

Ögonscreening på BB är effektiv

Dags för tydligare svenska riktlinjer, visar prospektiv registerstudie

GUNILLA MAGNUSSON, med dr, ST-läkare, Ögonsjukvården, Sahlgrenska universitetssjukhuset, Mölndal
gunilla.magnusson@vgregion.se
SVETLANA BIZJAJEVA, fil dr, GradStat; Registercentrum Syd/EyeNet Sweden
BIRGITTE HAARGAARD, med dr, specialistläkare, ögonavdelningen, Glostrups universitets-

sjukhus, Glostrup, Danmark
MATS LUNDSTRÖM, professor, överläkare, EyeNet Sweden, Blekingesjukhuset, Karlskrona
ALF NYSTRÖM, doktorand, överläkare, Ögonsjukvården, Sahlgrenska universitetssjukhuset, Mölndal
KRISTINA TORNQVIST, professor, överläkare, ögonkliniken, Skånes universitetssjukhus, Lund

Bör man ögonscreena på BB? År 2002 publicerades en utvärdering som visade att BB-screening hade stor betydelse för upptäckt av kongenital katarakt [1, 2]. BB-screening var även försvarbar i ett hälsoekonomiskt perspektiv [3]. Den vetenskapliga litteraturen är dock knapphändig, och någon prospektiv studie har inte publicerats tidigare.

Screeningförfarandet i Sverige baseras på råd i läroböcker och undervisning i pediatrik, där man förordar rutinmässig ögonscreening på BB. Man följer även instruktionerna i »Rikshandboken i barnhälsovård« [4 och Blennow M, pers medd; 2010]. Där beskrivs vad man bör vara observant på i åldersintervallet 1 vecka till 9 månader, men det står också: »Anvisningarna ska ses som en vägledning och inte som en mall som till varje pris ska följas.»

Nationella barnkataraktregistret är en underavdelning till Nationella kataraktregistret, som erhåller stöd från Sveriges Kommuner och landsting och EyeNet Sweden med målet att optimera behandlingen av barnkatarakt [5]. Registret gick i skarp drift år 2006. Samma år inventerades ögonscreeningrutinerna inom svensk BB/neonatalvård via en enkätundersökning.

Syftet med vårt arbete var att prospektivt undersöka effektiviteten i rådande screeningrutiner. Det gjordes genom analys av nuvarande rutin (ögonundersökning i genomfallande ljus med handhållet oftalmoskop), som korrelerades med data ur Nationella barnkataraktregistret avseende ålder vid upptäckt och operation. Vi ville även jämföra data med tidigare resultat, där BB-screening var av betydelse för tidig upptäckt och behandling [2]. Två kliniskt relevanta tidsgränser valdes som jämförelse, 42 respektive 100 dagar; den första för att särskilja allvarliga opererade unilaterala fall [6], den andra som senaste tidpunkt och kritisk gräns för operation av bilaterala täta katarakter [7].

METOD OCH MATERIAL

År 2006 skickades förfrågningar till verksamhetscheferna på barn- och ungdomsklinikerna inom slutenvården (35), neonatalvården (35) och till kvinnoklinikerna (57) angående policyn att ögonscreena nyfödda på BB, med svarsalternativen ja eller nej. Svarefrekvensen totalt var 96 procent (122/127). Totalt 33 av 35 barn- och ungdomskliniker (94 procent) och 30 av 35 neonatalenheter (86 procent) svarade. Syftet med att även kvinnoklinikerna tillfrågades var att säkra att breven kom till rätt person genom att be cheferna vidarebefordra enkäten till den det berörde. De extra förfrågningarna fungera-

de som påminnelsebrev, vilket ledde till att en och samma klinik ibland svarade mer än en gång.

