket er bygget opp av lyder. I spørreundersøkelsen rapporterte seks respondenter at tilbudet til barna deres inkluderte øvelser i forbindelse med fonologisk bevissthet. I intervjuene fortalte to av informantene at Babblarna hadde blitt benyttet tidlig i utviklingen. Fokus på fonologisk bevissthet kan hjelpe barna å oppdage språkets lydsystem, og eventuelt i kombinasjon med munnmotorisk trening og artikulasjonstrening bidra til at barna oppnår mer forståelig tale.

Andre svaralternativer for hva tilbudet innebar, som rettet seg mot arbeidsmetoder for mer generelle vansker med språkforståelsen, som lærevansker og grammatiske vansker, var noe vi ikke tok nok hensyn til under utformingen av spørreskjemaet. Vi har derfor kanskje gått glipp av en vesentlig del av språktilbudet, da dette ikke var et svaralternativ for respondentene i spørreundersøkelsen. I intervjuene fikk informantene derimot snakke relativt fritt rundt barnas vansker og tilbudet barna mottok. Her snakket flere av informantene om barnas språkforståelse og enkelte var inne på problematikken vi har skrevet om i del 2.1.2, om forskjeller i ekspressive og reseptive evner. Dette indikerer at barna trenger generell språkstimulering, for eksempel innen områder som semantikk og grammatikk, i tillegg til fonologi.

5.3.5 Pragmatiske øvelser

I spørreundersøkelsen rapporterte åtte respondenter at deres barn hadde pragmatiske vansker, mens så mange som elleve rapporterte om sosiale vansker. Pragmatiske øvelser var likevel kun en del av tilbudet for tre barn, to av disse med pragmatiske vansker. I intervjuene ble det nevnt av flere at barna lettere tok kontakt med voksne og eldre barn, da disse tok seg bedre tid, tilrettela og var mer støttende kommunikasjonspartnere enn jevnaldrende. Å jobbe med pragmatiske evner kom derimot frem som en del av tilbudet til bare ett av barna fra intervjuene. I forskningen kan vi se at utfordringene barna med PWS har med å forholde seg til jevnaldrende, er tilknyttet manglende evner til å gjenkjenne følelser hos andre, reduserte evner til å tolke og reagere hensiktsmessig på sosial informasjon og vansker med å analysere ansikt og stemme (Whittington & Holland, 2011, s. 82; Strenilkov et al., 2020, s. 2). Barna fra vår studie som mottok pragmatiske øvelser som en del av tilbudet, ser ut til å ha et variert vanskebilde, der ingen kan sies å ha pragmatiske vansker som eneste utfordring med språket og kommunikasjonen.

Barn med PWS har som nevnt atferdsvansker som et typisk kjennetegn ved diagnosen, der barn med subtypen DEL blant annet har økt forekomst av humørsvingninger, surmuling og rigid, ritualistisk og repeterende atferd (Dimitropoulos et al., 2013, s. 194). Vi vet ikke spesifikt hvordan fagpersoner har gått frem i språkintervensjonen rettet mot pragmatiske øvelser for barn med PWS gjennom vår studie, men ifølge Rosner (2004) er den mest hensiktsmessige tilnærmingen å konsentrere intervensjonen mot denne uhensiktsmessige atferden. Da vi i tillegg vet at denne atferden hindrer optimal pragmatisk språkevne hos personer med PWS, er det hensiktsmessig at språkintervensjonen foregår parallelt med at atferdsproblematikken blir jobbet med. I denne forbindelse nevnte en respondent at fagpersoner skulle hatt mer kunnskap om utagerende oppførsel og hvordan denne kunne forebygges. På bakgrunn av funnene kan det se ut til at et tilbud med pragmatiske øvelser er lite til stede i språktilbudet for personer med PWS, til tross for at forskning viser at denne gruppen har pragmatiske vansker, og at disse vanskene kan øke med alderen (Ho & Dimitropoulos, 2010, s. 110). Derfor ønsker vi å trekke frem viktigheten av tidlig intervensjon rettet mot pragmatikk og atferd i språktilbudet for personer med PWS og at fagpersoner tar sikte på å øke sin kunnskap rundt dette temaet.

Det kan være flere årsaker til våre funn om at så få mottar et tilbud rettet mot pragmatiske ferdigheter. Respondentenes forståelse av spørsmålene kan være én del av forklaringen. I spørreundersøkelsen spurte vi om barnas utfordringer med språket og kommunikasjonen, der ett av svaralternativene var “pragmatiske vansker (f.eks. vansker med å holde seg til tema, turtaking i en samtale)”. Et annet alternativ var “sosiale vansker som følge av språk og kommunikasjon (f.eks. vansker i relasjon med andre)”. På spørsmål om hva barnas språktilbud innebar, var “pragmatiske øvelser” eneste svaralternativ som kunne tenkes rettet mot begge disse utfordringene. Det er usikkert hva respondentene har forstått med spørsmålet, da vi innser at fagbegrepet “pragmatikk” muligens skulle ha vært bedre forklart eller byttet ut med mer allmenkjente ord. Dette vil vi komme nærmere inn på under oppgavens styrker og svakheter i del 6.2.

På den andre siden kan det også diskuteres hvilken profesjon denne type intervensjon er mest naturlig for. Noen mener kanskje at dette er en spesialpedagogisk oppgave, mer enn en logopedisk. Det kan derfor hende at barna mottar denne type hjelp, men at foreldrene i vår undersøkelse ikke har tenkt på den pragmatiske eller sosiale intervensjonen som en del av det språklige tilbudet barna deres mottar. Vi mener derimot at vanskene barn med PWS har med språk, både den pragmatiske siden av språket, så vel som uttale og forståelse, kombinert med

atferdsutfordringer og sosiale utfordringer, i det minste fordrer et samarbeid mellom ulike fagfelt eller –personer. Det vil si at man jobber med atferdsutfordringer parallelt med språk og tale, slik også Ho og Dimitropoulos (2010, s. 114-115) foreslår. Med kompetansen logopeder har om språk, mener vi at logopeder bør inkludere hjelp med den pragmatiske delen av språket i tilbudet, uavhengig av om dette skjer i samarbeid med andre eller ikke. Vi innser uansett at med begrenset tilgang til logopeder må det nødvendigvis skje en prioritering av hva som skal vektlegges i tilbudet, og at dette kan være noe av årsaken til at kun et fåtall av barna i vår undersøkelse mottar et tilbud rettet mot pragmatiske ferdigheter.

5.3.6 Taleflyt

Kun tre respondenter rapporterte at tilbudet til deres barn innebar intervensjon rettet mot taleflyt. Av vansker tilknyttet taleflyt var det kun en respondent som svarte at barnet stammet, mens fem sa at barnet deres hadde ordletingsvansker eller brukte mye fyllord. Ingen av disse barna mottok hjelp med taleflyt som en del av tilbudet. Vi vet ikke hvor god kjennskap respondentene har til ulike fagbegreper tilknyttet språk og kommunikasjon. Selv om vi skulle ha vært flinkere til å forklare fagbegreper i spørreundersøkelsen, må vi nesten gå ut ifra at respondentene som har krysset av for stamming, vansker med ordleting eller fyllord forstår at dette kan innebære vansker tilknyttet taleflyt. Samtidig kunne vi ha benyttet begrepet «stamming» for stamming, da paraplybegrepet «taleflyt» legger føringer for at barna har dårlig taleflyt og trenger hjelp med å forbedre denne. I et slik lys er det kanskje ikke så overraskende at disse barna ikke har mottatt hjelp med taleflyt, da vanskene deres ikke nødvendigvis oppleves som taleflytvansker av foreldrene eller av barna selv.

I likhet med studien til Kleppe et al. (1990) er det også i vår studie kun ett av barna som ble ansett for å stamme. Vi kan derfor undre oss over om vi hadde fått inn flere rapporteringer om forstyrrelser i taleflyten dersom vi hadde inkludert noen av klassifiseringene som Campbell og Hill (referert i Ward, 2018, s. 6) identifiserte i 1987. Både studien til Defloor et al. (2000) og studien til Kleppe (1990) viser at taleflyten ofte er forstyrret hos barn med PWS. Derfor kan vi spekulere i om spørsmål, formuleringer eller manglende forklaringer hadde innvirkning på hvorfor vår studie ikke viser lignende resultater. Samtidig gir Ward (2018) oss grunnlag for å tenke at det ikke alltid kan være så enkelt å plukke opp forstyrrelsene i taleflyten til barna, da artikuljonsvansker som det mest fremtredende ved talen til barna med PWS muligens kan overskygge forstyrrelser tilknyttet taleflyt.

5.3.7 Foreldrerådgivning

Verken i spørreundersøkelsen eller i intervjuene stilte vi spørsmål om hvor gamle barna var da de fikk diagnosen. På bakgrunn av svarene i intervjuene, der alle barna fikk hjelp med språket fra tidlig barnehagealder, og svarene i spørreundersøkelsen, der 23 av barna begynte med veksthormonbehandling før de fylte tre år, kan vi likevel anta at majoriteten får diagnosen i relativt tidlig alder. Ved diagnostisering er logopedhjelp i forbindelse med språk kanskje ikke det første foreldre tenker på. Bekymringer rundt vansker med ernæring, mating og spising, som er tidlige trekk ved diagnosen, er noe vi antar opptar mye av foreldrenes oppmerksomhet og tid i begynnelsen, i tillegg til å måtte tilpasse seg den nye hverdagen med et barn med en sjelden diagnose. Men som vi har presentert i teoridelen av oppgaven, er språkforstyrrelser svært vanlig hos personer med PWS og tidlige tegn kan være redusert babling og forsinket utvikling av ordforråd (Dimitropoulos et al., 2013, s. 194; Lewis et al., 2002, s. 293). I tillegg kan hypotoni tenkes å være av betydning for foreldrenes tidlige samspill med barnet, slik Zyga og Dimitropoulos (2020, s. 82) også skriver. Barn under opplæringspliktig alder, uavhengig av om de går i barnehage eller ikke, har krav på hjelp og støtte til språklige ferdigheter, og i dette skal tilbud om foreldrerådgivning være inkludert. Vi har tidligere presentert at det er viktig å komme tidlig i gang med en tverrfaglig tilnærming, og her mener vi logoped også kan spille en sentral rolle.

I intervjuene svarte en av informantene at de hadde fått noe rådgivning på sykehus eller habilitering, men at det ellers ikke hadde vært noe særlig organisert rådgivning. Som vi har skrevet om i del 1.3, har foreldre med barn under opplæringspliktig alder rett på foreldrerådgivning som del av den spesialpedagogiske hjelpen. Spesialpedagogisk hjelp gis på bakgrunn av en sakkyndig vurdering fra PPT og inkluderer altså ikke rådgivning som gis i spesialisthelsetjenesten, for eksempel på habiliteringstjenesten eller kompetansesenter som Frambu, slik mange har trukket frem. I spørreundersøkelsen svarte kun 12 av de 27 som hadde mottatt et tilbud at dette inkluderte foreldrerådgivning, selv om så mange som 23 fikk hjelp første gang før barnet fylte syv år. Dessverre vet vi ikke mer om hva rådgivningen innebar, eller hva respondentene forstod med foreldrerådgivning når de krysset av for dette. Vi vet heller ikke om hjelpen er utløst av en sakkyndig vurdering og inngår som en del av den spesialpedagogiske hjelpen eller om respondentene har inkludert rådgivning fra andre instanser, for eksempel habiliteringstjeneste eller Frambu.