Sedan hösten 2006 har data inrapporterats till Nationella barnkataraktregistret. I vuxenregistret finns en tradition av hög medverkan från ögonklinikerna i landet. Sedan 1992 har registreringsfrekvensen varierat mellan 94 och 98,5 procent [8]. Samtliga ögonkliniker i Sverige som opererar spädbarn medverkar i barnregistret liksom samtliga opererande kliniker i Danmark. Registret är ett webbaserat operationsregister. Inklusionskriterierna är operationskrävande katarakt i åldersintervallet 0–8 år. Förutom demografiska data och operationsvariabler rapporteras av vilken anledning och av vem sjukdomsupptäckten görs. Vidare rapporteras tidpunkt för diagnos av ögonläkare liksom tidpunkt för operation för att säkerställa data angående tid mellan upptäckt och behandling.

Alla svenska barn som opererats under det första levnadsåret för katarakt, exklusive barn med traumatisk katarakt, ingick i undersökningen. Antalet barn opererade mellan januari 2007 och december 2009 uppgick till 61. Det sammanlagda födslolet i Sverige under denna treårsperiod var 328 523.

Resultaten jämfördes med retrospektiva data från perioden januari 1992 till december 1998 över tre geografiska regioner som inbegrep hälften av alla barn födda i Sverige (Stockholms läns landsting, Västra Götaland och Hallands län, Linköping-Motala samt Malmö och Lund) under perioden med väl definierade screeningrutiner [2]. Region 1 men inte region 2 och 3 utförde BB-screening. (Region 2 utförde enbart BVC-screening och region 3 ingen screening alls. Region 2 och 3 slogs ihop till 2&3, som innebar »ej BB-screening«.)

Antalet barn med kongenital katarakt i behov av operation före 1 års ålder/100 000 födda beräknades med exakt test med 95 procents konfidensintervall. Tidig kataraktupptäckt respektive tidig operation beskrevs i form av sannolikhet för re-

»Samtliga ögonkliniker i Sverige som opererar spädbarn medverkar i barnregistret liksom samtliga opererande kliniker i Danmark.«

SAMMANFATTAT

Riktlinjerna i Sverige avseende ögonscreening av nyfödda är inte lika tydliga som i USA och Storbritannien.

Denna undersökning av screeningpolicyn inom BB/neonatalvård visade att BB-screening är till 90 procent rutin i Sverige.

En prospektiv studie baserad på Nationella barnkataraktregistret åren 2007–2009, inkluderande 61 barn opererade före 1 års ålder, visar en markant ökning av andelen

remitterade fall från BB jämfört med för tio år sedan, från 50 till 64 procent. Andelen tidigt remitterade och tidigt opererade fördubblas jämfört med om ingen BB-screening görs. Även BVC bidrar till tidig upptäckt.

Tydliga direktiv för BB-screening med uppföljande undersökning på BVC vore önskvärd, likt policyerna i Storbritannien och USA, där omprovning sker regelbundet.

TABELL I. Remitterande instanser för ögonläkarkontakt. Registerdata jämförda med historiska data.

		BB	BVC	Barnklinik	Annan	Totalt	Andel upptäckta på BB, procent
Nationella registret (BB-screening)	Totalt	39	10	6	6	61	64
	Inom 42 dagar	37	1	6	2	46	
2007–2009, antal födslar 328 523	Inom 100 dagar	38	9	6	3	56	
Region 1 (BB-screening)	Totalt	20	16	4	0	40	50
	Inom 42 dagar	20	5	1	0	26	
1992–1998, antal födslar 180 000	Inom 100 dagar	20	9	3	0	32	
Region 2 och 3 (ej BB-screening)	Totalt	6	10	8	8	32	19
	Inom 42 dagar	6	2	2	2	12	
1992–1998, antal födslar 216 000	Inom 100 dagar	6	6	5	5	22	

TABELL II. Sannolikheter för remiss och operation inom 42 respektive 100 dagar totalt åren 2007–2009 (Nationella barnkataraktregistret) och regionerna 1, 2 och 3 åren 1992–1998. KI = 95 procents konfidensintervall.