I intervjuene ser vi at svarene dreier mer mot samarbeid og dialog på spørsmålet om foreldrerådgivning. Det er naturlig for oss å anta at dette henger sammen med at de ikke har

mottatt rådgivning i forbindelse med den spesialpedagogiske hjelpen. Informantene uttrykte at de var tilfredse med å få oppdateringer fra ansatte i skolen eller barnehagen om det logopeden gjorde. Dette ble blant annet begrunnet med at det ville bli ekstraarbeid for logopeden og mye for foreldene å forholde seg til dersom logopeden skulle holde foreldrene oppdaterte. Vi lurer likevel på om foreldrene kunne hatt utbytte av mer innsikt i barnas tilbud, da dette ville gjort dem bedre rustet til å ta del i ulike avgjørelser, for eksempel når det blir snakk om å avslutte barnas tilbud.

Vi kan forstå at foreldre til barn med særskilte behov først og fremst har et ønske om å “bare” være mamma eller pappa for sitt barn. Likevel synes vi funnene om rådgivning er overraskende. Vi hadde en forforståelse av at rådgivning rettet mot foreldre skulle være viktigere, og dermed ta en større plass i tilbudet som blir gitt. For det første skal rådgivningen være en del av den spesialpedagogiske hjelpen og er en av oppgavene som ligger under de logopediske tjenestene. For det andre mener vi at foreldre kan ha stort utbytte av å komme tidlig i kontakt med en fagperson som kan gi råd i forbindelse med barnets språkutvikling. Dette er i tråd med forskningen som er presentert i del 2.1, og del 2.3.5, som legger vekt på viktigheten av å komme tidlig inn med rådgivning for å bidra til en bedre relasjon mellom barn og foreldre. Alle foreldre er kanskje ikke like bevisste på at det tidlige samspillet er viktig for språklige ferdigheter senere. Aspekter som responsen foreldre gir barna sine, beskrivelser av ting som skjer, bekreftelser, initiativ til lek, etterligninger, utvidelser og navngivning, faller muligens ikke like naturlig når barna er mindre engasjerte i samspillet, slik Zyga og Dimitropoulos (2020) fant i sin studie. Her mener vi at fagpersoner, og spesielt logopeder, har et ansvar for å rådgi på det som omhandler språk og kommunikasjon, og å tilby rådgivning i forbindelse med språkmiljø og det å fremme god språkutvikling for barna. Pansy et al. (2019, s. 20) mener også at rådgivning av foreldre kan bidra til økt livskvalitet for små barn med PWS. Det vi nå har diskutert understreker betydningen av foreldres forståelse av språk og kommunikasjon og eventuelle vansker barna deres har på området. Det fremhever også at rådgivning bør gis til flere enn studien vår har vist og man kan vurdere om rådgivning skulle vært en større del av tilbudet.

5.4 Fagpersoners kompetanse

Ansatte med god kompetanse og nær relasjon til barnet er to av faktorene som nevnes i Stortingsmelding 6 (2019-2020, s. 8), for å få til et inkluderende og godt utdanningsløp for alle. Fagpersoner kartlegger og planlegger intervensjoner for barna. Noen ganger er det disse

fagpersonene som gjennomfører intervensjonen med barna, i andre tilfeller kan det være ufaglærte som gjør dette. I tillegg skal personene som tilbyr barna hjelp samarbeide og gi råd til foreldre og andre nærpåsoner rundt barnet.

Av fagpersoner som hadde hjulpet barna, svarte alle informantene at barna hadde mottatt hjelp både fra logoped og spesialpedagog. Lignende svarte et flertall av respondenter at barna deres hadde fått hjelp fra logoped og spesialpedagog, der 23 barn hadde fått hjelp fra logoped, mens 20 i tillegg eller i stedet hadde fått hjelp fra spesialpedagog. Halvparten hadde også fått hjelp av pedagog i barnehage, og en tredjedel fra lærer/pedagog i skole. Vi mener det er veldig positivt at så mange har fått hjelp fra logoped eller spesialpedagog, selv om vi kan se på svarene fra intervjuene og i fritekstfeltene fra spørreundersøkelsen at spesielt prosessen med å få tak i logoped ikke har vært så enkel. Denne prosessen drøftes videre under del 5.5.

Spørreundersøkelsen viser at 21 av 27 respondenter som har barn som har mottatt hjelp, syntes tilbudet var bra eller svært bra. Dette mener vi er et overraskende funn, da mange av respondentene paradoksalnok mente at fagpersonene ikke hadde god nok kompetanse og ikke tok diagnosespesifikke hensyn. I spørreundersøkelsen svarte 14 av respondentene med barn som hadde mottatt hjelp, at de ikke opplevde at fagpersoner hadde nok kompetanse til å møte deres barn med PWS. 11 stykker svarte at fagpersoner ikke tok hensyn til diagnosespesifikke forhold ved PWS i arbeidet med deres barn. Figur 6 og 7 i resultatkapitlet viser en mulig sammenheng mellom lavere tilfredshet og respondentenes opplevelse av fagpersonenes kompetanse og evne til å ta hensyn til det syndromet medfører. Man kan undre seg over hvorfor respondentene likevel var relativt fornøyde. Fra intervjuene var det ulike situasjoner som ble trukket frem når de snakket om positive aspekter rundt fagpersoner som jobbet med barna deres. En informant nevnte logopeden som en god støttespiller, en annen trakk frem god relasjon til barnet og godt samarbeid med barnehagen som positivt. To informanter hadde dialog med logopeden og var enige med vedkommende angående mattrening og var fornøyde med dette. En annen fremhevet det som positivt at logopeden hadde tatt i bruk språkverktøy som var gjenkjennelige, effektive og lette å ta i bruk også hjemme. Utdragene viser at god dialog, samarbeid og relasjon spiller viktige roller, faktorer som vektlegges også i Stortingsmelding 6. Her er vi inne på aspekter rundt brukerkunnskap og brukervervirkning, en av komponentene i kunnskapsbasert praksis, der brukeren står i sentrum (Kristoffersen, 2016, s. 102). Slik vi har påpekt tidligere, regnes PWS som en sjelden diagnose i norsk sammenheng. Dersom man tar i betraktning at kriteriene for PWS varierer mellom de forskjellige subtypene og at hvert individ viser ulik grad av de forskjellige

språkforstyrrelsene, forstår man at det er umulig å lage en “oppskrift” fagpersoner kan følge, når de skal jobbe med personer med PWS. I denne sammenheng blir brukerperspektivet spesielt viktig. Gjennom møter med barna og foreldrene utvikler logopedene og andre fagpersoner grundig kjennskap til personen, med sine styrker og utfordringer. På denne måten opparbeider de seg også evidensbasert kunnskap, en annen komponent innen kunnskapsbasert praksis. Det kan her tenkes at det å bli møtt med åpenhet, nysgjerrighet, interesse og engasjement, oppleves som viktigere for foreldrene enn den faglige, forskningsbaserte kunnskapen om syndromet, og at det derfor er mange som likevel er fornøyde med tilbudet.

Faglig kunnskap og kompetanse hos fagpersonene er uansett en viktig faktor for å sikre et språktilbud av god kvalitet. Respondentenes og informantenes meninger om innholdet i språktilbudet har blitt diskutert tidligere, der vi har vært inne på at noen syntes at fagpersoner kunne bli noe fastlåst i enkelte verktøy eller skulle ha brukt mer tid på andre tiltak. I forbindelse med dette vil vi trekke frem resultater i forbindelse med barnas subtype. I spørreundersøkelsen fant vi at seks av de totalt 32 som svarte, av ulike årsaker ikke visste hvilken genetisk subtype av PWS barnet deres hadde. Også i intervjuene opplevde vi usikkerhet blant flere av informantene på spørsmålet om subtype, og flere uttrykte at de ikke husket. Vi tolker det slik at subtype ikke oppleves som spesielt relevant for foreldrene i hverdagen. Disse resultatene kan tenkes å ha en sammenheng med opplevelsen av fagpersoners kompetanse. Betydningen av at subtype blir viderefremmet til logopeder og andre fagpersoner som behandler barna, er noe som har blitt trukket frem som viktig ved flere anledninger i teorikapitlet. Dette gjøres for eksempel av Lewis (2006, s. 272), som mener at informasjon om subtype kan hjelpe fagpersoner med å planlegge mer hensiktsmessige intervensjonsmetoder. Ved å inneha denne informasjonen får fagpersoner muligheten til å søke mer målrettet i forskningsartikler og publiseringer. På den måten kan de tilegne seg forskningsbasert kunnskap, den siste komponenten innen kunnskapsbasert praksis (Kristoffersen, 2016). Avvik i ekspressive og reseptive evner hos barn med mUPD er et eksempel. Forskning peker på at fagpersoner må ta hensyn til forskjeller innen disse evnene, da større uttrykksevne kan mistolkes som høyere forståelse (Dimitropoulos et al., 2013, s. 200). Dette er i tråd med det en informant fortalte, om at barnet gjentok mye av det de voksne sa og brukte det i samtale, uten helt å skjønne hva det var snakk om. På den måten fremstår barnet som sterkere språklig enn det som kanskje er realiteten. Det er ønskelig å unngå misforståelser og for høye krav til barna, men sørge for at barna får tilpassede opplegg som egner seg for dem.

Dersom man ser nærmere på noen av tallene hos respondentene som ikke var så fornøyde med tilbudet (figur 9), kan man muligens se sammenheng med når barna fikk hjelp første gang. Vi nevner at dette baserer seg på relativt få tall, men vi kan her se at barna som fikk hjelp i yngre alder hadde noe mer fornøyde foreldre. 15 av 17 respondenter med yngre barn syntes tilbudet var bra eller svært bra, mens ingen av respondentene med barn som startet opp med et tilbud i senere alder, syntes at tilbudet var svært bra. Det er vanskelig å si noe om hvorfor resultatet er som det er. Da barnas behov kan være mindre sammensatte i yngre alder, kan det være lettere å “treffe” med de tiltakene man iverksetter. Som vi har skrevet tidligere, blir atferdsutfordringene mer utpreget når barna blir eldre, et aspekt som kanskje bidrar til at treningen blir vanskeligere å gjennomføre med barn i senere alder og krever mer av fagpersonene.

5.5 Tilgang på logopeder

Uavhengig av type og grad av språkforstyrrelser finnes det prosedyrer for henvisning, vurdering og tilråding av hjelp dersom behovet er der. Når foreldre, barnehage, skole eller andre samarbeidsinstanser rundt barnet oppdager et behov, sendes det en henvisning til PPT, som er den sakkyndige instansen. De gjør en vurdering av behovet og skriver en anbefaling i en sakkyndig vurdering. Tall fra spørreundersøkelsen viser at så mange som 23 av barna som hadde mottatt hjelp, hadde fått denne hjelpen av en logoped. Dette mener vi er positive, men overraskende tall, da vi i utgangspunktet trodde at færre fikk hjelp av logoped. Likevel er det tydelig at prosessen med å få tak i en logoped ikke er enkel.

Tabell 7 viser at det i mange tilfeller tar lang tid før et språktilbud er på plass.

Henvisningsprosessen ble beskrevet som tidkrevende, og for enkelte tok det flere år fra de begynte å søke om hjelp, til et tilbud var etablert. Her stiller vi spørsmål om retningslinjene for henvisning og sakkyndig vurdering fungerer optimalt, da denne prosessen tar så lang tid. Den tidkrevende prosessen er heller ikke i tråd med den nasjonale satsingen på tidlig innsats og Stortingsmelding 6 (2019-2020).

Mange skulle også ønske at barnet deres fikk *mer* oppfølging av logopeden og mente at tilbudet de hadde var for sjeldent. Figur 8 indikerer større misnøye med tilbudet blant de som mottok et språktilbud sjeldent. I intervjuene får vi oppfatning av at det å skulle få tak i logoped er et vanlig problem, og tre av informantene var inne på at det var vanskelig å få tak i logoped fordi det fantes så få logopeder. En av informantene sa at de hintet om at

logopedhjelp burde være med i den sakkyndige vurderingen, og følte seg heldig når det kom med i vurderingen med en gang. Videre opplevde de det som flaks at noen visste om en privat logoped, da det ikke var noen kommunale logopeder tilgjengelig. Selv om økonomi på ingen måte skal være en faktor når PPT skal skrive sin vurdering, kan man stille spørsmål ved om “logoped” kan bli utelatt fra vurderingen hvis kommunene ikke har denne ansatt, men da eventuelt må benytte tjenestene til private logopeder eller kjøpe inn tjenester fra andre kommuner. Men logopedhjelp er uansett ikke en lovpålagt tjeneste og verken barnehageloven eller opplæringsloven nevner logopedhjelp spesifikt.

Dersom foreldre mangler kunnskap om hva barnet har behov for og krav på, kan man tenke seg at prosessen med å få tak i logoped blir enda vanskeligere. Som resultatene viser er det forskjell i hva slags informasjon respondentene og informantene fikk, hvem de fikk den av og når. Noen fikk informasjon av fagpersoner tidlig, andre fikk informasjonen senere, via andre foreldre eller måtte innhente den selv. Alle burde være sikre på at de har samme utgangspunkt som andre familier, uavhengig av hvem man møter på i de ulike instansene. Man burde også kunne være sikre på at man får det samme tilbudet uavhengig av hvor man bor. Fra noen av svarene kan vi se at dette er noe respondentene og informantene ikke er så sikre på, og flere pekte på ulikheter i tilbudet avhengig av bosted. Her ble det nevnt at tilbudet i Oslo for eksempel var bredere enn enkelte andre steder i Norge.

På bakgrunn av funnene i både spørreundersøkelsen og intervjuene, mener vi at rutinene for å få inn logoped ikke fungerer optimalt. Med tanke på det vi vet om barnas behov for hjelp med språk og kommunikasjon, burde det være en selvfølge å koble inn logoped. Selv om enkelte av respondentene rapporterte at barna deres ikke hadde språkforstyrrelser, tenker vi likevel at de kunne hatt utbytte av rådgivning og det å bli fulgt opp av en logoped, slik vi også har diskutert i del 5.3.7. Å koble inn logoped bør gjøres tidlig, allerede i barnets første leveår, da logopeden kan bidra med rådgivning av foreldre om barnas språkutvikling og samspillet mellom foreldre og barna når de er små. Kanskje er man også heldig og får en logoped som kan følge barnet over tid. På den måten blir logopeden godt kjent med barnet, familien og syndromet, og kan skreddersy en intervensjon som passer for den enkelte familie. Igjen kan vi spørre om dagens løsning med sakkyndig vurdering fra PPT fungerer, der det ofte anbefales et visst antall timer med oppfølging fra logoped. En mer “åpen” løsning hadde kanskje vært bedre for disse barna og familiene, der logopedtilbudet ikke trenger å avsluttes når barna har “godt nok” språk, men der foreldre og barn kan få oppfølging når de føler de har et behov. Et behov som endrer seg når barna vokser og blir eldre.

5.6 Oppsummering

I dette drøftingskapitlet har vi forsøkt å drøfte resultatene fra spørreundersøkelsen og intervjuene i lys av teorien som vi har valgt for oppgaven. For å besvare problemstillingen har vi trukket frem ulike aspekter ved hovedfunnene og sett på sammenhenger og ulikheter mellom forskningen og foreldrenes rapporteringer. På bakgrunn av funnene har vi også sett på hva vi *ikke* har hatt nok grunnlag for å kunne si noe om. I neste kapittel konkluderer vi oppgaven og avslutter med å se på styrker og svakheter ved valg vi har tatt gjennom prosessen.

6 Avslutning

I dette kapitlet oppsummerer vi hva vi har kommet frem til under drøftingen av funnene for studien vår. Vi peker også på hvordan andre kan benytte oppgaven for videre forskning på feltet og legger til slutt frem noen styrker og svakheter ved oppgaven.

Vi har undersøkt hva slags tilbud rettet mot språk og kommunikasjon personer med Prader-Willis syndrom (PWS) får. For å svare på denne problemstillingen har vi gjennomført en kvantitativ spørreundersøkelse og kvalitative intervjuer. I spørreundersøkelsen hadde vi 32 respondenter og i intervjuene fem informanter. Alle respondentene og fire av informantene var foreldre til barn med PWS, mens den siste informanten var en logoped som behandlet et barn med PWS.

6.1 Konklusjon

Ved første øyekast viser funnene at de aller fleste foreldre som mener at barna deres har et behov for hjelp med språk og kommunikasjon, også svarer at barna har fått hjelp. Flertallet av disse svarer at barna har fått hjelp av fagpersoner som logoped og spesialpedagog. Dette er tilsynelatende veldig positive funn, og generelt mener vi å ha funnet grunnlag for å si at personer med PWS stort sett mottar et språktilbud som samsvarer med det de har rett på. Men når vi dykker ned i resultatene finner vi likevel forbedringspotensial i faktorene som påvirker tilbudet.

Informasjon om både syndromet generelt og om hvilke rettigheter personer med PWS har, er av betydning for å sikre et godt tilbud. Det viser seg at mange foreldre får slik informasjon, men det er også mange som ikke får det. I tillegg er det stor variasjon i hvor informasjonen kommer fra. Det finnes veiledere og planer som skal sikre at foreldrene følges opp på en god måte, men funnene viser at rutiner som burde sikre foreldrene kunnskap ikke eksisterer, eventuelt ikke følges godt nok opp. I tillegg til at informasjonen må nå ut til foreldrene, må man også ta høyde for at informasjonen må gis flere ganger, da foreldrene på diagnostiseringstidspunktet er i en sårbar og vanskelig situasjon, med mye å forholde seg til på samme tid. Å sørge for at foreldrene får god informasjon kan gjøre dem i bedre stand til å følge opp og vurdere språktilbudet til barna sine. Med dette etterlyser vi rutiner som ivaretar foreldre til barn med sjeldne diagnoser og deres behov for informasjon.

På bakgrunn av funnene vil vi påstå at de aller fleste med PWS har et behov for hjelp, også i takt med økende alder. Dette skulle tilsi at flere også fortsatte å motta hjelp etter som de ble eldre. Her fant vi derimot indikasjoner på at de eldre barna i mindre grad mottok et språktilbud. Disse funnene er nedslående, og noe vi ønsker å trekke frem som et område for forbedring.

Med den store variasjonen av utfordringer som denne gruppen har, benyttes følgelig også ulike metoder. Her fant vi at tilbudet i stor grad innebar intervensjon rettet mot munnmotorisk trening, ASK og artikulasjonstrening. Få respondenter rapporterte derimot om et tilbud rettet mot taleflyt, og vi konkluderer med at noe av årsaken kan være at ordletingsvansker eller bruk av fyllord ikke oppfattes som en utfordring som påvirker taleflyten. Pragmatiske øvelser var en del av tilbudet for de aller færreste, og langt ifra så mange som vi hadde trodd. Det samme kan sies om foreldrerådgivning, som vi trodde var en vesentlig større del av tilbudet enn funnene viser. Her mener vi det vil være av interesse for personene med PWS, foreldrene og samfunnet for øvrig, at foreldre gjennom rådgivning blir tryggere i rollen som foreldre til et barn med særlige behov.

Mange mente at fagpersonene ikke hadde nok kompetanse, en kvalifikasjon vi har valgt å trekke frem av betydning for barnas språktilbud. Respondentene rapporterte likevel i stor grad å være fornøyde med tilbudet som ble gitt, blant annet begrunnet med god dialog, godt samarbeid og god relasjon med fagpersoner. Det kan her virke som om brukerkunnskap og brukervedvirkning veier tyngre enn de andre komponentene i kunnskapsbasert praksis, og at foreldrene i større grad verdsetter at det tas individuelle hensyn.

Mange av barna i denne studien har fått hjelp av logoped, men det er store variasjoner i tilgang. Prosessen med å få tak i logoped viser seg å være tidkrevende og vanskelig for mange. Skulle man være så heldig å få tak i en logoped, forteller flere om et tidspress hos logopedene som gjør at barna ikke alltid får tilstrekkelig oppfølging. Det er ulik dekning av logopeder rundt omkring i landet og mulighetene for å få et godt tilbud er ikke like for alle, slik det burde være.

Våre funn tyder på at mange eldre barn og voksne i mindre grad mottar et tilbud, til tross for at noen i denne gruppen fortsatt har behov for hjelp. Implikasjoner for videre forskning kan derfor være å undersøke nærmere hvorfor eldre barn og voksne med PWS i mindre grad mottar hjelp. I denne sammenheng kunne det være interessant å kartlegge språket og kommunikasjonen, for å få frem hvilken hjelp denne gruppen hovedsakelig har behov for. Da

vi opplevde at kjennskap til subtyper ikke ble lagt like mye vekt på som forskningen først ga oss inntrykk av, har vi ikke gått nærmere inn på denne tematikken i vår studie. Dette kan derimot være en anbefaling for videre studier. Vi håper oppgaven vår kan være et nyttig bidrag på et lite utforsket område og ønsker å fremheve et behov for mer forskning på språktilbudet også for andre sjeldne syndromer og diagnoser.

6.2 Styrker og svakheter ved oppgaven

I dette delkapitlet vil vi avslutte oppgaven med å legge frem studiens styrker og svakheter, ved å kritisere og forsvare valg vi har tatt i forskningsprosessen. I oppgaven har vi forsøkt å beskrive typiske trekk ved PWS. Fokuset har naturlig nok vært rettet mot det som oppleves utfordrende, da vi blant annet har undersøkt hvilke behov for hjelp personer med denne diagnosen har. Vi har forsøkt å trekke frem noen av denne gruppens styrker, men det som fungerer bra har ikke blitt vektlagt i like stor grad. Det er også viktig å nevne at det er stor variasjon innen diagnosen og at ikke alt vi har presentert, gjelder for alle personer med PWS.

En av de mest åpenbare svakhetene ved oppgaven er bruk av fagbegreper i spørreundersøkelsen. Vi ser at enkelte begreper, som “pragmatikk” og “taleflyt”, muligens er begreper som folk flest ikke kjenner til. Derfor er det nærliggende å tro at mangelen på beskrivelser av disse kan ha ført til misforståelser og bidratt til usikre data. Samtidig kan det tenkes at respondentene som har svart at dette var en del av tilbudet til sitt barn, har kjennskap til hva disse fagbegrepene innebærer. Som nevnt i del 5.3.6 kunne benyttelsen av begrepet “stamming” i stedet for taleflyt, ha ført til andre data. Slik dataene er nå, ser det ut til at det ene barnet som stammet, ikke fikk hjelp med dette som en del av tilbudet. Men hadde vi laget en svarkategori med intervensjon rettet mot stamming, kan vi undre oss over om resultatene hadde blitt annerledes. Vi har også tatt for gitt at respondentene hadde kunnskap om hva hver enkelt arbeidsmetode gikk ut på. Her kunne vi i likhet med noen av svarkategoriene for barnas utfordringer ha beskrevet hva metodene innbar eller nevnt kjente verktøy i parentes, som for eksempel “Talktools” under munnmotorisk trening og “tegn-til-tale” under ASK.

Som nevnt i del 5.2 er en annen svakhet spørsmål vi ikke stilte respondentene, som når barna fikk diagnosen, hvor lenge språktilbudet varte, hvor gamle barna var da dette ble avsluttet, om foreldrene fortsatt opplevde et behov for hjelp hos barna etter avsluttet tilbud og hvorfor det ble avsluttet. Ved utformingen av spørreskjemaet forsøkte vi så godt det lot seg gjøre å formulere spørsmål som kunne besvares av både foreldre med yngre barn og foreldre med

eldre barn. Men vi ser at vi skulle ha utformet flere spørsmål som var mer rettet mot foreldre til eldre barn, da vi gjennom funnene fra studien vår ikke kan si noe om hvor lenge språktilbudet varte for denne gruppen. Vi stilte heller ikke spørsmål om *hva* respondentene syntes var bra eller dårlig med tilbudet, og vet ikke hva de fleste syntes om arbeidsmetodene som hadde blitt benyttet for deres barn, foruten de som hadde svart hva mer eller mindre de skulle ha ønsket av tilbudet.