	Antal barn remitterade inom 42 dagar (totalt)	Sannolikhet för remiss inom 42 dagar (KI)	Differens mellan sannolikheter (KI)	P-värde
Nationella registret (BB-screening)	46 (61)	0,75 (0,64–0,84)		
Region 1 (BB-screening)	26 (40)	0,65 (0,5–0,8)	0,10 (–0,08 till 0,29)	0,2581
Region 2 och 3 (ej BB-screening)	12 (32)	0,38 (0,2–0,55)	0,38 (0,18–0,58)	0,0003
	Antal barn opererade inom 42 dagar (totalt)	Sannolikhet för operation inom 42 dagar (KI)	Differens mellan sannolikheter (KI)	P-värde
Nationella registret (BB-screening)	41 (61)	0,67 (0,55–0,79)		
Region 1 (BB-screening)	24 (40)	0,60 (0,45–0,76)	0,07 (–0,12 till 0,26)	0,4592
Region 2 och 3 (ej BB-screening)	10 (32)	0,31 (0,15–0,48)	0,36 (0,16–0,56)	0,0009
	Antal barn opererade inom 100 dagar (totalt)	Sannolikhet för operation inom 100 dagar (KI)	Differens mellan sannolikheter (KI)	P-värde
Nationella registret (BB-screening)	50 (61)	0,82 (0,72–0,92)		
Region 1 (BB-screening)	31 (40)	0,76 (0,64–0,91)	0,05 (–0,12 till 0,21)	0,5816
Region 2 och 3 (ej BB-screening)	21 (32)	0,66 (0,49–0,83)	0,16 (–0,03 till 0,35)	0,0781

miss och operation inom 42 respektive 100 dagar och angavs med 95 procents konfidensintervall. Vid jämförelse mellan Nationella barnkataraktregistrets data och tidigare data [2] användes differensen mellan respektive sannolikheter och test för skillnad på 5 procents signifikansnivå [9].

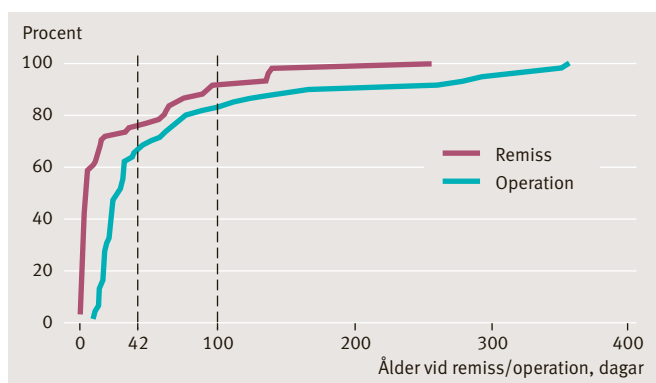
RESULTAT

Totalt 90 procent av barn- och ungdomsklinikerna/neonatalenheterna (63/70) angav att rutinen på kliniken var att aktivt ögonscreena nyfödda. 22 svar direkt från kvinnoklinikererna inkom (38 procent), varav 7 var nekande. Detta fick till följd att 5 sjukhus svarade både ja (barn- och ungdomskliniken) och nej (kvinnokliniken), och det inkom 27 övertaliga svar.

Remitterande sjukvårdsinrättningar som förmedlade kontakt till ögonläkare för slutlig diagnos framgår av Tabell I.

Antalet barn med katarakt i behov av operation före 1 års ålder var 18,6 (14,2–23,8) barn per 100 000 födda för hela Sverige under perioden januari 2007–december 2009. Motsvarande förekomst i region 1 var januari 1992–december 1998 22,2 (15,9–30,3) och i region 2 och 3 15,2 (10,4–21,6) per 100 000 födda.

I Figur 1 visas Nationella barnkataraktregistrets procentuella andel remitterade och opererade individer i förhållande till deras ålder. Ålder vid remiss respektive operation jämfördes även separat med historiska data för region 1, 2 och 3 [2]. Sannolikheten för ett slumpmässigt valt barn att få remiss och operation inom 42 respektive 100 dagar visas i Tabell II,



Figur 1. Procentuell andel remitterade respektive kataraktopererade barn i relation till ålder vid remiss för fastställande av diagnos och ålder vid operation i Nationella barnkataraktregistret.

liksom differensen mellan respektive sannolikhet. Sannolikheten att få tidig remiss (inom 6 veckor), liksom sannolikheten för tidig operation, är ca 40 procentenheter lägre i regionerna utan BB-screening än i registret, och denna skillnad är statistiskt signifikant.

Medelvärdena för tid mellan diagnos och operation skiljer sig mellan historiska data (15 respektive 17 dagar för region 1, 2 och 3) och registrets data (37 dagar). Spridningen av data var störst i Nationella barnkataraktregistret (standarddeviation,

SD, 63; variationsvidd 0–278), och det bör nämnas att fem barn i registret hade mer än 100 dagars väntan mellan diagnos och operation; motsvarande siffra för region 1 var tre (SD 36; variationsvidd 2–222). För region 2 och 3 existerade inga extremvärden alls som påverkade medelvärde och standarddeviation (SD 20; variationsvidd 3–99).

DISKUSSION

Av resultaten från enkätförfrågan framgår att 90 procent av landets BB/neonatalenheter utför ögonundersökning med handhållet oftalmoskop, vilket gör det möjligt att utvärdera BB-screeningrutinens effekt. Det kan tyckas märkligt med tvetydiga svar från fem kliniker. Sannolikt har ansvariga på barn- och ungdomsklinikerna mer kunskap om sina egna rutiner än företrädarna för kvinnoklinikerna. Kanske har frågan till gynekologerna missförstått som rutin utgående från den egna kliniken, och nekande svar är då begripliga.

Prevalensen 19 (18,6) barn per 100 000 födda stämmer väl överens med tidigare siffror i Sverige med en förekomst på 36 per 100 000 födda, inkluderande alla täthetsgrader av katarakt, varav hälften utgjordes av täta [10]. I Nationella barnkataraktregistret ingår enbart operationskrävande katarakt och i vår undersökning enbart opererade före 1 års ålder. Två studier från Frankrike respektive Storbritannien visar samma storleksordning vad gäller siffror på förekomst, 23 respektive 24 fall per 100 000 födda diagnostiserade under första levnadsåret [11, 12]. Skillnaden i förekomst av operationskrävande katarakt mellan de olika grupperna i Sverige kan ha olika orsaker. Ibland är katarakten ett grännsfall för operation, och en möjlig förklaring är att operatörernas bedömningar skiljer sig inom beskrivna regioner.

Att notera är att registret, som representerar samtliga behandlingstraditioner, men vid ett senare tillfälle, uppvisar ett medelvärde (18,57/100 000 födda) jämförbart med 18,5 för region 1 (22,2/100 000) och region 2 och 3 (14,8/100 000) tillsammans.

Stora skillnader i tid mellan diagnos och operation

Medelvärdet för tid mellan diagnos och operation för Nationella barnkataraktregistrets barn är nästan dubbelt så lång som för barnen i region 1. Detta kan ha två orsaker. Den första är andelen extremvärden, som är större i registret. I barngrupper med katarakt ingår individer med allvarliga systemsjukdomar som försvårar sömning, vilket kan ge upphov till extremt långa tider mellan diagnos och operation. Det andra är att en högre andel barn upptäcktes på BB i registret än i region 1 (två tredjedelar jämfört med hälften). Med nuvarande kunskap försöker man operera barn med unilaterala katarakt före 6 veckors ålder och barn med bilaterala katarakt före 100 dagars ålder. Ambitionen är att identifiera alla fall före 6 veckors ålder och därefter skraddarsy åtgärder med avseende på katarakttyp. Ju tidigare man hittar barnen, desto längre är den potentiella väntetiden för de bilaterala fallen.