Under utformingen av spørreskjemaet og spørsmålene til intervjuene forsøkte vi å unngå å legge for mye vekt på logopeden som eneste fagperson til hjelp med språk og kommunikasjon. Vi ønsket data om hele språktilbudet som barna mottok, både fra logoped og spesialpedagog, men også fra andre. Likevel kan det virke som at noen respondenter og informanter fokuserte mest på tilbudet gitt av logoped, noe som er naturlig med tanke på at vi informerte om vår rolle som logopedstudenter både på e-post og i informasjonsskriv. Vi kunne derfor med fordel ha vært tydeligere på at vi ønsket informasjon om språktilbudet gitt av alle fagpersoner.

En styrke i å benytte foreldre som utvalg er at de kjenner barna sine best, at de er representert på mange av barnas arenaer og at de er til stede i mange av overgangene og fasene gjennom deres liv. Samtidig vet vi at mange foreldre ikke er en del av behandlingstimen som foregår i barnehagen eller på skolen, annet enn det som videreformidles gjennom fagpersoner eller ansatte. Vi har funnet gjennom studien vår at litt over halvparten av foreldrene *ikke* mottar foreldrerådgivning som en del av tilbudet, som kan tyde på at noen foreldre ikke blir opplyst om metodene og verktøyene som fagpersoner benytter i arbeid med deres barn. Foreldrene sitter heller ikke med fagkompetansen som logopeden eller spesialpedagogen har. Derfor foreligger det begrensinger i hvor store forventninger en skal ha til foreldrenes kjennskap til ulike utfordringer, arbeidsmetoder og verktøy rettet mot språk og kommunikasjon.

En annen styrke ved oppgaven er at vi har vært to forskere som har undersøkt samme tema, fra hvert vårt individuelle ståsted. Dette har styrket validiteten for oppgaven ved at vi sammen har diskutert, gjennomgått og bearbeidet arbeidet i flere omganger gjennom hele forskningsprosessen. Konklusjonen vår baserer seg også på to ulike tilnærminger til problemstillingen, en kvantitativ og en kvalitativ, der resultatene av disse to tilnærmingene har indikert mye av det samme.

Litteraturliste

- Abilia (u.å.). *PODD – oversikt*. Hentet 25. april 2023 fra <https://www.abilia.com/nb/podd-oversikt>
- American Speech-Language-Hearing Association. (2016). *Scope of practice in speech-language pathology* [Scope of Practice]. <https://www.asha.org/policy/sp2016-00343/>
- Anker, T. (2020). *Analyse i praksis – En håndbok for masterstudenter*. Cappelen Damm Akademisk
- Arnesen, A.-L. (2012). Inkludering: Perspektiver i barnehagefaglige praksiser – en innledning. I A.-L. Arnesen (Red.), *Inkludering* (s. 13-33). Universitetsforlaget
- Atkin, K. & Lorch, M. P. (2007). Language development in a 3-year-old boy with Prader-Willi syndrome. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 21(4), 261-276. <https://doi.org/10.1080/02699200701243865>
- Babblarna (u.å.). *Hei! Vi er Babblarna*. Hentet 25. april 2023 fra <https://babblarna.no>
- Baker, E. & McLeod, S. (2004). Evidence-based management of phonological impairment in children. *Child Language Teaching and Therapy*, 20(3), 261-285.
- Barnas språksenter (u.å.). *Hva er Talk Tools?*. Hentet 25. april 2023 fra <https://talktools.no/butikk/talk-tools>
- Barnehageloven. (2005). *Lov om barnehager* (LOV-2005-06-17-64). <https://lovdata.no/lov/2005-06-17-64>
- Befring, E. (2015). *Forskningsmetoder i samfunnsvitenskap*. Cappelen Damm Akademisk
- Bellon-Harn, M. L. (2005). Clinical management of a child with Prader-Willi Syndrome from maternal uniparental disomy (UPD) genetic inheritance. *Journal of Communication Disorders*, 38, 459-472. <https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2005.04.001>
- Binger, C. & Light, J. (2007). The effect of aided AAC modeling on the expression of multi-symbol messages by preschoolers who use AAC. *Augmentative and alternative communication*. 23(1), 30-43. [10.1080/07434610600807470](https://doi.org/10.1080/07434610600807470)
- Braun, V. & Clarke, V. (2022). *Thematic analysis – A practical guide*. Sage
- Byrne, D. (2021). A worked example of Braun and Clarke's approach to reflexive thematic analysis. *Quality & Quantity*, 56, 1391-1412. <https://doi.org/10.1007/s11135-021-01182-y>
- Dalen, M. (2011). *Intervju som forskningsmetode – en kvalitativ tilnærming*. (2. utg.). Universitetsforlaget

- Debladis, J., Valette, M., Strenilkov, K., Mantoulan, C., Thuilleaux D., Laurier, V., Molinas, C., Barone, P. & Tauber, M. (2019). Face processing and exploration of social signals in Prader-Willi syndrome: a genetic signature. *Orphanet Journal of Rare Diseases*, 14(262). <https://doi.org/10.1186/s13023-019-1221-3>
- Defloor, T., Van Borsel, J. & Curfs, L. (2000). Speech fluency in Prader-Willi syndrome. *Journal of fluency disorders*, 25(2), 85-98. [https://doi.org/10.1016/S0094-730X\(00\)00026-7](https://doi.org/10.1016/S0094-730X(00)00026-7)
- Defloor, T., Van Borsel, J. & Curfs, L. (2002). Articulation in Prader-Willi syndrome. *Journal of communication disorders*, 35(3), 261-282. [https://doi.org/10.1016/S0021-9924\(02\)00057-6](https://doi.org/10.1016/S0021-9924(02)00057-6)
- Dimitropoulos, A., Ferranti, A., & Lemler, M. (2013). Expressive and receptive language in Prader-Willi syndrome: Report on genetic subtype difference. *Journal of Communication Disorders*, 46(2), 193-201. <https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2012.12.001>
- Dimitropoulos, A., Zyga, O. & Russ, S. W. (2019). Early Social Cognitive Ability in Preschoolers with Prader–Willi Syndrome and Autism Spectrum Disorder. *Journal of Autism & Developmental Disorders*, 49(11), 4441-4454. <https://doi.org/10.1007/s10803-019-04152-4>
- Dodd, B. (2005). *Differential Diagnosis and Treatment of Children with Speech Disorder*. (2. utg.). John Wiley & Sons Inc.
- Dykens, E. M., Roof, E. & Hunt-Hawkins, H. (2017). Cognitive and adaptive advantages of growth hormone treatment in children with Prader-Willi syndrome. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 58(1), 64-74. <https://doi.org/10.1111/jcpp.12601>
- Famelart, N., Diene, G., Çabal-Berthoumieu, S., Glattard, M., Molinas, C., Guidetti, M. & Tauber, M. (2020). Equivocal expression of emotions in children with Prader-Willi syndrome: what are the consequences for emotional abilities and social adjustment?. *Orphanet Journal of Rare Diseases*, 15(55), 1-14. <https://doi.org/10.1186/s13023-020-1333-9>
- Feldman, B. H. & Dimitropoulos, A. (2014). Face Discrimination Skills in Prader-Willi Syndrome and Autism Spectrum Disorder. *Journal of Mental Health Research in Intellectual Disabilities*, 7(3), 264-285. <https://doi.org/10.1080/19315864.2013.857744>
- Folketrygdloven. (1997). Lov om folketrygd (LOV-1997-02-28-19). <https://lovdata.no/lov/1997-02-28-19>

- Forente nasjoner. (1989). *FNs konvensjon om barnets rettigheter: Vedtatt av De Forente nasjoner 20. november 1989; Ratifisert av Norge 8. januar 1991* (Rev. oms. mars 2003 med tilleggsprotokollar). Barne- og familiedepartementet.
https://www.regjeringen.no/globalassets/upload/kilde/bfd/bro/2004/0004/ddd/pdfv/178931-fns_barnekonvensjon.pdf
- Frambu kompetansesenter for sjeldne diagnoser. (2002). *En god start - Veileder til bruk i diagnoseprosessen ved funksjonshemming hos foster og barn*. Sosial- og helsedirektoratet. [En-god-start-Veileder-i-diagnoseformidling.pdf \(frambu.no\)](#)
- Frambu kompetansesenter for sjeldne diagnoser. (2019, juli). *Hva er en sjelden diagnose?* Hentet fra <https://frambu.no/tema/hva-er-en-sjelden-diagnose/>
- Frambu kompetansesenter for sjeldne diagnoser. (2020, april). *Medisinsk beskrivelse av Prader-Willis syndrom*. Hentet fra <https://frambu.no/diagnosebeskrivelse/medisinsk-beskrivelse-prader-willis-syndrom/>
- Garayzabal-Heinze, E., Capó, M., Moruno, E., Gonçalves, Ó. F., Montserrat Fernández, Lens, M. & Sampaio A. (2012). Uncommon genetic syndromes and narrative production - Case Studies with Williams, Smith-Magenis and Prader-Willi Syndromes?. *International Journal of Developmental Disabilities*, 58(1), 48-65.
<http://doi.org/10.1179/2047387711Y.0000000008>
- Gilje, N. & Grimen, H. (1993). *Samfunnsvitenskapelige forutsetninger*. Universitetsforlaget
- Groven, B. (2013). *Spesialpedagogen i endringstider*. Universitetsforlaget
- Hamrick, L. R. & Tonnesen, B. L. (2019). Validating and Applying the CSBS-ITC in Neurogenetic Syndromes. *American Journal on Intellectual and Developmental Disabilities*, 124(3), 263-285. <https://doi.org/10.1352/1944-7558-124.3.263>
- Helse- og omsorgsdepartementet (2021). *Nasjonal strategi for sjeldne diagnoser*.
<https://www.regjeringen.no/contentassets/1bc4b02a80c04553ba6d95170aa0a272/no/pdfs/i-1209-b-strategi-for-sjeldne-diagnoser.pdf>
- Helse- og omsorgstjenesteloven (2011). *Lov om kommunale helse- og omsorgstjenester m.m.* (LOV-2011-06-24-30). <https://lovdata.no/lov/2011-06-24-30>
- Helsebiblioteket (2021, 17. september). *Kunnskapsbasert praksis*. <https://www.helsebiblioteket.no/innhold/artikler/kunnskapsbasert-praksis/kunnskapsbasertpraksis.no>
- Ho, A. Y. & Dimitropoulos, A. (2010). Clinical management of behavioral characteristics of Prader-Willi syndrome. *Neuropsychiatric Disease and Treatment*, 6(1), 107-118.
<https://doi.org/10.2147/NDT.S5560>

- Hummelvoll, G. & Haug, M. K. (2002). *En god start: veileder til bruk i diagnoseprosessen ved funksjonshemming hos foster og barn* (p. 30). Sosial- og helsedirektoratet.
- Johannessen, A., Tufte, P. A. & Christoffersen, L. (2021). *Introduksjon til samfunnsvitenskapelig metode* (6. utg.). Abstrakt forlag.
- Kleppe, S. A., Katayama, K. M. & Shipley, K. G. & Foushee, D. R. (1990). The Speech and Language Characteristics of Children with Prader-Willi Syndrome. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 55(2), 300-309. <https://doi.org/10.1044/jshd.5502.300>
- Klingenberg, C., Myhre, A. G. & Førsvoll, J. (2021, 01. januar). *Prader-Willi Syndrom*. <https://www.helsebiblioteket.no/innhold/retningslinjer/pediatri/nyfodtmedisin-veiledende-prosedyrer-fra-norsk-barnelegeforening/16-genetiske-analyser-og-syndromer-genetikk/16.5-prader-willi-syndrom>
- Kristoffersen, K. E. (2005). Hva er språk? I K. E. Kristoffersen, H. G. Simonsen og A. Sveen (Red.) *Språk: en grunnbok* (s. 17-38). Universitetsforlaget
- Kristoffersen, K. E. (2016). *Kunnskapsbasert praksis ved sjeldne diagnoser*. Frambu kompetansesenter for sjeldne diagnoser. https://www.researchgate.net/profile/Kristian-Kristoffersen/publication/311571611_Kunnskapsbasert_praksis_ved_sjeldne_diagnoser/links/584daa4208aecb6bd8c9b00d/Kunnskapsbasert-praksis-ved-sjeldne-diagnoser.pdf
- Kulturdepartementet (2019). *Et samfunn for alle – Likestilling, demokrati og menneskerettigheter*. <https://www.regjeringen.no/contentassets/4538c7392f3d417a8d7cc48965a603c9/et-samfunn-for-alle---regjeringens-handlingsplan-for-likestilling-av-personer-med-funksjonsnedsettelse-des-2019.pdf>
- Kvale, S. & Brinkmann, S. (2015). *Det kvalitative forskningsintervju* (3. utg.). Gyldendal
- Kvavik, C. & Linnes, H. S. (2022). *Logopedtilbud og andre tilbud rettet mot språk og kommunikasjon til mennesker med Cri du Chat-syndrom - Fra foreldrenes perspektiv*. [Mastergradsavhandling, Nord universitet]. Nord Open Research Archive. <https://nordopen.nord.no/nord-xmlui/handle/11250/3018116>
- Landsforeningen for Prader-Willis syndrom (u.å.). *Om oss*. Hentet 25. april 2023 fra [Om oss – Prader-Willis Syndrom](#)
- Lewis, B. A., Freebairn, L., Heeger, S. & Cassidy, S. B. (2002). Speech and language skills of individuals with Prader-Willi syndrome. *American Journal of Speech – Language Pathology*, 11(3), 285-294. [10.1044/1058-0360\(2002/033\)](https://doi.org/10.1044/1058-0360(2002/033))

- Lewis, B. A. (2006). Speech and Language Disorders Associated with Prader-Willi Syndrome. I M. G. Butler, P. D. K. Lee & B. Y. Whitman (Red.), *Management of Prader-Willi syndrome* (3. Utg., s. 272-283). Springer
- Meld. St. 6 (2019-2020). *Tett på: Tidlig innsats og inkluderende fellesskap i barnehage, skole og SFO*. Kunnskapsdepartementet.
<https://www.regjeringen.no/contentassets/3dacd48f7c94401ebefc91549a5d08cd/no/pdfs/stm201920200006000dddpdfs.pdf>
- Meld. St. 8 (2022-2023). *Menneskerettar for personar med utviklingshemming — — Det handlar om å bli høyrte og sett*. Kultur- og likestillingsdepartementet.
<https://www.regjeringen.no/contentassets/3ea1c0ef367a44ee8d3597a04f86c8f7/nn-no/pdfs/stm202220230008000dddpdfs.pdf>
- Meld. St. 18 (2010-2011). *Læring og fellesskap: Tidlig innsats og gode læringsmiljøer for barn, unge og voksne med særlige behov*. Kunnskapsdepartementet.
<https://www.regjeringen.no/contentassets/baeeee60df7c4637a72fec2a18273d8b/no/pdfs/stm201020110018000dddpdfs.pdf>
- Meld. St. 25 (2020-2021). *Likeverdsreformen — Et samfunn med bruk for alle*. Helse- og omsorgsdepartementet.
<https://www.regjeringen.no/contentassets/2d4274ffc8f3497aa428a443c0f530ab/no/pdfs/stm202020210025000dddpdfs.pdf>
- Miller, J. L. & Plager, S. S. (2014) Speech and Language Issues in Children with Prader-Willi Syndrome. *Journal of Intellectual Disability - Diagnosis and Treatment*, 2, 164-168.
<http://doi.org/10.6000/2292-2598.2014.02.03.2>
- Misquiatti, A. R. N., Cristovão, M. P. & Brito, M. C. (2011). Trajectory and outcomes of speech-language therapy in the Prader-Willi Syndrome (PWS): case report. *Jornal da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia*, 23(1), 77-81. [10.1590/s2179-64912011000100016](https://doi.org/10.1590/s2179-64912011000100016)
- NESH - Den nasjonale forskningsetiske komité for samfunnsvitenskap og humaniora (2021). *Forskningsetiske retningslinjer for samfunnsvitenskap og humaniora*. (5. utg.).
<https://www.forskningsetikk.no/globalassets/dokumenter/4-publikasjoner-som-pdf/forskningsetiske-retningslinjer-for-samfunnsvitenskap-og-humaniora>
- Nordahl, T. (2018). *Inkluderende fellesskap for barn og unge*. Fagbokforlaget
- Norsk logopedlag (u.å.) *Hva er logopedi?* Hentet 25. april fra
<https://www.norsklogopedlag.no/logopedi/>
- Nyeng, F. (2012). *Nøkkelbegreper i forskningsmetode og vitenskapsteori*. Fagbokforlaget

- Næss, K.-A. B. (2015). God kommunikasjon med ASK-brukere. I Næss & Karlsen (red.) *God kommunikasjon med ASK-brukere*. Fagbokforlaget (s. 15-46)
- Opplæringsloven (1998). Lov om grunnskolen og den videregående opplæringen (LOV-1998-07-17-61). <https://lovdata.no/lov/1998-07-17-61>
- Pansy, J., Barones, C., Urlesberger, B., Pokorny, F. B., Bartl-Pokorny, K. D., Verheyen, S., Marschik, P. B. & Einspieler, C. (2019). Early motor and pre-linguistic verbal development in Prader-Willi syndrome – A case report. *Research in Developmental Disabilities*, 88, 16-21. <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2019.01.012>
- Prader, A., Labhart, A., & Willi, H. (1956). Ein Syndrome von Adipositas, Kleinwuchs, Kryptochismus und Oligophrenie nach myatonieartigem Zustand in Neugeborenenalter. *Schweizerische Medizinische Wochenschrift*, 86, 1260–1261.
- Rosner, B. A., Hodapp, R. M., Fidler, D. J., Sagun, J. N. & Dykens, E. M. (2004). Social Competence in Persons with Prader-Willi, Williams and Down's Syndromes. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 17, 209-217. <https://doi.org/10.1111/j.1468-3148.2004.00200.x>
- Rydeman, B. (2015). Symbolsystem i AKK. I K.-A. B. Næss & A. V. Karlsen (Red.), *God kommunikasjon med ASK-brukere* (s. 159-186). Fagbokforlaget
- Røste, I. (2018). Hvorfor er vi logopeder så glade i å rekke tunge? *Norsk Tidsskrift for Logopedi*, 64(2), 46-47.
- Saeves, R., Åsten, P., Storhaug, K. & Bågesund, M. (2011). Orofacial dysfunction in individuals with Prader-Willi syndrome assessed with NOT-S. *Acta Odontologica Scandinavica* 69(5). 310-315. <http://doi.org/10.3109/00016357.2011.568961>
- Skogdal, S. (2015). Mulighetsbetingelser for deltakelse og kommunikasjon i skolen. I K.-A. B. Næss & A. V. Karlsen (Red.), *God kommunikasjon med ASK-brukere* (s. 217-238). Fagbokforlaget
- Statped. (2022, februar). *Hva er språklydsvansker?* <https://www.statped.no/sprakforstyrrelser/spraklydsvansker/#no-50105-0->
- Strenilkov, K., Debladis, J, Salles, J., Valette, M., Mantoulan, C., Thuilleaux, D., Laurier, V., Molinas, C., Barone, P. & Tauber, M. (2020). A study of voice and non-voice processing in Prader-Willi syndrome. *Orphanet Journal of Rare Diseases* 15(22). <https://doi.org/10.1186/s13023-020-1298-8>
- University of Auckland (u.å.). *Doing Reflexive TA*. Hentet 14. februar 2023 fra <https://www.thematicanalysis.net/doing-reflexive-ta/>

- Ward, D. (2018). *Stuttering and Cluttering – Frameworks for Understanding and Treatment* (2. utg.) Routledge
- Whittington, J. & Holland, T. (2011). Recognition of emotion in facial expression by people with Prader–Willi syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research*, 55(1), 75-84. <https://doi.org/10.1111/j.1365-2788.2010.01348.x>
- Zyga, O. & Dimitropoulos, A. (2020). Preliminary Characterization of Parent-Child Interaction in Preschoolers With Prader-Willi Syndrome: The Relationship Between Engagement and Parental Stress. *American Journal of Intellectual Developmental Disabilities*, 125(1), 76-84. <https://doi.org/10.1352/1944-7558-125.1.76>
- Åkefeldt, A., Åkefeldt, B. & Gillberg, C. (1997). Voice, speech and language characteristics of children with Prader-Willi syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research*, 41(4), 302-311. <https://doi.org/10.1111/j.1365-2788.1997.tb00713.x>

Figur-, tabell- og bildeoversikt

Figurer:

Figur 1: Modell over kunnskapsbasert praksis (Helsebiblioteket, 2021).....	s. 12
Figur 2: Oversikt over endelige temaer med tilhørende undertemaer.....	s. 31
Figur 3: Alder og utfordringer.....	s. 37
Figur 4: Hva tilbudet innebar.....	s. 41
Figur 5: Hva respondentene syntes om tilbudet.....	s. 42
Figur 6: Hva respondentene syntes om tilbudet sammenlignet med om fagpersoner hadde nok kompetanse om PWS.....	s. 42
Figur 7: Hva respondentene syntes om tilbudet sammenlignet med om fagpersoner tok diagnosespesifikke hensyn.....	s. 43
Figur 8: Hva respondentene syntes om tilbudet sammenlignet med hvor ofte barna fikk hjelp med språket og kommunikasjonen.....	s. 44
Figur 9: Hva respondentene syntes om tilbudet sammenlignet med hvor gamle barna var da de fikk hjelp første gang.....	s. 44

Tabeller:

Tabell 1: Søkeord.....	s. 6
Tabell 2: Utdrag fra egen kodingstabell.....	s. 28
Tabell 3: Kommunestørrelse.....	s. 35
Tabell 4: Starttidspunkt for veksthormonbehandling.....	s. 35
Tabell 5: Individuelle data fra de ulike deltakerne i spørreundersøkelsen.....	s. 36
Tabell 6: Data om søkeprosessen for gruppen som ikke har mottatt hjelp.....	s. 38
Tabell 7: Data om søkeprosessen for gruppen som har mottatt hjelp.....	s. 39
Tabell 8: Barnas alder da de fikk hjelp første gang.....	s. 40

Bilder:

Bilde 1: Første inndeling i temaer.....	s. 29
Bilde 2: Prosessen med inndeling av temaer.....	s. 30

Vedlegg

Vedlegg 1: Godkjenning fra Sikt.....	s. 1
Vedlegg 2: Samtykkeskjema intervju - foreldre.....	s. 4
Vedlegg 3: Samtykkeskjema intervju - logoped.....	s. 7
Vedlegg 4: Spørreundersøkelsen - spørsmål og svaralternativer.....	s. 10
Vedlegg 5: Spørreundersøkelsen - oversikt over ulike retninger.....	s. 18
Vedlegg 6: Intervjuguide - foreldre.....	s. 19
Vedlegg 7: Skriftlig intervju – logoped.....	s. 21

Vedlegg 1

Godkjenning fra Sikt

Meldeskjema for behandling av personopplysninger

27.02.2023, 13:07



[Meldeskjema](#) / [Masteroppgave om Prader-Willis syndrom](#) / Vurdering

Vurdering av behandling av personopplysninger

Referansenummer
911779

Vurderingstype
Standard

Dato
24.11.2022

Prosjekttittel

Masteroppgave om Prader-Willis syndrom

Behandlingsansvarlig institusjon

Nord Universitet / Fakultet for lærerutdanning og kunst- og kulturfag / Logopedi, spesialpedagogikk, tilpasset opplæring

Prosjektansvarlig

Kristian Emil Kristoffersen

Student

Marthe Fagerheim Nergaard

Prosjektperiode

01.10.2022 - 30.06.2023

Kategorier personopplysninger

Alminnelige

Særlige

Lovlig grunnlag

Samtykke (Personvernforordningen art. 6 nr. 1 bokstav a)

Behandlingen av personopplysningene er lovlig så fremt den gjennomføres som oppgitt i meldeskjemaet. Det lovlige grunnlaget gjelder til 30.06.2023.