Totalt 64 procent av registrets barn remitterades direkt från BB, och det är en högre andel än i region 1, i vilken ögonundersökning på BB utfördes och där 50 procent remitterades från BB (Tabell I). Skillnaden är mest slående jämfört med region 2 och 3, där motsvarande andel var 19 procent.

Vikten av att finna barn med tät katarakt

Tidig screening är framför allt viktig för att hitta de barn med tät katarakt som behöver opereras före 6 veckors ålder, dvs inom 42 dagar, och för denna tidpunkt var skillnaden mellan registret och regionerna utan BB-screening stor och statistiskt signifikant. Skillnaden mellan registret och region 2 och

»Vad gäller riktlinjer är man tydlig i USA ... I Storbritannien har man satt ner foten ...«

3 i andel opererade före 100 dagar var mindre och inte statistiskt signifikant. Detta kan förklaras av att en eventuell skillnad vid denna tidpunkt i region 2 och 3 kompenseras av BVC-screening. Det skulle också kunna vara så att det finns en skevhet i materialet inom grupperna, dvs andelen bilaterala fall varierar, och denna information är inte tillgänglig för de historiska uppgifterna. På samma sätt kan en tät unilaterala katarakt upptäckas efter 42 dagar och hamna i gruppen opererade före 100 dagar. Andelen barn som på grund av annan allvarligare sjukdom behöver senarelagd operation skiljer sig mellan de olika regionerna, vilket också påverkar resultaten.

Riktlinjer i andra länder

Vad gäller riktlinjer är man tydlig i USA, och American Academy of Pediatrics skriver i sin policyförklaring: »red reflex examination is an essential component of the physical examination«. Man förordar denna undersökning vid utskrivningsundersökningen på BB samt vid alla efterföljande rutinhälsoundersökningar (uppdaterad 2008) [13]. Denna policyförklaring gäller i fem år, därefter upphör den automatiskt.

I Storbritannien har man satt ner foten, och UK National Screening Committee (NSC) skriver under rubriken »policy position« att ögonundersökning på BB med upprepad undersökning de kommande 6–8 veckorna (motsvarande BVC-undersökning hos oss) är en del av hälsoundersökningen av nyfödda (uppdaterad år 2006) [14]. Rahi et al förespråkar ögonundersökning på BB men konkluderar år 2001 att NSC:s rekommendationer har betydande konsekvenser avseende professionell utbildning, resursallokering samt tjänstgöringsorganisation både nationellt och lokalt, vilket kräver en bred debatt [15]. Vidare påtalas behovet av att samla ytterligare forskningsevidens i ämnet.

Invändningarna mot rekommendationen återfinns i NSC:s egen genomgång vid uppdateringen år 2006. Där tar man upp problemet med den skiftande kvaliteten på utförda ögonundersökningar samt att någon form av styrande eller övervakande funktion av screeningprogrammet borde finnas. Man efterlyser interdisciplinärt samarbete för utveckling av kurser för utbildning och bedömning av ögonundersökning. Vidare eftersöker man forskningsbevis genom randomiserade, kontrollerade studier, vilket är svårare att genomföra vid sällsynta diagnoser.

I Danmark finns för närvarande ingen rutin för ögonundersökning av nyfödda i genomfallande ljus [16]. I en studie från Kina inkluderande 196 kataraktbarn opererades inga barn före 3 månaders ålder, och man konkluderar att ett nationellt ögonundersökningssystem bör införas [17].

Förhållandet i Sverige

Vad gäller Sveriges regler och riktlinjer råder inte samma tydlighet som i Storbritannien och USA. Det faktum att vi i Sverige har ett nationellt barnkataraktregister med tillförlitlig täckningsgrad och att vi samtidigt ögonundersöker barn på BB/neonatalenheter i så hög grad som 90 procent innebär en unik möjlighet att övervaka och utvärdera ögonundersökning på BB. Hälsoekonomiska beräkningar har visat att obligatorisk ögonundersökning på BB inte är mer kostsam än interventioner i andra medicinska sammanhang, 234 000 kronor/kvalitetsjusterat levnadsår (QALY) [3]. Undervisningsfilmen »Ögonundersökning i genomfallande ljus på spädbarn«, som gjordes

i samband med publiceringen av historiska data [2], finns nu tillgänglig på Internet [18]. Om uppspelningen av filmen skulle hindras av sjukhusdatorernas brandvägg går det att åtgärda. Kontakta den lokala IT-ansvariga.

REFERENSER

- Magnusson G, Jakobsson P, Kugelberg U, et al. Evaluation of screening procedures for congenital cataracts. *Acta Paediatr.* 2003;92(12):1468-73.
- Magnusson G, Thiringer K. Screening för kongenital katarakt görs bäst på BB. *Läkartidningen.* 2002;99(7):620-5.
- Magnusson G, Persson U. Screening for congenital cataracts: a cost-consequence analysis of eye examination at maternity wards in comparison to well-baby clinics. *Acta Paediatr.* 2005;94(8):1089-95.
- Rikshandboken i barnhälsovård. Metoder på BVC. 22 mars 2006 [citerat 30 mars 2011]. <http://www.rikshandboken-bhv.se>
- EyeNet Sweden. Barnkataraktregistret. 11 nov 2010 [citerat 30 mars 2011]. <http://www.eyenet-sweden.se/page/14/register-for-barnkatarakt.aspx>
- Birch EE, Stager DR. The critical period for surgical treatment of dense congenital unilateral cataract. *Invest Ophthalmol Vis Sci.* 1996;37:1532-8.
- Taylor D, editor. *Pediatric ophthalmology*, 3rd ed. London: Elsevier Saunders; 2005. p. 63.
- EyeNet Sweden. Nationella kataraktregistret. 27 jan 2011 [citerat 30 mars 2011]. <http://www.eyenet-sweden.se/page/13/nationellakataraktregistret.aspx>
- Agresti A. *An introduction to categorical data analysis*. New York: Wiley & Sons; 1996.
- Abrahamsson M, Magnusson G, Sjöström A, et al. The occurrence of congenital cataract in western Sweden. *Acta Ophthalmol Scand.* 1999;77(5):578-80.
- Stayte M, Reeves B, Wortham C. Ocular and vision defects in pre-school children. *Br J Ophthalmol.* 1993;77(4):228-32.
- Stoll C, Alembik Y, Dott B, et al. Epidemiology of congenital eye malformations in 131,760 consecutive births. *Ophthalmic Paediatr Genet.* 1992;13(3):179-86.
- American Academy of Pediatrics; Section on Ophthalmology; American Association for Pediatric Ophthalmology And Strabismus; American Academy of Ophthalmology; American Association of Certified Orthoptists. Red reflex examination in neonates, infants, and children. *Pediatrics.* 2008;122(6):1401-4. Review. Erratum in: *Pediatrics.* 2009;123(4):1254.
- The UK NSC policy on congenital cataract screening in newborns. 2011 [citerat 30 mars 2011]. <http://www.screening.nhs.uk/congenitalcataracts>
- Rahi J, Williams C, Bedford H, et al. Screening and surveillance for ophthalmic disorders and visual deficits in children in the United Kingdom. *Br J Ophthalmol.* 2001;85(3):257-9.
- Haargaard B, Boberg-Ans G, la Cour M, et al. Outcome after paediatric cataract surgery in otherwise healthy children. *Acta Ophthalmol.* 2009;87(8):923-5.
- You C, Wu X, Zhang Y, et al. Visual impairment and delay in presentation for surgery in Chinese pediatric patients with cataract. *Ophthalmology.* 2011;118(1):17-23.
- <http://www.lio.se/Verksamheter/Informationscentrum/Filmarkiv/Ovriga-filmer/Ogonundersokning-igenomfallande-ljus-paspadbarn/>

■ *Potentiella bindningar eller jävsförhållanden: Inga uppgivna.*

■ *Fil dr Jonas Ranstam har bidragit med statistik rådgivning och docent Klara Thiringer med synpunkter på innehållet.*