[Meldeskjema](#)

Kommentar

OM VURDERINGEN

Personverntjenester har en avtale med institusjonen du forsker eller studerer ved. Denne avtalen innebærer at vi skal gi deg råd slik at behandlingen av personopplysninger i prosjektet ditt er lovlig etter personvernregelverket.

Personverntjenester har nå vurdert den planlagte behandlingen av personopplysninger. Vår vurdering er at behandlingen er lovlig, hvis den gjennomføres slik den er beskrevet i meldeskjemaet med dialog og vedlegg.

VIKTIG INFORMASJON TIL DEG

Du må lagre, sende og sikre dataene i tråd med retningslinjene til din institusjon. Dette betyr at du må bruke leverandører for spørreskjema, skylagring, videosamtale o.l. som institusjonen din har avtale med. Vi gir generelle råd rundt dette, men det er institusjonens egne retningslinjer for informasjonssikkerhet som gjelder.

VURDERING AV BEHOV FOR DPIA

Prosjektet behandler særlige kategorier av personopplysninger om barn. Personverntjenester vurderer at det er behov for å gjøre en personvernkonsekvensvurdering etter artikkel 35 basert på en helhetsvurdering der vi vektlegger følgende momenter:

- Det gis informasjon og foresatte samtykker til behandlingen
- Prosjektet har kort varighet

TYPE OPPLYSNINGER OG VARIGHET

Prosjektet vil behandle alminnelige personopplysninger og særlige kategorier av personopplysninger om helse frem til 30.06.2023.

LOVLIG GRUNNLAG

Prosjektet vil innhente samtykke fra de registrerte til behandlingen av personopplysninger. Vår vurdering er at prosjektet legger opp til et samtykke i samsvar med kravene i art. 4 og 7, ved at det er en frivillig, spesifikk, informert og utvetydig bekreftelse som kan dokumenteres, og som den registrerte kan trekke tilbake. Lovlig grunnlag for behandlingen vil dermed være den registrertes samtykke, jf. personvernforordningen art. 6 nr. 1 bokstav a.

LOVLIG GRUNNLAG TREDJEPERSONER

Prosjektet vil innhente samtykke fra foresatte til behandlingen av personopplysninger om barna. Vår vurdering er at prosjektet legger opp til et samtykke i samsvar med kravene i art. 4 nr. 11 og 7, ved at det er en frivillig, spesifikk, informert og utvetydig bekreftelse, som kan dokumenteres, og som den registrerte kan trekke tilbake.

For alminnelige personopplysninger vil lovlig grunnlag for behandlingen være den foresattes samtykke, jf. personvernforordningen art. 6 nr. 1 a.

Behandlingen av særlige kategorier av personopplysninger er basert på uttrykkelig samtykke fra de foresatte, jf. personvernforordningen art. 6 nr. 1 a og art. 9 nr. 2 a.

PERSONVERNPRINSIPPER

Personverntjenester vurderer at den planlagte behandlingen av personopplysninger vil følge prinsippene i personvernforordningen:

- om lovlighet, rettferdighet og åpenhet (art. 5.1 a), ved at de registrerte får tilfredsstillende informasjon om og samtykker til behandlingen
- formålsbegrensning (art. 5.1 b), ved at personopplysninger samles inn for spesifikke, uttrykkelig angitte og berettigede formål, og ikke viderebehandles til nye uforenlige formål
- dataminimering (art. 5.1 c), ved at det kun behandles opplysninger som er adekvate, relevante og nødvendige for formålet med prosjektet
- lagringsbegrensning (art. 5.1 e), ved at personopplysningene ikke lagres lengre enn nødvendig for å oppfylle formålet.

DE REGISTRERTES RETTIGHETER

Vi vurderer at informasjonen om behandlingen som de registrerte vil motta oppfyller lovens krav til form og innhold, jf. art. 12.1 og art. 13.

Så lenge de registrerte kan identifiseres i datamaterialet vil de ha følgende rettigheter: innsyn (art. 15), retting (art. 16), sletting (art. 17), begrensning (art. 18) og dataportabilitet (art. 20).

Vi minner om at hvis en registrert tar kontakt om sine rettigheter, har behandlingsansvarlig institusjon plikt til å svare innen en måned.

FØLG DIN INSTITUSJONS RETNINGSLINJER

Personverntjenester legger til grunn at behandlingen oppfyller kravene i personvernforordningen om riktighet (art. 5.1 d), integritet og konfidensialitet (art. 5.1 f) og sikkerhet (art. 32).

Ved bruk av databehandler (spørreskjemaleverandør, skylagring, videosamtale o.l.) må behandlingen oppfylle kravene til bruk av databehandler, jf. art 28 og 29. Bruk leverandører som din institusjon har avtale med.

For å forsikre dere om at kravene oppfylles, må prosjektansvarlig følge interne retningslinjer/rådføre dere med behandlingsansvarlig institusjon.

MELD VESENTLIGE ENDRINGER

Dersom det skjer vesentlige endringer i behandlingen av personopplysninger, kan det være nødvendig å melde dette til oss ved å oppdatere meldeskjemaet. Før du melder inn en endring, oppfordrer vi deg til å lese om hvilken type endringer det er nødvendig å melde:

<https://www.nsd.no/personverntjenester/fyll-ut-meldeskjema-for-personopplysninger/melde-endringer-i-meldeskjema>

Du må vente på svar fra oss før endringen gjennomføres.

OPPFØLGING AV PROSJEKTET

Vi vil følge opp ved planlagt avslutning for å avklare om behandlingen av personopplysningene er avsluttet.

Kontaktperson hos oss: Janniche Linde

Lykke til med prosjektet!

Vedlegg 2

Samtykkeskjema intervju – foreldre

Vil du delta i forskningsprosjektet

“Tilbud rettet mot språk og kommunikasjon til personer med Prader-Willis syndrom (PWS)”?

Dette er et spørsmål til deg om å delta i et forskningsprosjekt hvor formålet er å *undersøke hvilke tilbud rettet mot språk og kommunikasjon barn og voksne med Prader-Willis syndrom får*. I dette skrivet gir vi deg informasjon om målene for prosjektet og hva deltakelse vil innebære for deg.

Formål

Vi er to studenter som skriver masteroppgave om barn og voksne med Prader-Willis syndrom og hvilke tilbud rettet mot språk og kommunikasjon vedkommende mottar. Formålet med prosjektet er å undersøke hvorvidt barn/voksne med PWS får slike tilbud, hva tilbudet innebærer og hvordan dere som foreldre opplever tilbudet og eventuelt involveres som en del av hjelpen.

Hvem er ansvarlig for forskningsprosjektet?

Nord universitet er ansvarlig for prosjektet.

Hvorfor får du spørsmål om å delta?

Vi spør deg om å delta fordi du har et barn med Prader-Willis syndrom, og gjennom intervju med deg ønsker vi å få innsikt i hvilke tilbud rettet mot språk og kommunikasjon barnet ditt mottar/har mottatt, hvordan du opplever tilbudet og om du eventuelt får rådgivning på området eller på annet vis blir involvert i språkarbeidet. Gjennom vår veileder har vi opprettet kontakt med landsforeningen for Prader-Willis syndrom, og ønsker der å komme i kontakt med noen foreldre som ønsker å stille til intervju. Intervjuet vil foregå individuelt gjennom videofunksjonen Teams.

Hva innebærer det for deg å delta?

Intervju som metode vil som nevnt gjennomføres individuelt. Vi har gjennom spørreskjema utført en undersøkelse med flere foreldre som har barn med Prader-Willis syndrom, men vil i denne omgang intervju et lite utvalg, for å innsamle mer utdypende svar til prosjektet.

Hvis du velger å delta i prosjektet, innebærer det at du stiller opp til intervju. Det vil ta deg ca. 30 – 45 minutter. Intervjuguiden inneholder noen generelle spørsmål om ditt barns språk, språkutvikling og eventuelle språk- og kommunikasjonsvansker, spørsmål om hvilke tilbud knyttet til språk og kommunikasjon barnet ditt mottar/har mottatt, hvordan du opplever tilbudet og om du selv er involvert i prosessen. Dine svar fra intervjuet blir registrert som lydopptak gjennom *Nettskjema-diktafon mobilapp*, som umiddelbart krypterer lydopptaket og leverer lydfilen trygt til *Nettskjema*. Lydopptak vil bidra til korrekt gjengivelse av

informasjonen vi innhenter, men som deltaker vil verken du eller ditt barn bli gjenkjent i publikasjonen.

Det er frivillig å delta

Det er frivillig å delta i prosjektet. Hvis du velger å delta, kan du når som helst trekke samtykket tilbake uten å oppgi noen grunn. Alle dine personopplysninger vil da bli slettet. Det vil ikke ha noen negative konsekvenser for deg hvis du ikke vil delta eller senere velger å trekke deg.

Ditt personvern – hvordan vi oppbevarer og bruker dine opplysninger

Vi vil bare bruke opplysningene du deler til formålene vi har fortalt om i dette skrivet. Vi behandler opplysningene konfidensielt og i samsvar med personvernregelverket.

- Ved Nord universitet vil kun vi og vår veileder, Kristian Emil Kristoffersen, ha tilgang til informasjonen du gir oss.
- Lydopptaket blir lagret på en sikker nettside kalt *Nettskjema* og slettes automatisk etter 90 dager. Du kan når som helt be om at lydopptaket slettes før dette.
- Navnet og kontaktopplysningene dine vil oppbevares trygt på to forskjellige enheter med to-trinns autorisering.
- Ved publikasjon vil du ikke kunne gjenkjennes i masteroppgaven.

Hva skjer med personopplysningene dine når forskningsprosjektet avsluttes?

Prosjektet vil etter planen avsluttes 30.06.2023. Etter prosjektslutt vil datamaterialet med dine personopplysninger anonymiseres. Lydopptaket lagres trygt i *Nettskjema*, og slettes automatisk 90 dager etter innhenting.

Hva gir oss rett til å behandle personopplysninger om deg?

Vi behandler opplysninger om deg basert på ditt samtykke.

På oppdrag fra Nord universitet har Sikt – Kunnskapssektorens tjenesteleverandør vurdert at behandlingen av personopplysninger i dette prosjektet er i samsvar med personvernregelverket.

Dine rettigheter

Så lenge du kan identifiseres i datamaterialet, har du rett til:

- innsyn i hvilke opplysninger vi behandler om deg, og å få utlevert en kopi av opplysningene
- å få rettet opplysninger om deg som er feil eller misvisende
- å få slettet personopplysninger om deg
- å sende klage til Datatilsynet om behandlingen av dine personopplysninger

Hvis du har spørsmål til studien, eller ønsker å vite mer om eller benytte deg av dine rettigheter, ta kontakt med Nord universitet ved:

- Kristian Emil Kristoffersen på telefon: +47 755 17 198 og e-post: kristian.e.kristoffersen@nord.no.

- Vårt personvernombud Toril Irene Kringen på telefon: +47 740 22 750 og e-post: personvernombud@nord.no.

Hvis du har spørsmål knyttet til Personverntjenester sin vurdering av prosjektet, kan du ta kontakt med:

- Personverntjenester på epost: (personverntjenester@sikt.no) eller på telefon: +47 532 11 500.

Med vennlig hilsen

Prosjektansvarlig

(Veileder)

Kristian Emil Kristoffersen

Studenter

May Beate Oppgård & Marthe Fagerheim Nergaard

Samtykkeerklæring

Jeg har mottatt og forstått informasjon om prosjektet *Tilbud rettet mot språk og kommunikasjon til personer med Prader-Willis syndrom (PWS)*, og har fått anledning til å stille spørsmål. Jeg samtykker til:

- å delta i intervju

Jeg samtykker til at mine opplysninger behandles frem til prosjektet er avsluttet

(Signert av prosjektdeltaker, dato)

Vedlegg 3

Samtykkeskjema intervju – logoped

Vil du delta i forskningsprosjektet

“Tilbud rettet mot språk og kommunikasjon til personer med Prader-Willis syndrom (PWS)”?

Dette er et spørsmål til deg om å delta i et forskningsprosjekt hvor formålet er å *undersøke hvilke tilbud rettet mot språk og kommunikasjon barn og voksne med Prader-Willis syndrom får*. I dette skrevet gir vi deg informasjon om målene for prosjektet og hva deltakelse vil innebære for deg.

Formål

Vi er to studenter som skriver masteroppgave om barn og voksne med Prader-Willis syndrom og hvilke tilbud rettet mot språk og kommunikasjon vedkommende mottar. Formålet med prosjektet er å undersøke hvorvidt barn/voksne med PWS får slike tilbud, hva tilbudet innebærer og hvordan foreldre opplever tilbudet og om de eventuelt involveres som en del av hjelpen.

Hvem er ansvarlig for forskningsprosjektet?

Nord universitet er ansvarlig for prosjektet.

Hvorfor får du spørsmål om å delta?

Vi spør deg om å delta fordi du er logopeden til et barn med Prader-Willis syndrom, og foreldrene til barnet har foreslått at det kan være aktuelt å invitere nettopp deg til et intervju. Gjennom intervjuet ønsker vi å få innsikt i det konkrete tilbudet rettet mot språk og kommunikasjon barnet mottar eller har mottatt i samarbeid med deg. Intervjuet vil foregå individuelt gjennom videofunksjonen Teams.

Hva innebærer det for deg å delta?

Intervju som metode vil gjennomføres individuelt. Vi har gjennomført en spørreundersøkelse med foreldre til barn/voksne med PWS og kommer videre til å intervju fire foreldre for å kartlegge deres erfaringer med språktilbudet som deres barn får, og én logoped for å se tilbudet fra ståstedet til en fagperson.

Hvis du velger å delta i prosjektet, innebærer det at du stiller opp til intervju. Det vil ta deg ca. 30 - 45 minutter. Intervjuguiden inneholder spørsmål om hva slags tiltak og arbeidsmetoder knyttet til språk og kommunikasjon du har brukt med sammen med barnet med Prader-Willis syndrom, samt dine kunnskaper om syndromet og erfaringer rundt dette. Dine svar fra intervjuet blir registrert som lydopptak gjennom *Nettskjema-diktafon mobilapp*, som umiddelbart krypterer lydopptaket og leverer lydfilen trygt til *Nettskjema*. Lydopptak vil bidra til korrekt gjengivelse av informasjonen vi innhenter, men som deltaker vil verken du eller barnet med Prader-Willis syndrom bli gjenkjent i publikasjonen.

Det er frivillig å delta

Det er frivillig å delta i prosjektet. Hvis du velger å delta, kan du når som helst trekke samtykket tilbake uten å oppgi noen grunn. Alle dine personopplysninger vil da bli slettet. Det vil ikke ha noen negative konsekvenser for deg hvis du ikke vil delta eller senere velger å trekke deg.

Ditt personvern – hvordan vi oppbevarer og bruker dine opplysninger

Vi vil bare bruke opplysningene du deler til formålene vi har fortalt om i dette skrivet. Vi behandler opplysningene konfidensielt og i samsvar med personvernregelverket.

- Ved Nord universitet vil kun vi og vår veileder, Kristian Emil Kristoffersen, ha tilgang til informasjonen du gir oss.
- Lydopptaket blir lagret på en sikker nettside kalt *Nettskjema* og slettes automatisk etter 90 dager. Du kan når som helt be om at lydopptaket slettes før dette.
- Navnet og kontaktopplysningene dine vil oppbevares trygt på to forskjellige enheter med to-trinns autorisering.
- Ved publisering vil du ikke kunne gjenkjennes i masteroppgaven.

Hva skjer med personopplysningene dine når forskningsprosjektet avsluttes?

Prosjektet vil etter planen avsluttes 30.06.2023. Etter prosjektslutt vil datamaterialet med dine personopplysninger anonymiseres. Lydopptaket lagres trygt i *Nettskjema*, og slettes automatisk 90 dager etter innhenting.

Hva gir oss rett til å behandle personopplysninger om deg?

Vi behandler opplysninger om deg basert på ditt samtykke.

På oppdrag fra Nord universitet har NSD – Norsk senter for forskningsdata vurdert at behandlingen av personopplysninger i dette prosjektet er i samsvar med personvernregelverket.

Dine rettigheter

Så lenge du kan identifiseres i datamaterialet, har du rett til:

- innsyn i hvilke opplysninger vi behandler om deg, og å få utlevert en kopi av opplysningene
- å få rettet opplysninger om deg som er feil eller misvisende
- å få slettet personopplysninger om deg
- å sende klage til Datatilsynet om behandlingen av dine personopplysninger

Hvis du har spørsmål til studien, eller ønsker å vite mer om eller benytte deg av dine rettigheter, ta kontakt med Nord universitet ved:

- Kristian Emil Kristoffersen på telefon: +47 755 17 198 og e-post: kristian.e.kristoffersen@nord.no.
- Vårt personvernombud Toril Irene Kringen på telefon: +47 740 22 750 og e-post: personvernombud@nord.no.

Hvis du har spørsmål knyttet til Personverntjenester sin vurdering av prosjektet, kan du ta kontakt med:

- Personverntjenester på epost: (personverntjenester@sikt.no) eller på telefon: +47 532 11 500.

Med vennlig hilsen

Prosjektansvarlig
(Veileder)

Kristian Emil Kristoffersen

Studenter

May Beate Oppgård & Marthe Fagerheim Nergaard

Samtykkeerklæring

Jeg har mottatt og forstått informasjon om prosjektet *Tilbud rettet mot språk og kommunikasjon til personer med Prader-Willis syndrom (PWS)*, og har fått anledning til å stille spørsmål. Jeg samtykker til:

- å delta i intervju

Jeg samtykker til at mine opplysninger behandles frem til prosjektet er avsluttet

(Signert av prosjektdeltaker, dato)

Vedlegg 4

Spørreundersøkelsen – spørsmål og svaralternativer

Spørreskjema til masteroppgave om Prader-Willis syndrom

Hei,

Takk for at du vil svare på denne spørreundersøkelsen. Vedlagt i e-posten der du mottok linken til denne undersøkelsen, lå det et informasjonsskriv om vårt masterprosjekt som handler om tilbud rettet mot språk og kommunikasjon til personer med Prader-Willis syndrom (PWS). Ved å svare på denne undersøkelsen godkjenner du å ha lest informasjonsskrivet og forstått hva det innebærer å delta. Vi ønsker å samle inn informasjon fra foreldre som har barn med PWS om hvordan språktilbud er og har vært. Vi ønsker foreldre med barn med PWS i alle aldre, og kun én forelder behøver å svare angående sitt barn. Med dette masteroppgaveprosjektet håper vi på å skape økt innsikt i behovet for slik hjelp til barn med PWS. Vi takker derfor så mye for bidraget!

Tiden det tar å gjennomføre spørreskjemaet vil variere, avhengig av hva man svarer. På det meste vil det ta ca. 15 minutter.

Jeg har lest og forstått innholdet i informasjonsskrivet, og samtykker til lagring av personopplysninger

- Jeg samtykker

Hvor gammelt er barnet ditt?

- 0-3 år
- 4-6 år
- 7-10 år
- 11-14 år
- 15-17 år
- Over 18 år

Hvilket kjønn er barnet ditt?

- Jente/kvinne
- Gutt/mann
- Annet

Hvor mange innbyggere er det i kommunen der barnet bor?

- Under 2000 innbyggere
- 2000 – 4999 innbyggere
- 5000 – 9999 innbyggere
- 10 000 – 19 999 innbyggere
- 20 000 – 49 999 innbyggere
- 50 000 eller flere innbyggere

Hvilken subtype av Prader-Willis syndrom har barnet ditt?

- Parental delesjon
- Maternell UPD
- Pregingsfeil
- Vet ikke/under utredning

Har barnet ditt fått veksthormonbehandling?

- Ja
- Nei

I hvilken alder startet barnet med veksthormon?

- 0-3 år
- 4-6 år
- 7-10 år
- 11-14 år
- 15-17 år

- Over 18 år

Har eller har barnet ditt hatt behov for hjelp med sitt språk eller sin kommunikasjon?

- Ja
- Nei

Har du/dere som foreldre søkt om hjelp rettet mot språk eller kommunikasjon til ditt barn?

- Har søkt om hjelp, og fått hjelp
- Har søkt om hjelp, men ikke fått hjelp
- Har fått tilbud om hjelp, uten å søke om det
- Har ikke fått tilbud om hjelp, og heller ikke søkt om det
- Annet

Om du har svart "Annet" over, vennligst beskriv kort hvordan dere gikk fram

Hvor lang tid gikk det fra du/dere søkte om hjelp, til barnet ditt fikk hjelp?

Har du/dere som foreldre fått informasjon om lovfestet rett til hjelp rettet mot språk og kommunikasjon?

- Ja
- Nei

Hvem eller hvor fikk du/dere informasjonen om lovfestet rett til hjelp fra?

Hvilke utfordringer har barnet ditt med språket eller kommunikasjonen?

- Stemmevansker (f.eks. hypernasalitet, hyponasalitet, unormalt toneleie eller volum, heshet)
- Oralmotoriske vansker (f.eks. unormalt spytt, tungemobilitet, munnmotorikk)
- Artikulatoriske vansker (vansker med å uttale lydene i ord riktig)
- Pragmatiske vansker (f.eks. vanskeligheter med å holde seg til tema, turtaking i samtale)
- Lærevansker (som påvirker læringen av språk og kommunikasjon)
- Sosiale vansker som påvirker læringen av språk og kommunikasjon (f.eks. vansker i relasjon med andre)
- Vansker med å finne ord eller bruker mye fyllord (f.eks. eh, ehm, mm, og, etc.)
- Grammatiske vansker (f.eks. at barnet ikke bøyer ord, utelater ord eller har feil rekkefølge på ord)
- Stammering
- Barnet mitt har ingen utfordringer tilknyttet språket eller kommunikasjonen
- Annet

Om du har svart "Annet" over, vennligst gi en kort beskrivelse av de utfordringer barnet ditt har

Får eller har barnet ditt fått hjelp rettet mot språk og kommunikasjon?

- Ja
- Nei

I hvilken alder fikk barnet ditt hjelp rettet mot språk og kommunikasjon for første gang?

- 0-3 år
- 4-6 år
- 7-10 år
- 11-14 år
- 15-17 år
- Over 18 år

Hvor har barnet ditt fått hjelp med språket og kommunikasjonen?

- I barnehagen
- På skolen
- Hjemme (foreldres bolig)
- I eget hjem
- Annet sted

Om du har svart "Annet sted" over, vennligst beskriv kort hvilket annet sted barnet ditt har mottatt slik hjelp

Hvem har hjulpet barnet ditt med språket og kommunikasjonen?

- Logoped
- Spesialpedagog
- Pedagog i barnehagen
- Lærer/pedagog i skolen
- Andre

Om du har svart "Andre", vennligst beskriv kort hvem andre barnet ditt har fått hjelp av

Hva innebar tilbudet rettet mot språk og kommunikasjon?

- Munnmotorisk trening
- Alternativ og/eller supplerende kommunikasjon (ASK)
- Artikulasjonstrening
- Pragmatiske øvelser
- Taleflyt
- Fonologisk bevissthet (f.eks. ved å øve på å forstå sammenhengen mellom lyd og bokstav)
- Foreldreveiledning/rådgivning
- Annet

Om du har svart "Annet" over, vennligst beskriv kort hva annet tilbudet innebar

Hvordan ble tilbudet i hovedsak gitt?

- En-til-en
- Gruppe
- Annet

Om du svarte "Annet" over, vennligst beskriv kort hvordan tilbudet ble gitt

Hvor ofte fikk barnet ditt hjelp med språket og kommunikasjonen?

- Daglig
- 1-4 ganger i uka
- 2-3 ganger i måneden
- Sjeldnere

Hvorfor har ikke barnet ditt fått hjelp rettet mot språk og kommunikasjon?

Hva synes du om tilbudet som barnet ditt har fått?

- Svært bra
- Bra
- Verken bra eller dårlig
- Dårlig
- Svært dårlig

Opplever du at fagpersoner har nok kompetanse til å møte ditt barn med Prader-Willis syndrom?

- Ja
- Nei

Opplever du at fagpersoner tar hensyn til diagnosespesifikke forhold som Prader-Willis syndrom medfører?

- Ja
- Nei

Er det noe ved tilbudet du skulle ønsket mer av? Eventuelt hva?

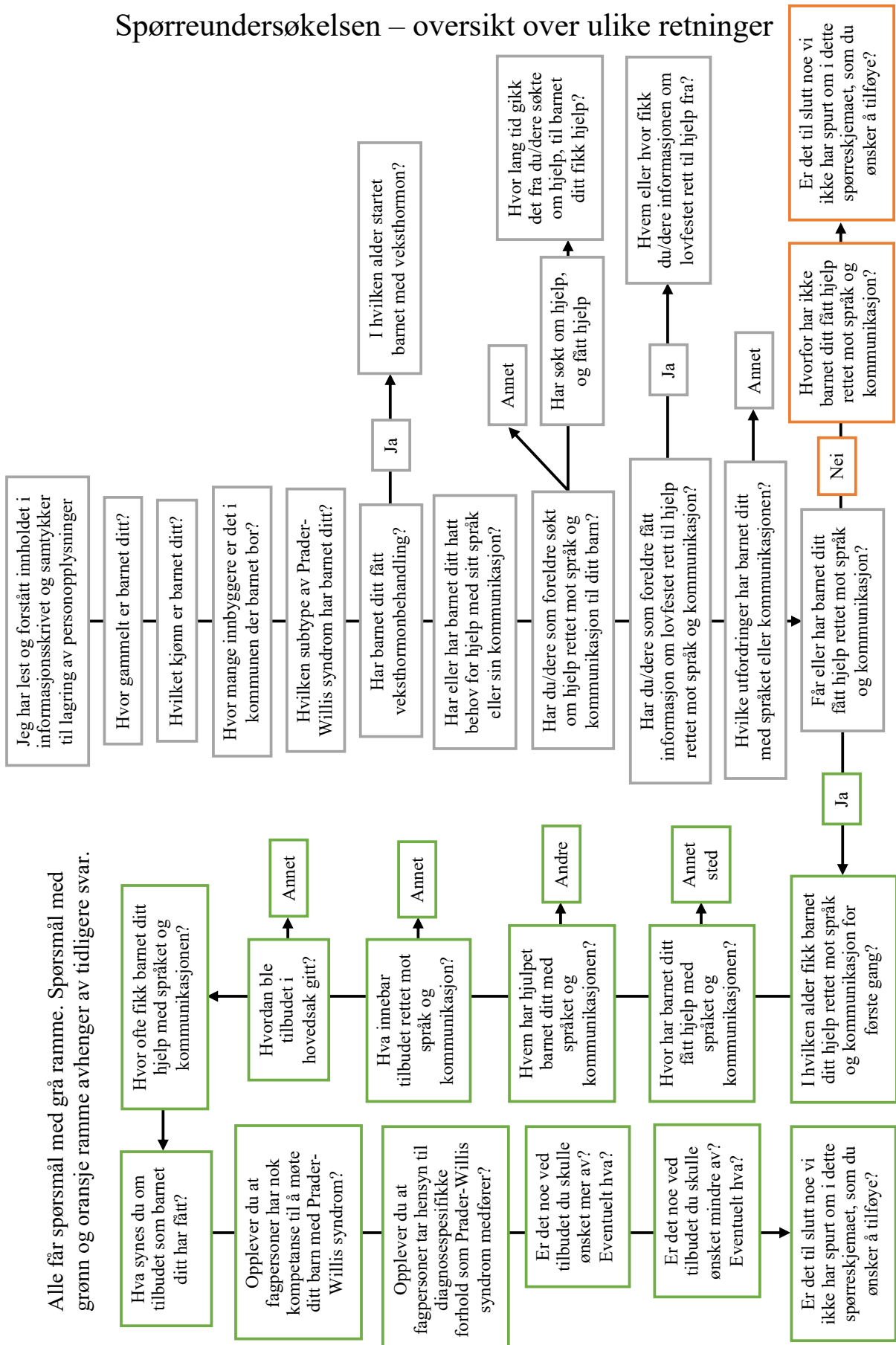
Er det noe ved tilbudet du skulle ønsket mindre av? Eventuelt hva?

Er det til slutt noe vi ikke har spurt om i dette spørreskjemaet, som du ønsker å tilføye?

Takk for at du har tatt deg tid til å svare på denne spørreundersøkelsen. Vennligst trykk "send" for å levere ditt svar.

Vedlegg 5

Spørreundersøkelsen – oversikt over ulike retninger



Vedlegg 6

Intervjuguide – foreldre

Tema 1 – Bli kjent med barnet

- Fortell om ditt barn og språket/kommunikasjonen
 - Barnets navn, alder, subtype PWS
 - Går barnet i skole/barnehage
 - Barnets styrker
 - Språkutviklingen (når begynte barnet å snakke)
 - Språklig fungeringen i dag (hvordan uttrykker barnet seg - Ord/setninger? Gester/tegn, forskjell i kommunikasjonen på ulike arenaer?)
 - Eventuelle språkforstyrrelser? (for eksempel uttale/artikulasjon, pragmatikk, sosial fungering, munnmotorikk, etc.)

Tema 2 – Språktilbudet

- Fortell om språktilbudet barnet ditt får/har fått
 - Hvem tok initiativ? (Dere foreldre, barnehage/skole henviste, sykehus, etc.)
 - Tidspunkt (oppstart, alder og hyppighet)
 - Varighet/over hvor lang tid strakk tilbudet seg
 - Organisering (hvem var ansvarlig, hvor ble det gjennomført, individuelle timer/gruppe)
 - Vet du hva som ble gjort av språkkartlegging?
 - Hva går/gikk tilbudet ut på (eksempelvis ASK, munnmotorisk trening, språkløst trening, grammatikk, pragmatikk, etc.)
 - Har logopeden/fagpersonen fokus på barnets styrker i arbeidet? Hvordan?
 - Hvis tilbudet er avsluttet – hvorfor? (Tilfredsstillende språk? Lite fremgang? Andre tjenester tok over? Usikker på hvem som har ansvar? Etc.)
- Hva synes du om tilbudet?
 - Hvor fornøyd er du?
 - Tidspunkt (oppstart, alder og hyppighet)
 - Mener du det har hatt effekt? Eventuelt på hvilken måte?
 - Hva fungerte, hva fungerte ikke? Hvorfor/hvorfor ikke?
 - Hva skulle du ønsket mer av/i stedet for?
 - Kom tilbudet på rett tid?
 - Ble det tatt spesielle hensyn til det Prader-Willis syndrom medfører?

- Hadde fagpersonen kunnskap om PWS? Tilstrekkelig kunnskap? Vet du hvordan denne kunnskapen ble innhentet? Hva kunne fagpersonen eventuelt hatt mer kunnskap om?

Tema 3 - Foreldrerådgivning

- Har du/dere fått rådgivning?
 - Hva slags type rådgivning? (**språk**, atferd, mat/spising, annet)
 - Tidspunkt (oppstart, alder og hyppighet)
 - Hvordan var det lagt opp? Et konkret program? Hva gikk det eventuelt ut på?
 - Når fikk dere et slikt tilbud?
 - Hvor lenge/hvor lang periode?
 - Hvem var ansvarlig?
 - Var dere fornøyd? Hvorfor/hvorfor ikke?
 - Kom tilbudet på rett tid?
 - Var det noe dere skulle ønske mer av/hadde vært gjort annerledes?

Tema 4 – Lovfestet rett til hjelp

- Har du som forelder til et barn med PWS fått informasjon om lovfestet rett til hjelp med språk og kommunikasjon?
- Hvor eller hvem fikk du denne informasjonen fra?

Oppsummering

- Oppsummering av det som har blitt sagt
- Har vi forstått ting rett?
- Er det noe du har lyst til å tilføye som du mener det er viktig å få med?

Vedlegg 7

Skriftlig intervju – logoped

Samtykkeerklæring

Jeg har mottatt og forstått informasjon om prosjektet *Tilbud rettet mot språk og kommunikasjon til personer med Prader-Willis syndrom (PWS)*, og har fått anledning til å stille spørsmål. Jeg samtykker til:

- ✓ å delta i skriftlig intervju

Jeg samtykker til at mine opplysninger behandles frem til prosjektet er avsluttet 30.06.2023

(Signert av prosjektdeltaker, dato)

Tema 1 – Generelt

Fortell litt om deg selv Hvor lenge har du jobbet som logoped? Hva slags felt jobber du mest med? Etc.
Svar:

Fortell om ditt samarbeid med barnet med Prader-Willis syndrom og foreldrene

Hvor lenge har du jobbet med barnet med PWS? Fra hvilken alder?
Svar:

Hvor ofte ser/jobber du med barnet?
Svar:

Hva er barnets språklige fungering i dag? Hvilke språkførstyrrelser har barnet? (for eksempel uttale, pragmatikk, sosial fungering, munnmotorikk, etc.)
Svar:

Kan du beskrive barnets språkutvikling fra du møtte barnet første gang?
Svar:

Hvordan samarbeid har du med foreldrene? Tilbyr du foreldrerådgivning? Mener du at foreldrerådgivning er en del av jobben din?
Svar:

Må du ta noen hensyn i forhold til atferdsutfordringer som følge av PWS? Eventuelt hvilke?
Svar:

Hvilke andre diagnosespesifikke hensyn tar du i møte med barnet?
Svar:

Tema 2 - Språktilbudet

Fortell om hva dere har jobbet med og jobber med per i dag

Hva går/gikk tilbudet ut på? (ASK, munnmotorisk trening, artikulasjonstrening, fonologisk bevissthet, grammatikk, pragmatikk, taleflyt, etc.)
Svar:

Hvilke verktøy/metoder benytter du i treningen/arbeidet med barnet?
Svar:

Hva fungerte/fungerte ikke? Hvorfor/hvorfor ikke?
Svar:

Hvordan organiseres tilbudet? En-til-en eller i gruppe med andre barn?
Svar:

Hva slags kartlegging har du gjort med barnet?
Svar:

Opplever du at treningen/arbeidet har hatt effekt? På hvilken måte?
Svar:

Hva tenker du om videre oppfølging/arbeid med barnet?
Svar:

Tema 3 – Logopedens kunnskap

Opplever du at du har tilstrekkelig kunnskap om PWS?
Svar:

Hva mangler du eventuelt av kunnskap om PWS?
Svar:

Hvor finner du informasjon om PWS?
Svar:

Oppsummering

Er det noe du har lyst til å tilføye, som du mener det er viktig å få med?
Svar: