

CANCER I BARNDOMEN

Gränserna för de samhällsekonomiska effekter som kan uppnås med rehabiliterings – och stödinsatser

Kristian Bolin

Centrum för Hälsoekonomi vid Göteborgs Universitet

FÖRORD

I den här studien uppskattas de effekter som potentiellt kan uppnås genom rehabiliteringsinsatser riktade till barncanceröverlevare och deras föräldrar och syskon, samt till föräldrar som förlorat ett barn och till barn som förlorat ett syskon. De potentiella effekterna av rehabiliteringsinsatser beräknas som de skillnader avseende livskvalitet, produktivitet, och hälso- och sjukvårdsutnyttjande som finns mellan å ena sidan barn som drabbats av cancer och deras familjer, och barn som inte drabbats av cancer och deras familjer, å den andra.

De totala samhällsekonomiska kostnaderna av barncancer utgör en referensram för de effekter som kan uppnås med rehabiliteringsinsatser. Beräkningar utförs för antalet förväntade förlorade levnadsår, och antalet förväntade förlorade kvalitetsjusterade levnadsår för de drabbade barnen respektive en typfamilj (två föräldrar och ett syskon). Beräkningarna utförs separat för tre olika cancergrupper: leukemi, cancer i centrala nervsystemet (CNS) samt övriga typer av cancer. Produktivitetsförluster på grund av mortalitet respektive lägre produktivitet beräknas med hjälp av information från studier avseende svenska förhållanden, medan överlevnadssannolikheter och livskvalitetsvikter över tiden hämtas ur den internationella vetenskapliga litteraturen.

Kunskapen avseende effekterna av rehabiliterings- och psykosociala insatser riktade till barncanceröverlevare och deras familjer på de olika delarna av de samhällsekonomiska kostnaderna som barncancer ger upphov till är begränsad. Viss evidens antyder att sådana stödinsatser kan förbättra både de drabbade barnens och föräldrarnas livssituation, vilket förefaller vara en förutsättning för dessa individers möjlighet att genomföra utbildningar och klara av krävande arbetsmarknadssituationer. Vi antar att mortaliteten inte påverkas av rehabiliterings- och psykosociala insatser. Dessa insatser påverkar främst livskvaliteten för berörda personer, samt barncanceröverlevares möjligheter att fullfölja utbildningar och deras produktivitet över livet.

De utförda beräkningarna anger ett tak för dels de monetära vinster, dels de livskvalitetsvinster, som rehabiliterings- och psykosociala insatser potentiellt kan ge upphov till.

Studien har finansierats av Barncancerfonden. Författaren tackar för värdefulla synpunkter och förslag under arbetets gång. Författaren riktar ett särskilt tack till Emma Hoven och Krister Boman, båda vid Karolinska Institutet, som under arbetet med studien generöst har delat med sig av sina kunskaper avseende effekterna av barncancer för överlevare och deras familjer.

SAMMANFATTNING

I den här studien beräknas de samhällsekonomiska effekterna av barncancer i syfte att ge en referensram för de vinster som potentiellt kan uppnås genom rehabilitering och psykosociala stödinsatser. Totalt diagnosticerades 390 barn (yngre än 19 år) med någon typ av cancer 2015. Av dessa nyupptäckta fall var 86 leukemi, 86 cancer i centrala nervsystemet, och 218 övriga cancertyper. 50 % respektive 41 % av de nyupptäckta fallen av leukemi och CNS cancer drabbade barn i åldersgruppen 0 – 4 år. Motsvarande siffror för åldersgruppen 15 – 19 år var 8 % respektive 21 %. Insjuknandet i någon övrig cancertyp uppvisade en annorlunda åldersprofil. Cirka 24 % av fallen drabbade barn i åldersgruppen 0 – 4 år, medan ungefär 44 % drabbade barn i åldrarna 15 – 19 år.

Sammantaget beräknades 9 182 förväntade levnadsår förloras till följd av de 390 barncancerfallen, av vilka 5 869 är arbetsår, under antagandet att skulle arbetat från och med 25 års ålder och pensioneras vid 65. Det diskonterade värdet (nuvärdet) av dessa arbetsår (1 % diskontering; 1,5 % årlig inkomstillväxt) uppskattades till 3.1 miljarder kr. Utöver de produktivetsförluster som det minskade antalet arbetsår ger upphov till tillkommer kostnader till följd av den sämre arbetsmarknadsfunktionen som barncanceröverlevare uppvisar (i genomsnitt). Studier på svenska data visar att sannolikheten att ha ett arbete är mindre för barncanceröverlevare än för den genomsnittliga populationen (barncanceröverlevare löper alltså en högre risk än populationen i genomsnitt att permanent stå utanför arbetsmarknaden), och de överlevare som har ett arbete har lägre inkomster än jämnåriga som inte haft cancer i barndomen. De lägre inkomsterna speglar den lägre produktivitet hos barncanceröverlevarna jämför med de som inte haft cancer i barndomen, vilken i sin tur kan härledas till, bland annat, en lägre sannolikhet att ha genomgått en högre utbildning. Den negativa effekten på uppnådd utbildningsnivå gäller framför allt de som överlevt CNS tumörer. Inga försök att beräkna de merkostnader som uppstår till följd av tillfällig sjuklighet bland barncanceröverlevare har gjorts. Nödvändig information saknas.

Produktivetsförluster uppstår även till följd av stort arbetsmarknadsbeteende hos föräldrarna till de barn som drabbats av cancer. Sjukskrivningarna är mångdubbelt större i samband med insjuknandet och flera år därefter (Hjelmstedt et al., 2017). Antalet ersatta sjukskrivningsdagar som kan relateras till insjuknande i barncancer år 2015 beräknades till cirka 120 000, vilket motsvarar ungefär 565 årsarbetstider. Värdet av denna produktivetsförlust beräknas till ungefär 155 miljoner kronor. Av dessa sjukskrivningskostnader är 98 miljoner kronor förknippade med barnens behandlingstid. Värdet av de totala produktivetsförluster som uppstår på grund av att barn dör av sin cancer, att överlevarna är utanför arbetsmarknaden i större utsträckning än individer som inte haft cancer i barndomen, och att barncanceröverlevarna har en lägre produktivitet (inkomst har använts som mått på produktivitet), och att föräldrarna till dessa barn är sjukskrivna mer än de föräldrar vars barn inte insjuknat i cancer beräknades uppgå till ungefär 7.0 miljarder för de barn som insjuknade 2015. Av dessa kostnader är 2.5 miljarder värdet av de produktivetsförluster som uppstår på grund av dödsfall i barncancer. Vi antar att dessa kostnader i stort sett inte kan påverkas genom förbättrade rehabiliterings- och psykosociala stödinsatser. Detta innebär att värdet av de produktivetsförluster som i princip borde vara möjliga att påverka – den sämre arbetsmarknadsanknytningen, sjukskrivningar samt den lägre produktiviteten – med olika former av stödinsatser till barncanceröverlevare och deras anhöriga uppgår till cirka 4.6 miljarder kronor.

Som kontrast till dessa omfattande kostnader som uppstår till följd av barncancer kan ställas de direkta behandlingskostnader som kan hänföras till behandlingen av de som insjuknat år 2015. För dessa barn uppskattades behandlingskostnaderna till ungefär 334 miljoner.

Sannolikt är också de livskvalitetsrelaterade kostnaderna till följd av barncancer betydande. Den vetenskapliga evidensen avseende storleksordningen på dessa förluster ger emellertid ingen information som bedöms tillräckligt tillförlitlig för att med rimlig säkerhet kunna kvantifiera förlusten av kvalitetsjusterade levnadsår till följd av barncancer. Vi beräknade därför antal förlorade kvalitetsjusterade levnadsår för ett antal olika alternativ, som utgår ifrån svagt, måttligt respektive kraftigt reducerad livskvalitet. I de nedan redovisade resultaten har vi antagit svagt reducerad livskvalitet för de drabbade barnen och deras syskon och föräldrar (definition av svagt reducerad livskvalitet: se fotnot till tabellen. En detaljerad beskrivning av hur antalet kvalitetsjusterade levnadsår beräknats återfinns i sektion 4).

En beräkning av kostnadseffektiviteten av psykosociala insatser, vid försiktiga antaganden angående behandlingseffekter, tyder på att dessa insatser är kostnadseffektiva. Det informella tröskelvärde, i Sverige, för vad som skall betraktas som kostnadseffektivt är 500 000 kronor per vunnet kvalitetsjusterat levnadsår. Våra beräkningar anger kostnader per vunnet kvalitetsjusterat levnadsår för psykosociala insatser väsentligen under detta värde. Det skall dock noteras att våra beräkningar bygger på antagna livskvalitetseffekter av de psykosociala insatserna.

Tabell 1 ger en sammanfattande bild av studiens resultat avseende de kostnader som uppstår till följd av cancer i barndomen.

Tabell 1. Sammanfattning av de olika kostnaderna till följd av nya fall av barncancer i Sverige 2015. Leukemi och CNS cancer. Kvalitetsjusterade levnadsår är beräknade utifrån svagt reducerad livskvalitet*.

Åldersgrupp	0 – 4	5 – 9	10 – 14	15 - 19		0 – 4	5 - 9	10 - 14	15 - 19
Leukemi					CNS				
<i>Antal fall</i>	43	23	13	7		35	13	20	18
<i>Förlorade levnadsår</i>	543	271	144	205		1018	361	525	481
<i>Förlorade arbetsår</i>	330	176	100	112		724	269	416	364
<i>Förlorade kvalitetsjusterade levnadsår</i>	837	419	223	242		1197	424	618	578
Direkta behandlingskostnader	30 734 943	25 154 724	17 921 821	7 703 416		9 394 807	9 364 050	8 250 065	7 379 654
Produktivitetsförluster									
<i>Mortalitet</i>	151 467 258	79 079 751	43 738 517	54 394 006		261 785 033	95 502 277	143 962 172	118 838 711
<i>Permanent sjuklighet</i>	32 672 402	16 596 658	8 733 511	3 377 564		119 967 987	42 579 805	61 065 745	55 089 066
<i>Lägre produktivitet**</i>	842 617 802	195 211 936	89 944 452	29 458 968		563 655 767	102 290 894	133 332 686	107 400 532
<i>Sjukfrånvaro föräldrar***</i>	14 139 369	7 562 918	4 274 693	3 040 799		14 994 820	5 569 505	8 568 469	7 402 367
Förlorade kvalitetsjusterade levnadsår för anhöriga									
<i>Föräldrar</i>	63	33	19	15		73	27	41	35
<i>Syskon</i>	35	19	11	8		39	14	22	19

* Opåverkad livskvalitet: vikten 1.0 för varje levnadsår; svagt påverkad livskvalitet: de drabbade barnens levnadsår räknas med vikten 0.9 över hela livet; föräldrarnas levnadsår då det drabbade barnet överlevt räknas med vikten 0.75 första året efter insjuknandet, 0.9 år två till fem efter insjuknandet och vikten 1.0 därefter; föräldrarnas levnadsår då det drabbade barnet avlidit räknas med vikten 0.5 för åren ett till fem efter insjuknandet, och vikten 1.0 därefter; syskonets levnadsår viktas enligt samma princip och med samma vikter.

** Lägre produktivitet innefattar totalt bortfall av produktivitet på grund av arbetslöshet och lägre produktivitet bland de som har arbete.

*** Föräldrars sjukfrånvaro inkluderar ersatta dagar utöver det som en normalpopulation genererar. Resultaten inkluderar även behandlingstiden. Separat redovisning av kostnader för tillfällig sjukfrånvaro för behandlingstiden respektive de efterföljande åren återfinns i avsnitt 4.6.

Tabell 1. Sammanfattning av de olika kostnaderna till följd av nya fall av barncancer i Sverige 2015. Övrig cancer. Kvalitetsjusterade levnadsår är beräknade utifrån svagt reducerad livskvalitet*.

Åldersgrupp	0 – 4	5 - 9	10 – 14	15 - 19
Leukemi				
<i>Antal fall</i>	53	20	47	98
<i>Förlorade levnadsår</i>	1367	496	1069	2701
<i>Förlorade arbetsår</i>	794	301	704	1579
<i>Förlorade kvalitetsjusterade levnadsår</i>	1656	602	1297	3227
Direkta behandlingskostnader	55 880 092	29 933 598	48 048 585	84 085 998
Produktivitetsförluster				
<i>Mortalitet</i>	379 222 905	140 942 643	321 403 975	718 366 977
<i>Permanent sjuklighet</i>	62 591 269	22 630 962	49 107 432	95 276 579
<i>Lägre produktivitet**</i>	842 395 990	141 707 940	272 012 904	451 474 511
<i>Sjukfrånvaro föräldrar***</i>	21 737 086	8 202 674	19 276 284	41 138 734
Förlorade kvalitetsjusterade levnadsår för anhöriga				
<i>Föräldrar</i>	104	39	91	196
<i>Syskon</i>	52	17	46	99

* Opåverkad livskvalitet: vikten 1.0 för varje levnadsår; svagt påverkad livskvalitet: de drabbade barnens levnadsår räknas med vikten 0.9 över hela livet; föräldrarnas levnadsår då det drabbade barnet överlevt räknas med vikten 0.75 första året efter insjuknandet, 0.9 år två till fem efter insjuknandet och vikten 1.0 därefter; föräldrarnas levnadsår då det drabbade barnet avlidit räknas med vikten 0.5 för åren ett till fem efter insjuknandet, och vikten 1.0 därefter; syskonets levnadsår viktas enligt samma princip och med samma vikter.

** Lägre produktivitet innefattar totalt bortfall av produktivitet på grund av arbetslöshet och lägre produktivitet bland de som har arbete.

*** Föräldrars sjukfrånvaro inkluderar ersatta dagar utöver det som en normalpopulation genererar. Resultaten inkluderar även behandlingstiden. Separat redovisning av kostnader för tillfällig sjukfrånvaro för behandlingstiden respektive de efterföljande åren återfinns i avsnitt 4.6.

INNEHÅLLSFÖRTECKNING

INTRODUKTION	9
1.1 BAKGRUND	9
1.2 SYFTE.....	10
1.3 BEGRÄNSNINGAR.....	10
1.4 POPULATION.....	11
1.5 DATA	11
1.6 DEN FORTSÄTTA FRAMSTÄLLNINGEN	11
2 TEORETISK BAKGRUND OCH METOD	11
3 DATA ÖVER INSJUKNANDE I BARNCANCER	14
4 INDIREKTA KOSTNADER	14
4.1 ÖVERLEVNADSSANNOLIKHETER.....	15
4.2 FÖRVÄNTADE FÖRLORADE LEVNADS- RESPEKTIVE ARBETSÅR.....	15
4.3 KVALITETSJUSTERADE LEVNADSÅR	18
4.4 VÄRDET AV FÖRLORAD PRODUKTION	20
4.5 KOSTNADER FÖR MORTALITET RESPEKTIVE PERMANENT ARBETSOFÖRMÅGA TILL FÖLJD AV CANCER I BARNDOMEN	20
4.6 KOSTNADER FÖR TILLFÄLLIG SJUKLIGHET OCH PERMANENT NEDSATT PRODUKTIVITET	21
4.7 TOTALA INDIREKTA KOSTNADER.....	25
4.8 UTBILDNING	25
5 DIREKTA KOSTNADER	25
5.1 SLUTENVÅRD	25
5.2 ÖPPENVÅRD.....	26
5.3 TOTALA DIREKTA KOSTNADER.....	27
5.4 KOSTNADER FÖR PSYKOSOCIALT STÖD.....	27
6 RESULTAT.....	30
6.1 KOSTNADSEFFEKTIVITET.....	30
7 DISKUSSION	32
7.1 FORSKNINGSLÄGET.....	32
7.1.1 <i>Framtida studier utifrån svensk registerinformation</i>	<i>33</i>
8 REFERENSER	35

INTRODUKTION

1.1 Bakgrund

I Sverige drabbas varje år mellan 300 och 400 barn av cancer. Av dessa kan man förvänta att mellan 80 och 110 dör av sin cancer under de första fem åren efter insjuknandet (Gatta et al., 2009). Dödsfallen innebär stora påfrestningar för kvarlevande föräldrar och syskon. De barn som överlever har i genomsnitt sämre arbetsmarknadsanknytning i vuxen ålder än jämnåriga som inte haft cancer. Dessutom tyder en växande vetenskaplig litteratur dels på att barncanceröverlevare i genomsnitt har sämre livskvalitet än jämnåriga som inte haft cancer i barndomen, dels på att föräldrars och syskons livskvalitet påverkas negativt. Trots de substantiella kostnader som uppkommer på grund av nedsatt produktivitet, och troligen också livskvalitetsförsämringar, som kan förknippas med barncanceröverlevares förmåga att fungera i utbildningssituationer och överlevares och föräldrarnas arbetsmarknadsbeteende är de resurser som läggs på långsiktig rehabilitering och psykosocialt stöd till överlevare och deras familjer relativt begränsade.

I en nyligen genomförd kartläggning av det psykosociala stödet som erbjuds barncancerpatienter och deras familjer vid Sveriges sex barncancercentra framkom att det att stödet bedöms som otillräckligt vid samtliga center. Särskilt betonades vikten av ytterligare resurser i form av kurator- och psykologstöd för att uppnå ett fullgott stöd (Pirhonen, 2017). Denna bild kompletteras av resultaten i en nyligen genomförd studie av det behov av och tillfredsställelse med den information och den vård som ges till de som överlevt CNS cancer. Både informationsbehovet och behovet av vård är i stor utsträckning otillfredsställt (Hovén et al., 2017, 2015).

Barn som insjuknade i cancer fram till omkring 1970 överlevde till vuxen ålder i väsentligt lägre utsträckning än de barn som drabbats av cancer efter 1970 – skillnaderna är dock stora mellan olika typer av cancer. Sammantaget är långtidsöverlevnaden för de barn som insjuknade i cancer under 1990-talet i de nordiska länderna högre än 75 %. Särskilt den långsiktiga överlevnaden förbättrades under den här perioden (Armstrong et al., 2016). Under tidigt 2000-tal argumenterades det för att dessa överlevnadsresultat borde betraktas som en målsättning för övriga världen (Gatta et al., 2003). Under 2000-talet har överlevnaden förbättrats ytterligare något (Gatta et al., 2009).

Förbättringar i överlevnaden aktualiserar frågan om hur cancer i barndomen och de behandlingar som är nödvändiga påverkar de överlevande barnen senare i livet. Hur är deras utbildning, arbetsmarknadsaktiviteter, familjebildning och generell livskvalitet jämfört med de som inte drabbats av cancer i barndomen? Forskningen under de senaste tio-femton åren har ökat kunskapen kring dessa långtidseffekter betydligt. Det rådande kunskapsläget visar att barncanceröverlevare (i genomsnitt) har lägre utbildningsnivå, sämre arbetsmarknadsanknytning, lägre inkomster, lägre familjebildningsfrekvens, och sämre hälsorelaterad livskvalitet, än individer som inte drabbats av cancer i barndomen (Vinkel Koch, 2004; Boman et al., 2010; Frobisher et al., 2017). Den vetenskapliga evidens vad gäller effekten på *hälsorelaterade* funktioner respektive hälsorelaterad livskvalitet i vuxen ålder av att ha haft cancer i barndomen är tvetydig. Vissa studier rapporterar signifikanta negativa effekter (Font-Gonzales et al., 2016; Wengenroth et al., 2015; Blaauwbroek et al., 2007; Grant et al., 2006), medan man i andra studier finner små eller inga skillnader (Willard et al., 2017; Alessi et al., 2007; McDougall och Tsonis, 2009; Zeltzer et al., 2008; Maunsell et al., 2006; Langeveld et al., 2004). Barncanceröverlevare skiljer sig dock åt beroende på vilken diagnos de haft. De som överlevt CNS cancer har i större utsträckning än andra ett nedsatt hälsotillstånd, en försämrad hälsorelaterad livskvalitet, och en försämrad total livssituation (King et al., 2017; Dumas et al., 2016; Barakat et al., 2015; Hovén et al., 2013; Cantrell, 2011).

Det är samtidigt uppenbart att hälsan under barn- och ungdomsåren sätter ramarna för individens möjligheter att som ung vuxen genomgå utbildning. Detta innebär att en långvarig sjukdom i barn- och ungdomsåren inte bara påverkar förutsättningarna för de utbildningssatsningar som individen gör i början av livet, utan också, genom kumulativa effekter, även den vuxnes möjligheter på arbetsmarknaden. Långvarig sjukdom under barn- och ungdomsåren kan alltså sägas indirekt påverka individens möjligheter på arbetsmarknaden senare i livet genom den efter hand sammanlagda effekten av bristfälliga utbildningssatsningar och/eller bristande förmåga att tillgodogöra sig utbildning lika effektivt som helt friska individer. Det finns övertygande empiriska belägg för att långvarig sjukdom i barndomen påverkar utbildning och arbetsmarkandsanknytning senare i livet (French et al. 2015; Boman et al., 2010).

Även om studier visar att barncanceröverlevare *i genomsnitt* inte har sämre hälsa än jämförbara personer som inte haft cancer så är spridningen stor bland överlevarna. Cancer i barn- och ungdomsåren kan medföra allt från ingen påverkan på individens senare hälsotillstånd till ett livslångt handikapp. Bestående negativa hälsoeffekter orsakas inte enbart av cancersjukdomen i sig utan av de behandlingar som barnen måste genomgå (Langeveld 2003). Samtidigt finns det i viss utsträckning vetenskapliga belägg för att olika typer av interventioner kan förbättra canceröverlevarnas, och deras familjers, livssituation. I takt med att överlevnaden ytterligare förbättras för de som drabbas av cancer i barndomen växer betydelsen av att också kunskapen om interventioner med målsättningen att förbättra livssituationen för de som drabbats förbättras (Kazak, 2005). Kostnadseffektiviteten av olika typer av rehabiliteringsinsatser riktade till canceröverlevare är praktiskt taget okänd (Mewes, 2016). Barr et al. (2004) argumenterar för att hälsoekonomiska utvärderingar skall genomföras inom ramen för kliniska prövningar inom barnonkologin.

1.2 Syfte

Studiens huvudsakliga syfte är att kvantifiera de samhällsekonomiska och individuella livskvalitetsrelaterade effekterna av barncancer. Målsättningen är att på så sätt dels få en uppfattning om hur stora kostnader som kan förknippas med barncancer, dels uppskatta hur stora kostnadsbesparingar som potentiellt skulle kunna uppnås med effektiva rehabiliterings och psykosociala stödinsatser till barncancerdrabbade och deras anhöriga.

1.3 Begränsningar

Ingen egen primärdatainsamling görs inom ramen för den här studien. De beräkningar som görs utgår uteslutande från sekundär information. Det gäller, exempelvis, överlevnadssannolikheter som hämtats ur den internationella vetenskapliga litteraturen, och sammanställningar av vårdkostnader, som insamlats ur Sveriges Kommuner och Landstings databas. Således kan pålitligheten i de resultat som uppnås här inte vara bättre än den som kan antas för dessa informationskällor. Detta första påpekande är en självklarhet, men förtjänar att påminnas om. Således kan man egentligen aldrig göra en helt säker och invändningsfri beräkning av effekter över livet av händelser i barndomen. Varje beräkning är en skattning som bygger på antaganden och på ofullständiga informations- och dataunderlag. Däremot kan man sträva efter en så stor precision som är möjlig med givet underlag och efter att använda antaganden som är så rimliga som möjligt och/eller som överensstämmer med praxis för sådana beräkningar. Hur stabila beräkningens resultat är kan provas genom att variera antaganden och dataunderlag inom rimliga gränser.

Ingen systematisk kunskapssammanställning har gjorts inom ramen för den här studien.

1.4 Population

I studien inkluderas individer som drabbas av cancersjukdom under 2015 och innan de fyllt 20 år. Varje sådan individ antas ha två föräldrar och ett jämgammalt syskon. De aktuella diagnoskoderna anges i tabell 2 med sina bokstavs- och sifferkoder enligt den senaste svenska utgåvan av den senaste, den tionde, internationella klassificeringen av sjukdomar och sjukdomsgrupper (International Statistical Classification of Diseases and Related Health Problems, Tenth Revision, ICD-10).

Tabell 2. ICD-10/ICD7 koder för de i studien ingående diagnoserna

Sjukdom	ICD10	ICD7
Leukemi	C91 – C95	204 - 206
CNS	C70 – C72	193
Andra cancertyper	Alla övriga koder under kapitel C	Övriga

1.5 Data

De uppgifter vi använder för våra beräkningar och sammanställningar kommer huvudsakligen från Socialstyrelsens statistikdatabas, Sveriges Kommuner och Landstings databas, samt den internationella vetenskapliga litteraturen. Det gäller information om antalet nyinsjuknade, vårdkostnader under behandlingsfasen, effekter på arbetslivsdeltagande för föräldrar och barncanceröverlevare senare i livet, samt överlevnadssannolikheter för de olika barncancergrupperna. Eftersom datakällorna varierar nämns respektive informationskälla i mer detalj i anslutning till redovisningen av varje effektkomponent.

1.6 Den fortsatta framställningen

I avsnitt 2 redogör vi för den ekonomiska teori som utgör grunden för så kallade *cost-of-illness*-beräkningar, och för den metodologi för de faktiska beräkningarna som vi använder oss av i studien. Avsnittet är kortfattat med hänvisningar till mer utförliga beskrivningar av den ekonomiska teori som ligger till grund för *cost-of-illness*-beräkningar och med vars hjälp vi definierar kostnader som uppstår till följd av sjukdom och hur dessa kan indelas.

I avsnitt 2 redogör vi också för den metodologi som tillämpats, medan avsnitt 3 redogör för den barncancerpopulation som vi utgår ifrån

I avsnitt 4 redovisas beräkningarna av de kostnader som uppstår till följd av störningar på samhällets produktion av varor och tjänster (indirekta kostnader) till följd av de diagnostiserade fallen av barncancer i Sverige år 2015. I avsnitt 5 redovisas beräkningarna av de behandlingskostnader som dessa barncancerfall medför. Studiens resultat sammanfattas och diskuteras i avsnitt 6.

2 TEORETISK BAKGRUND OCH METOD

Det övergripande syftet med den här studien är att kvantifiera de samhällsekonomiska och, i mån av tillgänglig information, de individuella effekterna av utebliven eller inadekvat rehabilitering och psykosocialt stöd för barncanceröverlevare och deras närmaste anhöriga. Detta nödvändiggör flera steg vad gäller utarbetande av en principiell beräkningsmodell, insamling av information och data, beräkningar inklusive känslighetsanalyser av de i beräkningarna ingående antagandena.

Följande avsnitt ger en kort bakgrund av de metodologiska grunderna för beräkningar av samhällsekonomiska kostnader för sjukdom. Sådana beräkningar kan liknas vid ett bokslut över den resursanvändning, och de produktivets- och livskvalitetsförluster, som kan knytas till ett visst sjukdomstillstånd eller, mer generellt, en handling som har hälsokonsekvenser. Ett exempel på det senare är rökning. Det ställs stora krav på mängden information som är nödvändig för att kunna beräkna storleken på de kostnader som uppstår till följd av en viss sjukdom. Hälso- och sjukvårdsutnyttjandet måste vara relaterat till specifika hälsotillstånd så att varje specifikt vårdtillfälle kan knytas till en viss diagnos. I princip har vi denna möjlighet i Sverige, men i många fall är även denna diagnosrelatering otillräcklig. Ett exempel på när det är så är när man vill avgöra hur mycket hälso- och sjukvård som orsakas av, exempelvis, rökning. I detta och liknande fall måste den epidemiologiska litteraturen utnyttjas för att avgöra hur mycket av vårdkonsumtionen för varje sjukdom som är relaterad till rökning (eller den hälsorelaterade handling / tillstånd som analyseras) som samtidigt kan sägas ha orsakats av rökning. Detta är nödvändigt eftersom inte all sjuklighet som är rökningsrelaterad beror av rökning. Lungcancer är ett exempel på detta – även om sambandet mellan lungcancer och rökning är starkt är inte alla som insjuknar i lungcancer rökare. Vad gäller läkemedelsanvändning finns över huvud taget ingen diagnosrelatering, vilket innebär att för de läkemedel som har multipla indikationer finns inget sätt att direkt avgöra vilken diagnos som orsakat förskrivningen.

Effekter på samhällsekonomin produktion är indirekta i den meningen att en viss sjukdom orsakar tillfällig sjukfrånvaro från arbetet, permanenta frånvaro eller till och med för tidig död. Allt detta påverkar sedan samhällsekonomin genom att produktionskapaciteten reduceras. Bland de indirekta effekterna av en sjukdom finns även de förluster av förväntade kvalitetsjusterade levnadsår som en viss sjukdom medför. Förlusten av förväntade kvalitetsjusterade levnadsår beräknas som summan av förväntade levnadsår som förloras där varje år viktas med ett mått på livskvaliteten. Detta ställer också stora krav på tillgången till information, och vanligen utförs inga sådana beräkningar som en del av en samhällsekonomisk kostnadsberäkning.

Alltså kan de samhällsekonomiska kostnaderna för barncancer kan delas upp i följande komponenter: (1) de direkta behandlingskostnaderna som uppstår till följd av cancer i barndomen, (2) det hälso- och sjukvårdsutnyttjande som barncanceröverlevare har under livet och som beror på den cancer de hade i barndomen, (3) de produktivetsförluster som uppstår på grund av cancer i barndomen, och (4) de förluster av livskvalitetsjusterad levnadsår som barncancer orsakar. Komponenterna (1) och (3) kan uppskattas relativt enkelt utifrån registerinformation och information vad gäller överlevnad i den vetenskapliga litteraturen. Beräkandet av mängden hälso- och sjukvård som utnyttjas över livet och som kan tillskrivas cancer i barndomen kräver information om i vilken utsträckning barncanceröverlevare utnyttjar hälso- och sjukvård. Det är inte möjligt att direkt utnyttja registerinformation för att bestämma mängden hälso- och sjukvårdsutnyttjande som kan tillskrivas barncancer (undantaget de direkta behandlingskostnaderna). Istället måste information från kontrollerade studier användas. Vi genomför ingen fullständig beräkning av dessa kostnader i den här studien, men vi försöker att ge en uppskattning av storleksordningen på kostnaderna genom att använda nyligen publicerade svenska studier. På samma sätt kräver beräkningen av förlusten av kvalitetsjusterade levnadsår tillgång till information som inte återfinns i de register som systematiskt samlar in individbaserad hälsorelaterad data. I vårt fall tillkommer dessutom de anhörigas livskvalitetspåverkan. Det finns visserligen publicerad information angående de livskvalitetsförluster som barncancer orsakar för de drabbade barnen. Samtal med experter på området visar dock att den tillgängliga evidensen är otillräcklig för att kunna avgöra hur livskvaliten över livet påverkas. Därför gör vi beräkningar enligt tre scenarier där livskvaliten påverkas på olika sätt.

Studier av de samhällsekonomiska kostnader som uppstår till följd av sjukdom brukar kallas *cost-of-illness* studier. Utgångspunkten är att de resurser som går till hälso- och sjukvård har en alternativ användning. De varor och tjänster som man på detta sätt måste avstå från benämns *alternativkostnad*. Till denna typ av kostnader brukar man också räkna den förlust av produktionskapacitet som uppstår då sjukdom leder till antingen död eller permanent eller tillfällig sjuklighet. Man talar ibland också i princip om en tredje typ av kostnad, förlusten i livskvalitet mätt i kronor, men i praktiken förekommer beräkningar av denna kostnad sällan eller aldrig (som påpekats ovan).

Den teoretiska utgångspunkten är gemensam för alla *cost-of-illness*-studier. Däremot är skillnaderna stora mellan olika *cost-of-illness*-studier avseende både hur de resurser som tas i anspråk till följd av sjukdom mäts och värderas och de datakällor som används. Dessa skillnader i metod och data är en av de faktorer som försvårar jämförbarheten mellan olika *cost-of-illness*-studier. Andra faktorer som kan försvåra jämförelsen mellan olika studier är om de avser olika länder och/eller olika tidpunkter.

En *cost-of-illness*-studie kan utgå från ettdera av de epidemiologiska begreppen incidens eller prevalens. I incidensansatsen beräknas alla framtida kostnader för en person som nydiagnostiseras med sjukdomen under en viss period, medan man i prevalensansatsen beräknar kostnaden under en viss period (vanligen ett år) för alla de personer som lider av sjukdomen. Det är den förra ansatsen som används i den här studien för att beräkna de indirekta kostnaderna till följd av cancer i barndomen.

För att kunna beräkna den samhällsekonomiska kostnaden för en specifik sjukdom är det nödvändigt att ha information gällande både kvantitet (mortalitet, förtidspensioner, hälso- och sjukvårdsutnyttjande) och pris. Vi måste alltså ha en metod för att mäta dels kvantitet dels pris. Priset som åsätts konsumtionen av hälso- och sjukvård har beräknats utifrån sjukvårdens redovisning av behandlingskostnader. De indirekta kostnaderna uppstår då sjukdom förhindrar att arbete utförs. Ett sätt att värdera den tid som inte kan användas produktivt är med hjälp av den lön som betalas på marknaden. I praktiken kan vi emellertid varken observera lön eller arbetstid på individnivå för de personer som drabbas av sjukdom. Istället observerar vi genomsnittlig marknadsinkomst vilken, inklusive arbetsgivareavgifterna, utgör grunden för en värdering av den förlorade produktionskapaciteten. Detta sätt att värdera förluster i produktionskapaciteten kallas humankapitalmetoden. I princip skulle den produktion som utförs av hushållen kunna värderas med samma metod men med hjälp av genomsnittlig nettolön (lönen efter skatt) och inte bruttolön (lönen före skatt) som ett värde på den tid som används till hushållsproduktion. Skälet är att individen, om han kan välja, hyr in exempelvis en hantverkare för att utföra en uppgift om han under samma tid kan erhålla en nettolön som överstiger vad han måste betala till hantverkaren; i annat fall utför han uppgiften själv (Drummond, 1997; p 210). I den här studien har vi avstått från att beräkna de produktivitetsförluster som uppstår i hushållssektorn på grund av brist på information.

Denna metod att beräkna de indirekta kostnaderna kräver att vi beräknar (a) förväntade inkomster för män och kvinnor och uppdelat på de olika relevanta sjukdomsgrupperna, och (b) sannolikheten att en individ vid en viss ålder lever till nästa tidsperiod. Det vill säga, vi behöver veta sannolikheten att en individ som uppnått en viss ålder lever ytterligare en tidsperiod. Vi har beräknat dessa sannolikheter för varje ålder, uppdelat sjukdomsgrupper, och för män och kvinnor, med hjälp av sekundärinformation från dels den vetenskapliga litteraturen, dels populationens totala dödlighet (livslängdstabeller, SCB).

Några tidiga referenser på området är Rice (1966), Lindgren (1981) och Hodgson (1983). Vi har i denna studie valt delvis samma metod som i Jacobson och Lindgren (1996), och Bolin och Lindgren (2004, 2007).

3 DATA ÖVER INSJUKNANDE I BARNCANCER

Beräkningarna av de kostnader som cancer i barndomen medför utgår ifrån insjuknandet i cancer före 20 års ålder i Sverige år 2015. Tabell 3 sammanfattar antalet nydiagnosticerade cancerfall (2015) uppdelat i åldersgrupperna 0 – 4, 5 – 9, 10 – 14, och 15 – 19, och för män respektive kvinnor (Cancerregistret, Socialstyrelsen). Totalt diagnosticerades i Sverige 390 barn med cancer år 2015. Av dessa barn insjuknade 172 i leukemi eller CNS cancer. 218 barn insjuknade i den grupp vi kallar för övrig cancer (alla cancerdiagnoser utom leukemi och CNS cancer).

Tabell 3. Barncancerincidensen år 2015 i Sverige

Åldersgrupp		0-4	5-9	10-14	15-19	Totalt
Leukemi	Män	19	17	7	4	47
	kvinnor	24	6	6	3	39
CNS	Män	23	7	5	13	48
	Kvinnor	12	6	15	5	38
Övrig cancer	Män	32	6	31	48	117
	Kvinnor	21	14	16	50	101
Totalt		131	56	80	123	390

Antalet insjuknade är störst i den yngsta och äldsta åldersgruppen. Åldersfördelningen skiljer sig dock åt mellan de olika cancergrupperna. För leukemi insjuknar de flesta i ålder 0 – 4 år, medan denna tendens är lite otydligare för gruppen CNS cancer. För de övriga cancertyperna insjuknar flest i den äldsta åldersgruppen.

4 INDIREKTA KOSTNADER

De indirekta kostnaderna utgörs av värdet av de varor och tjänster som inte kunnat produceras på grund av att personer varit sjuka under en kortare eller längre tid eller avlidit i förtid på grund av sjukdom. Dessa kostnader värderas, enligt humankapitalmetoden (Drummond et al., 2005), till nuvärdet av de förväntade inkomster som dessa individer skulle ha haft om de varit fullt arbetsföra. I våran beräkning av de indirekta kostnader som uppstår på grund av barncancer inkluderar vi (1) de kostnader som kan hänföras till dödsfall bland de drabbade barnen, (2) de kostnader som uppstår på grund av att barncanceröverlevarna uppvisar en sämre anknytning till arbetsmarknaden än jämförbara individer som inte haft cancer, (3) de kostnader som uppstår då föräldrars arbetsmarknadsbeteende störs (sjukskrivningar). Vi gör alltså inga försök att beräkna de kostnader som uppstår då barncanceröverlevare beviljas sjuk- eller aktivitetsersättning. Detta eftersom den diagnosrelatering som finns i försäkringskassans register över beviljade sjuk- och aktivitetsersättningar inte möjliggör koppling till cancersjukdom i barndomen.

Dödsfall bland de barn som drabbas av cancer innebär både förlust av levnadsår och förlust av den produktion som dessa barn skulle annars skulle stått för. Vi beräknar därför både förlusten av förväntade levnadsår respektive förlusten av marknadsproduktion till följd av dödsfall i

barncancer. Ett första steg i dessa beräkningar är att bestämma de överlevnadssannolikheter som barn möter vid olika cancerdiagnoser och i olika åldersgrupper.

4.1 Överlevnadssannolikheter

Sjukdom påverkar den förväntade överlevnaden vid varje tidpunkt. Även om överlevnaden för de barn som drabbas, eller har drabbats, av cancer i barndomen har ökat betydligt de senaste tre-fyra decennierna så är risken att dö i förtid väsentligt högre för de här individerna jämfört med den genomsnittliga befolkningen. Särskilt är det så under de närmsta åren efter diagnos och behandling, men även så sent som femton år efter diagnos har det visats att barncanceröverlevare löper en högre risk att dö i förtid jämfört med de som inte haft cancer. Eftersom överlevnadssannolikheten är lägre för de barn som har eller har haft en cancersjukdom kommer färre av de cancerdrabbade att vara vid liv över tiden jämfört med en motsvarande population som inte haft cancer i barndomen.

Vi beräknar förväntade antalet levande personer från insjuknande och över livscykeln med hjälp av överlevnadssannolikheter för barncanceröverlevare samt Statistiska Centralbyråns livslängdstabeller. Överlevnadssannolikheter för de cancerdrabbade har hämtats från vetenskapliga studier där överlevnadssannolikheten beräknats dels för tiden fem år efter insjuknandet, dels för tiden fem till femton år efter insjuknandet (Gatta et al., 2009, tabeller 3 respektive 5; Armstrong et al., 2016, tabell 2), och för olika cancerdiagnoser.

Tabell 4: Årlig överlevnadssannolikhet för barncanceröverlevare jämfört med totalbefolkningen.

Ålder vid diagnos / diagnos	Uppföljningstid 0 – 5		Uppföljningstid 6 – 15	
	Totalbefolkningen		Totalbefolkningen	
0 – 14				
Leukemi	0,968	0,999	0,995	0,999
CNS	0,907		0,992	
Övrig cancer	0,919		0,994	
15 – 19				
Leukemi	0,901	0,999	0,995	0,999
CNS	0,919		0,992	
Övrig cancer	0,912		0,994	

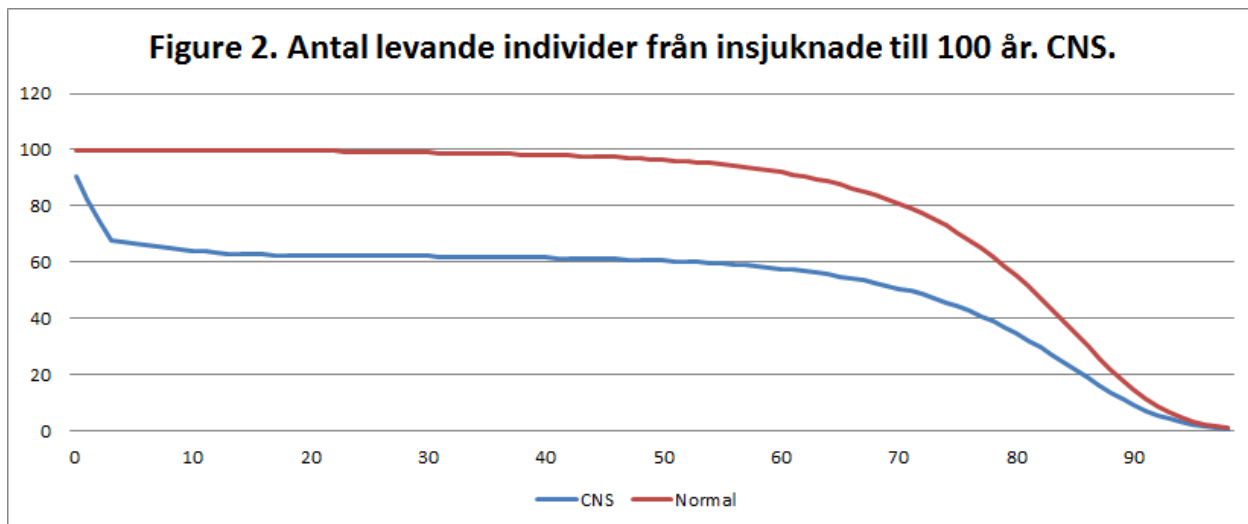
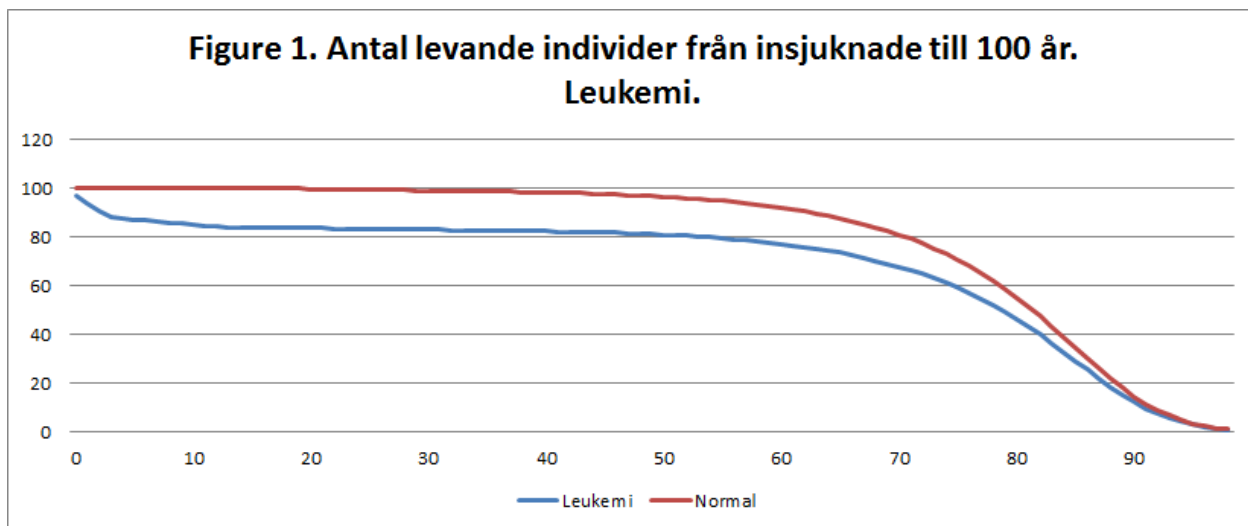
Överlevnadssannolikheterna som redovisas i Tabell 4 visar att barn, i den yngsta av de två åldersgrupperna, som insjuknar i leukemi har den mest positiva överlevnadsprognosen.

Förväntade förlorade levnadsår på grund av cancer i barndomen beräknas som skillnaden mellan antalet levande personer varje år i framtiden i en population som drabbats av cancer och en annan som inte drabbats av cancer. Utifrån informationen i Tabell 4 beräknades det förväntade antalet förlorade levnadsår på grund av barncancer- Resultaten redovisas i tabell 5.

4.2 Förväntade förlorade levnads- respektive arbetsår

Det faktum att arbets- respektive levnadsår förväntas gå förlorade till följd av barncancer beror på den högre risk för död som de som är sjuka i cancer har över tiden. I de beräkningar vi utfört i den här studien har vi antagit att de som drabbas av barncancer löper högre risk än den genomsnittliga befolkningen i samma ålder att dö under en given tidsperiod, vilket illustreras i Tabell 4, fram till det femtonde året efter diagnos. Därefter har vi antagit att

barncanceröverlevare vid en given ålder har samma överlevnadsannolikhet som den genomsnittliga befolkningen, vid samma ålder, som inte haft cancer i barndomen. Beräkningarna har gjort fram till en ålder av 100 år. För att konkretisera begreppet levnadsår kan man tänka sig två populationer, av vilka den ena har drabbats av cancer i barndomen. Låt oss illustrera begreppet levnadsår i en figur där den vertikala axeln visar antalet individer, och den horisontella axeln visar levnadstiden i år. I figurerna 1 respektive 2 har vi använt samma överlevnadssannolikheter som vid beräkningarna av det förväntade antalet förlorade arbets- respektive levnadsår som insjuknandet i barncancer 2015 medför. Med skillnaden att vi har utgått ifrån 100 insjuknade i leukemi respektive CNS cancer, samt 100 individer ur den genomsnittliga befolkningen. Areal mellan de två graferna visar förlorade levnadsår.



Figurerna 1 och 2 är konstruerade med samma skalor. Därför syns det tydligt vid snabb inspektion att antalet förlorade levnadsår kan förväntas vara betydligt större per insjuknad individ för CNS än för leukemi. Nedan presenterar vi beräkningarna av förväntade förlorade levnads- respektive arbetsår, per diagnosgrupp, för de som insjuknade i barncancer i Sverige år 2015. Vi redovisar beräkningar av dels det absoluta antalet förväntade år, dels förväntade antal förlorade levnads- och arbetsår per insjuknad individ

Tabell 5: Förväntade förlorade levnadsår på grund av barncancer.

Ålder vid diagnos / diagnos	Män	Kvinnor	Totalt
0-14			
Leukemi	508	451	959
CNS	975	930	1 904
Övrig cancer	1 646	1 286	2 932
<i>Totalt 0 – 14</i>	3 128	2 667	5 795
15-19			-
Leukemi	117	89	205
CNS	346	135	481
Övrig cancer	1 316	1 386	2 701
<i>Totalt 15 - 19</i>	1 778	1 609	3 387
<i>Totalt</i>	4 907	4 275	9 182

Totalt kan man förvänta att 9 182 levnadsår förloras till följd av den cancer som diagnosticerades bland barn i Sverige år 2015. Något fler levnadsår förloras bland män än bland kvinnor. Nästan dubbelt så många levnadsår förloras bland de barn som insjuknar efter 15 års ålder, trots att endast 50 procent av antalet insjuknade befann sig i denna åldergrupp. Förklaringen är den lägre femårsöverlevnaden för framför allt leukemi bland de äldre barnen.

Antalet förlorade levnadsår ger en bild dels av den livstid som totalt förloras, dels av de produktionsvärden som förloras av förtidig död. För att ge en bild av åldersstrukturen av barns cancersjukdom beräknas antalet förlorade levnadsår per diagnosticerad patient. I tabell 6 redovisas resultaten.

Tabell 6: Förväntade förlorade levnadsår per patient på grund av barncancer.

Ålder vid diagnos / diagnos	Män	Kvinnor
0-14		
Leukemi	11,8	12,5
CNS	27,8	28,2
Övrig cancer	23,9	25,2
15-19		
Leukemi	29,2	29,5
CNS	26,6	26,9
Övrig cancer	27,4	27,7

Antal förlorade levnadsår per patient speglar hur effektiv den behandling är som ger vid respektive diagnos. Det framgår tydligt att barn som insjuknar i leukemi före 14 års ålder förväntas förlora väsentligen mindre levnadstid än de barn som insjuknar i samma sjukdom efter 14 års ålder. Vad gäller de övriga cancerdiagnoserna är skillnaderna små mellan yngre och äldre

barn. Skillnaderna mellan könen är också små, med en liten tendens mot att kvinnor förlorar fler levnadsår, särskilt bland de barn som insjuknar för 15 års ålder.

Antalet förlorade arbetsår på grund av mortalitet och permanent arbetsoförmåga till följd av barncancer ger en bild av det produktionsbortfall (mätt i arbetstid) som barncancer orsakar genom att de drabbade avlider eller permanent står utanför arbetsmarknaden. I samtliga fall har vi beräknat antalet år mellan åldrarna 30 och 65. Detta leder till en mycket konservativ skattning av antalet arbetsår som förloras. I Tabellerna 7 och 8 rapporteras det förväntade antalet förlorade arbetsår, uppdelat på ålder vid insjuknande, diagnos samt kön.

Tabell 7: Förväntade förlorade arbetsår på grund av barncancer (mortalitet och permanent arbetsoförmåga)

Ålder vid diagnos / diagnos	Män	Kvinnor	Totalt
0-14			
Leukemi	327	278	605
CNS	720	689	1 410
Övrig cancer	1 028	771	1 799
<i>Totalt 0 – 14</i>	2 076	1 738	3 814
15-19			-
Leukemi	64	48	112
CNS	212	101	313
Övrig cancer	773	806	1 579
<i>Totalt 15 - 19</i>	1 049	955	2 004
<i>Totalt</i>	3 125	2 693	5 818

Tabell 8: Förväntade förlorade arbetsår per patient på grund av barncancer.

Ålder vid diagnos / diagnos	Män	Kvinnor
0-14		
Leukemi	7,6	7,7
CNS	20,6	20,9
Övrig cancer	14,9	15,1
15-19		
Leukemi	16,0	16,1
CNS	20,2	20,2
Övrig cancer	16,1	16,1

Eftersom fler pojkar än flickor insjuknar i alla åldersgrupper är det totala förväntade antalet förlorade arbetsår större för pojkar än för flickor. Det förväntade antalet förlorade arbetsår per insjuknat barn är emellertid i stort sett det samma för pojkar som för flickor.

4.3 Kvalitetsjusterade levnadsår

Vi beräknar det förväntade antalet kvalitetsjusterade levnadsår till följd av den barncancer som diagnosticerades år 2015 enligt tre olika scenarier. Opåverkad livskvalitet innebär att varje levnadsår har vikten 1.0. Vid opåverkad livskvalitet blir alltså det förväntade antalet förlorade kvalitetsjusterade levnadsår samma antal som det förväntade antalet levnadsår. Ett förenklande antagande ha gjorts avseende den påverkan på livskvaliteten som ett dödsfall i barncancer har för

föräldrar och syskon. Vi har antagit att alla levnadsår som föräldrar och syskon har inom fem år efter diagnos i det fall det insjuknade barnet avlidit har samma livskvalitetsvikt.

De tre scenarierna är:

- (1) *Svagt reducerad livskvalitet*: de drabbade barnens levnadsår räknas med vikten 0.9 över hela livet; föräldrarnas levnadsår då det drabbade barnet överlevt räknas med vikten 0.75 första året efter insjuknandet, 0.9 år två till fem efter insjuknandet och vikten 1.0 därefter; föräldrarnas levnadsår då det drabbade barnet avlidit räknas med vikten 0.5 åren ett till fem efter insjuknandet, och vikten 1.0 därefter; syskonets levnadsår viktas på samma sätt och med samma livskvalitetsvikter som föräldrarna.
- (2) *Måttligt reducerad livskvalitet*: de drabbade barnens levnadsår räknas med vikten 0.8 över hela livet; föräldrarnas levnadsår då det drabbade barnet överlevt räknas med vikten 0.75 första året efter insjuknandet, 0.75 år två till fem efter insjuknandet och vikten 1.0 därefter; föräldrarnas levnadsår då det drabbade barnet avlidit räknas med vikten 0.4 åren ett till fem efter insjuknandet, och vikten 1.0 därefter; syskonets levnadsår viktas på samma sätt och med samma vikter som föräldrarna.
- (3) *Kraftigt reducerad livskvalitet*: de drabbade barnens levnadsår räknas med vikten 0.75 över hela livet; föräldrarnas levnadsår då det drabbade barnet överlevt räknas med vikten 0.5 första året efter insjuknandet, 0.75 år två till fem efter insjuknandet och vikten 1.0 därefter; föräldrarnas levnadsår då det drabbade barnet avlidit räknas med vikten 0.3 åren ett till fem efter insjuknandet, och vikten 1.0 därefter; syskonets levnadsår viktas på samma sätt och med samma livskvalitetsvikter som föräldrarna.

I Tabell 9 rapporteras det förväntade antalet kvalitetsjusterade levnadsår uppdelat på de i studien ingående diagnoserna, drabbade personer, samt de ovan beskrivna tre scenarierna avseende hur barncancer påverkar livskvaliteten.

Tabell 9. Förlorade kvalitetsjusterade levnadsår till följd av barncancer som diagnosticerats år 2015, uppdelat på de drabbade barnen, syskonet respektive föräldrarna.

QALYs lost		Svagt reducerad livskvalitet	Måttligt reducerad livskvalitet	Kraftigt reducerad livskvalitet
Leukemi				
	Barnet	1 721	2 278	2 557
	Syskonet	73	122	147
	Föräldrarna	130	207	257
CNS				
	Barnet	2 819	3 252	3 469
	Syskonet	94	142	171
	Föräldrarna	175	253	311
Övrig cancer				
	Barnet	6 783	7 933	8 507
	Syskonet	214	312	385
	Föräldrarna	430	626	771
<i>Totalt</i>		<i>12 438</i>	<i>15 126</i>	<i>16 577</i>

4.4 Värdet av förlorad produktion

Värdet av förlorad marknadsproduktion har värderats enligt humankapitalmetoden. Vi har använt den genomsnittliga förvärvsinkomsten inklusive sociala avgifter bland svenska barncanceröverlevare som är äldre än 25 år, uppdelad på cancerdiagnoserna leukemi, CNS cancer samt övriga cancerdiagnoser, som mått på värdet av förlorad produktion. Den genomsnittliga nettoinkomsten (total förvärvsinkomst) bland de som inte haft cancer i barndomen insamlades i samma datamängd (Boman et al., 2010). Nettoinkomsten har justerats till bruttoinkomst genom antagande att skatten på förvärvsinkomst är 30 procent.

I de flesta beräkningar av värdet av förlorad produktion till följd av sjukdom och förtidig död antas att de drabbade skulle varit fullt produktivt sysselsatta i frånvaro av sjukdom. I den här studien gör vi alltså en beräkning av de produktionsförluster som uppstår dels utifrån de lägre inkomster som barncanceröverlevare uppvisar, dels utifrån skillnaden mellan barncanceröverlevares observerade inkomster och de inkomster som friska individer uppvisar. Vidare gör vi ingen beräkning av de förluster som uppstår i hushållsproduktionen. Ingen publicerad information finns avseende den tid som barncanceröverlevare använder för hushållsproduktion. Vi har antagit en årlig inkomstillväxt om 1.5 procent och en diskonteringsränta om 1.0 procent.

4.5 Kostnader för mortalitet respektive permanent arbetsoförmåga till följd av cancer i barndomen

I tabell 10 redovisas dels de totala kostnader, i form av minskad marknadsproduktion, som förtidig död respektive permanent arbetsoförmåga hos de som drabbats av cancer i barndomen medför, dels värdet av den förlorade produktionen per diagnosticerad individ. Andelar av överlevarna som erhåller sjuk- eller aktivitetsersättning har hämtats från Hjern et al. (2007). Bland de som överlevt CNS har 26.2 procent sjuk- eller aktivitetsersättning. Motsvarande andelar för de som överlevt leukemi respektive övrig cancer är 6.3 och 9.7 procent. Vi har använt de andelar av studiepopulationen som redovisas i Tabell 3 (Hjern et al.). I jämförelsepopulationen har 2.7 procent sjuk- eller aktivitetsersättning. Det framgår tydligt att de totala kostnaderna för produktionsbortfall kopplat till mortalitet och permanent arbetsoförmåga är högst bland de som insjuknar i de yngre åldrarna. Totalt beräknas kostnaderna för mortalitet och permanent arbetsoförmåga, till följd av barncancer som diagnosticerades år 2015, uppgå till ungefär 3.1 miljarder kronor. Kostnaderna för mortalitet beräknades till ungefär 3.5 miljoner kronor för de yngsta barnen som insjuknade i leukemi. Motsvarande individkostnader för de övriga diagnos- och åldersgrupperna beräknades uppgå till ungefär det dubbla, med en variation mellan cirka 6.6 och 7.8 miljoner kronor. Detta speglar den relativt framgångsrika behandling som barn med leukemi får. Då det gäller permanent arbetsoförmåga är kostnaderna för de barn som insjuknat i CNS väsentligt större än för de andra diagnosgrupperna. Sannolikt speglar detta effekterna av de behandlingar som barn med CNS genomgår.

I beräkningarna av värdet av de produktionsförluster som uppstår till följd av cancer i barndomen har vi antagit en årlig inkomstillväxt på 1.5 procent och en diskonteringsränta om 1.0 procent.

Tabell 10: Kostnader för mortalitet respektive permanent arbetsoförmåga till följd av cancer i barndomen.

Mortalitet			
Diagnos	Ålder vid diagnos		<i>Totalt</i>
	0 – 14	15 – 19	
Leukemi	274 285 526	54 394 006	328 679 532
CNS	501 249 483	118 838 711	620 088 194
Övrig cancer	841 569 523	718 366 977	1 559 936 500
<i>Totalt</i>	<i>1 617 104 532</i>	<i>891 599 695</i>	<i>2 508 704 227</i>
Per patient*			
Leukemi	3 471 969	7 770 572	
CNS	7 371 316	6 602 151	
Övrig cancer	7 013 079	7 330 275	

Sjukbidrag/aktivitetsersättning			
Diagnos	Ålder vid diagnos		<i>Totalt</i>
	0 – 14	15 – 19	
Leukemi	58 002 571	3 377 564	61 380 135
CNS	223 613 537	55 089 066	278 702 602
Övrig cancer	134 329 663	95 276 579	229 606 242
<i>Totalt</i>	<i>415 945 770</i>	<i>153 743 209</i>	<i>569 688 979</i>
Per patient*			
Leukemi	734 210	482 509	
CNS	3 288 434	3 060 504	
Övrig cancer	1 119 414	972 210	

* Alla diagnosticerade 2015

4.6 Kostnader för tillfällig sjuklighet och permanent nedsatt produktivitet

Förluster av marknadsproduktion uppstår inte enbart som en konsekvens av mortalitet och permanent arbetsoförmåga, utan också till följd av permanent bortfall av produktivitet. Permanent nedsatt produktivitet uppstår, exempelvis, som en följd av ofullständig skolgång, dålig anknytning till arbetsmarknaden och reducerad arbetskapacitet. De barn som överlevt en cancersjukdom i barndomen har i genomsnitt lägre marknadsinkomster och löper en högre risk att permanent stå utanför arbetsmarknaden, än individer ur en jämförelsepopulation som inte haft cancer. Permanent bortfall av produktivitet har vi uppskattat genom den arbetslöshet som barncanceröverlevarena uppvisar utöver jämförelsepopulationens, och de lägre observerade marknadsinkomsterna. Risken för att vara arbetslös har hämtats från Boman et al. (2010).

Vad gäller sjukskrivningar har vi ingen direkt information om barncanceröverlevares kortidsfrånvaro från arbete. Det inkomstmått vi använder kan dock sägas reflektera både effekter av sjukfrånvaro samt nedsatt produktivitet. De barn som överlevt leukemi hade en genomsnittlig årlig nettoinkomst om 203 334 kronor. Motsvarande siffror för de som överlevt CNS cancer respektive övrig cancer var 188 394 kronor och 203 683 kronor. Jämförelsepopulationen hade en årlig nettoinkomst om 211 581 kronor (Boman et al., 2010).

Föräldrar till barn som insjuknar i cancer är borta från arbetet med sjuklön i större utsträckning än föräldrar till friska barn (Hjelmstedt et al., 2017). Vi har använt skillnaden mellan antalet av försäkringskassan ersatta sjukdagar mellan dessa två föräldragrupper som ett mått på effekten av

att ha ett barn med cancer på antalet sjukdagar. Hjelmstedt et al. rapporterar både skillnaderna i ersatta dagar mellan en vårdande föräldrapopulation och en kontrollpopulation och skillnaden mellan ersatta dagar mellan en population föräldrar vars barn avlidit och en kontrollpopulation. Inkomstuppgifter har insamlats för samma populationer. Det skall noteras att de beräkningar vi utför endast avser, för varje sjukfall, de dagar som överstiger 14 sjukdagar. Alltså är de uppskattningar vi erhåller av vilka effekter barncancer har på kostnaderna för föräldrars sjukfrånvaro med stor sannolikhet en väsentlig underskattning av de verkliga kostnaderna. Kostnaderna är uppdelade på behandlingstid respektive tiden efter behandling.

Figurerna 3 – 5 illustrerar skillnaden mellan antalet ersatta sjukdagar, över tiden från barnets diagnos och sju år framåt i tiden, för mammor respektive pappor till barn som insjuknat i cancer år 2015 och jämförelsepopulationen. Efter sju år är har föräldrar till barn med cancer och föräldrar ur kontrollpopulationen i stort sett samma mönster för ersatta sjukdagar. Föräldrar till barn som avlidit uppvisar ett delvis annat sjukskrivningsmönster med fler dagar åren efter dödsfallet. Efter tre – fyra år är större delen av skillnaden mellan dessa föräldrars och jämförelsepopulationens sjukskrivningsmönster borta. Figurerna 6 – 8 illustrerar den förväntade skillnaden mellan antalet ersatta dagar mellan föräldrar till barn som avlidit i cancer som diagnosticerats 2015 och jämförelsepopulationen.

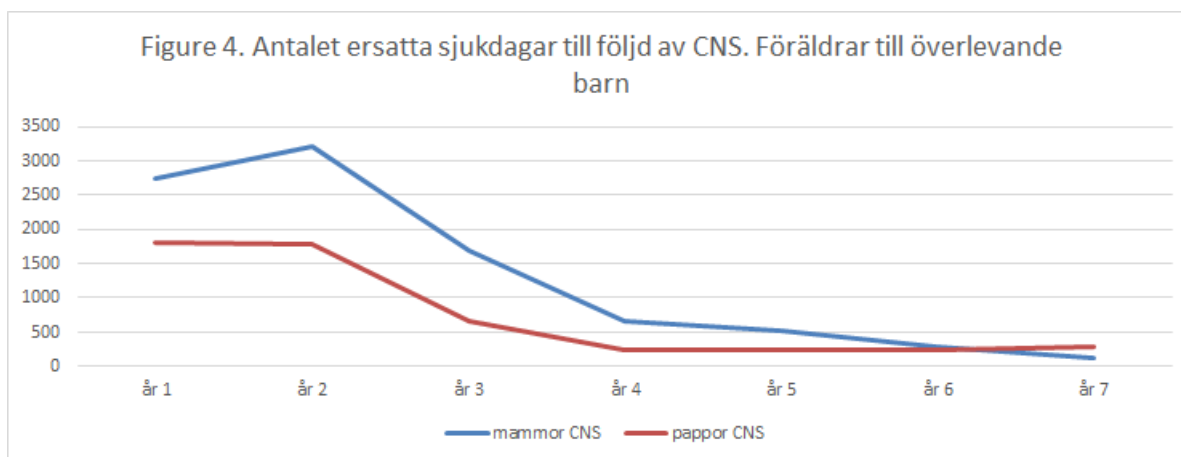
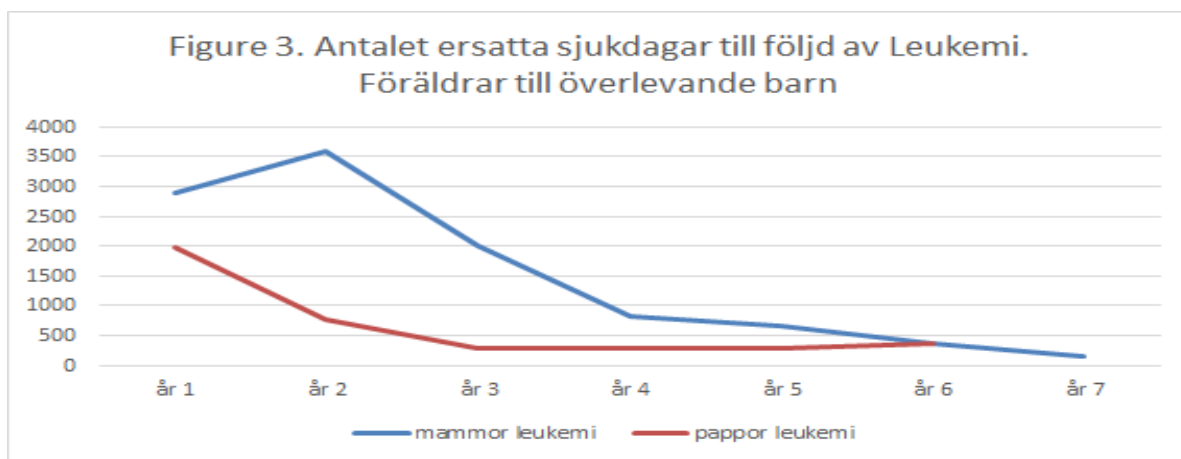


Figure 5. Antalet ersatta sjukdagar till följd av övrig cancer. Föräldrar till övelevande barn

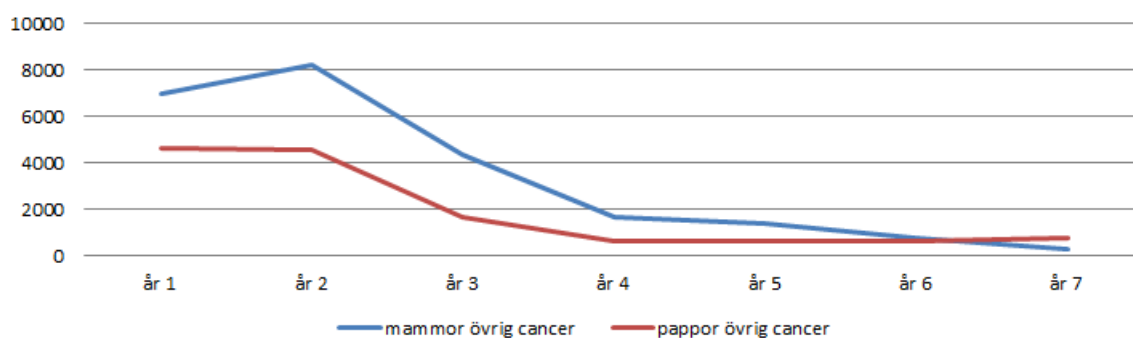


Figure 6. Antalet ersatta sjukdagar till följd av Leukemi. Föräldrar till avlidna barn

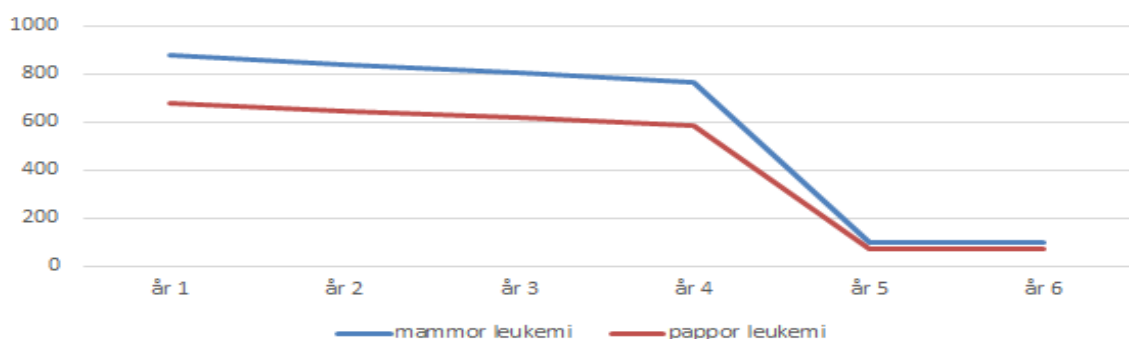
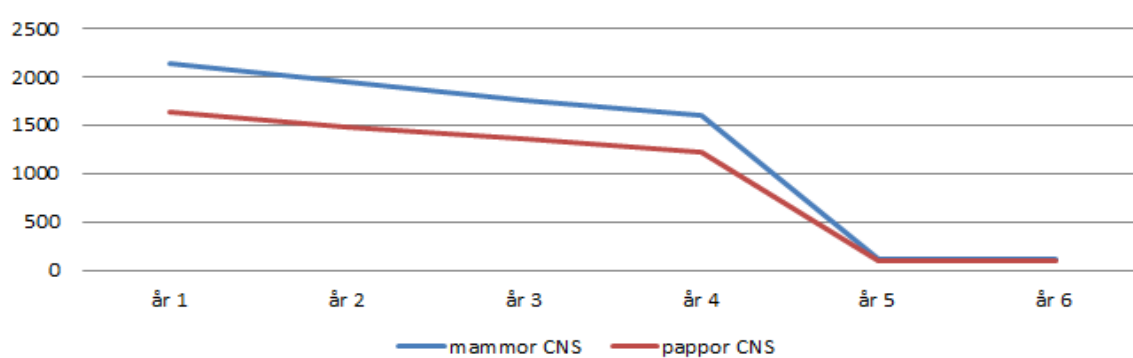
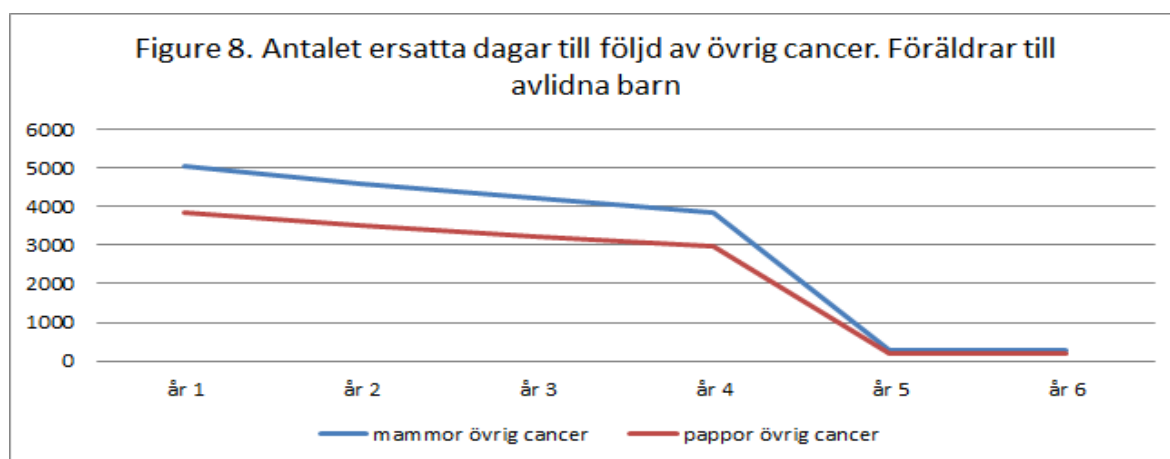


Figure 7. Antal ersatta dagar till följd av CNS. Föräldra till avlidna barn





Totalt kan det förväntas att 578 årsarbetstider förloras till följd av sjukskrivningar bland föräldrar till barn som insjuknat i cancer år 2015. Det totala värdet av den förlorade marknadsproduktionen uppskattades till ungefär 156 miljoner kronor. I Tabell 11 sammanfattas de kostnader för permanent nedsatt produktivitet hos de överlevande barnen och sjukfrånvaro bland föräldrarna som uppstår på grund av den barncancer som diagnosticerades år 2015. Kostnader för föräldrarnas sjukskrivningar redovisas uppdelat på perioderna 0 – 2 år respektive 3 – 7 år efter barnets insjuknande. Syftet med uppdelningen är att särredovisa sjukskrivningskostnader som uppstår under behandlingstiden från de sjukskrivningskostnader som uppstår efter avslutad behandling.

Tabell 11: Totala förväntade kostnader till följd av nedsatt produktivitet respektive sjukfrånvaro.

Ålder vid diagnos					
Diagnos	Barns nedsatta produktivitet				<i>Totalt</i>
	0 - 14	15 - 19			
Leukemi	1 127 774 189	29 458 968			1 157 233 156
CNS	799 279 347	107 400 532			906 679 878
Övrig cancer	1 256 116 833	451 474 511			1 707 591 344
<i>Totalt</i>	<i>3 183 170 369</i>	<i>588 334 010</i>			<i>3 771 504 379</i>
Per patient*					
Leukemi	14 275 623	4 208 424			
CNS	11 253 524	5 445 759			
Övrig cancer	14 301 519	4 004 154			
Föräldrars sjukskrivningar					
	0 – 2 år efter diagnos	3 – 7 år efter diagnos	0 – 2 år efter diagnos	3 – 7 år efter diagnos	
Leukemi	16 296 333	9 680 646	1 916 938	1 123 861	29 017 778
CNS	18 243 204	10 889 590	4 618 959	2 783 408	36 535 161
Övrig cancer	30 793 061	18 422 984	25 784 043	15 354 691	90 354 779
<i>Totalt</i>	<i>65 332 598</i>	<i>38 993 220</i>	<i>32 319 940</i>	<i>19 261 960</i>	<i>155 907 718</i>
Per patient*					
Leukemi	206 283	122 540	273 848	160 552	
CNS	268 282	160 141	256 609	154 634	
Övrig cancer	256 609	153 525	263 102	156 681	

* Alla diagnosticerade 2015

Den permanent nedsatta arbetsmarknadsproduktiviteten hos barncanceröverlevare innebär att en produktion till ett förväntat värde om cirka 3.8 miljarder kronor förloras till följd av barncancer som diagnosticerades år 2015. Värdet av den marknadsproduktion som förloras på grund av föräldrars sjukskrivning till följd av insjuknandet år 2015 beräknades uppgå till totalt cirka 156 miljoner kronor.

4.7 Totala indirekta kostnader

De totala förväntade indirekta kostnaderna till följd av barncancer som diagnosticerades år 2015 beräknades uppgå till cirka 7.0 miljard kronor. Detta innefattar förtidig död och permanent arbetsoförmåga respektive nedsatt produktivitet bland de överlevande barnen, och sjukfrånvaro bland föräldrarna till de drabbade barnen. Av dessa kostnader är det enbart de som är förknippade med mortalitet (2.5 miljarder kronor) som i princip inte går att påverka med förbättrad rehabilitering och psykosociala insatser.

4.8 Utbildning

Boman et al. (2009) redovisar effekter av att ha haft cancer i barndomen på uppnådd utbildning senare i livet. För cancertyperna leukemi och övrig cancer är skillnaderna gentemot jämförelsepopulationen relativt små. De som överlevt leukemi har något lägre sannolikhet medan de som överlevt övriga cancertyper har en något högre sannolikhet att ha avslutat en högre utbildning. De som överlevt CNS tumörer uppvisar emellertid en betydande lägre sannolikhet att ha avslutat en högre utbildning (relative risk: 0.69). Då det gäller avslutad obligatorisk grundskola är mönstret det omvända. Samtliga cancergrupper uppvisar en högre sannolikhet att ha en avslutad grundskola. De ekonomiska och livskvalitetsmässiga konsekvenserna av dessa effekter är inte direkt inkorporerade i våra beräkningar. I viss utsträckning fångas utbildningseffekterna av de inkomster som barncanceröverlevarna har jämfört med de som inte haft cancer i barndomen.

5 DIREKTA KOSTNADER

De direkta kostnaderna till följd av sjukdom utgörs av värdet av de varor och tjänster som skulle kunna ha producerats om inte en del av produktionsutrymmet tagits i anspråk av produktionen av hälso- och sjukvård. I detta avsnitt redovisas de direkta kostnaderna till följd av behandling av barncancer. Vi redovisar sluten- respektive öppenvårdsutnyttjandet som barncancer som diagnosticerats år 2015 medfört. Det skall noteras att priserna för sluten och öppenvårdsfall inte inkluderar den läkemedelskonsumtion som hämtats ut av patienten eller patientens föräldrar på apotek. All information har hämtats ut Sveriges Kommuner och Landstings KPP (kostnad per patient) databas.

5.1 Slutenvård

I tabell 12 redovisas slutenvårdskonsumtionen till följd av behandling av barncancer. Redovisningen är uppdelad på män och kvinnor samt på åldersgrupperna 0 – 4, 5 – 9, 10 – 14, respektive 15 – 19. I samma tabell redovisas också kostnader per vårdtillfälle och totala kostnader.

Tabell 12: Antalet slutenvårdstillfällen och kostnader för slutenvård till följd av barncancer år 2015.

Diagnos	Ålder vid diagnos				Totalt
	0 – 4	5 – 9	10 – 14	15 - 19	
Leukemi	257	182	91	52	582
CNS	99	72	67	71	309
Övrig cancer	546	302	355	482	1 685
<i>Totalt</i>	<i>902</i>	<i>556</i>	<i>513</i>	<i>605</i>	<i>2 576</i>
Kostnad per vårdtillfälle					
Leukemi	98 629	87 977	158 421	111 413	
CNS	85 353	97 800	94 575	74 862	
Övrig cancer	57 642	43 459	74 691	105 433	
Kostnad					
Leukemi	25 347 653	16 011 814	14 416 311	5 793 476	61 569 254
CNS	8 449 947	7 041 600	6 336 525	5 315 202	27 143 274
Övrig cancer	31 472 532	13 124 618	26 515 305	50 818 706	121 931 161
Total kostnad	<i>65 270 132</i>	<i>36 178 032</i>	<i>47 268 141</i>	<i>61 927 384</i>	<i>210 643 689</i>

Kostnad för ett slutenvårdstillfälle för *övrig cancer* har satts till de kostnader som finns i Sveriges Kommuner och Landstings KPP databas för malign tumör i extremiteterna.

5.2 Öppenvård

I tabell 13 redovisas öppenvårdsutnyttjandet till följd av behandling av barncancer. Redovisningen är uppdelad på män och kvinnor samt på åldersgrupperna 0 – 4, 5 – 9, 10 – 14, respektive 15 – 19. I samma tabell redovisas också kostnader per vårdtillfälle och totala kostnader.

Tabell 13: Antalet öppenvårdstillfällen och kostnader för öppenvård till följd av barncancer år 2015.

Diagnos	Ålder vid diagnos				Totalt
	0 – 4	5 – 9	10 – 14	15 - 19	
Leukemi	1 357	2 303	883	445	4 988
CNS	238	585	482	481	1 786
Övrig cancer	6 148	4 234	5 424	7 751	23 557
<i>Totalt</i>	<i>7 743</i>	<i>7 122</i>	<i>6 789</i>	<i>8 677</i>	<i>30 331</i>
Kostnad per vårdtillfälle					
Leukemi	3 970	3 970	3 970	4 292	
CNS	3 970	3 970	3 970	4 292	
Övrig cancer	3 970	3 970	3 970	4 292	
Kostnad					
Leukemi	5 387 290	9 142 910	3 505 510	1 909 940	19 945 650
CNS	944 860	2 322 450	1 913 540	2 064 452	7 245 302
Övrig cancer	24 407 560	16 808 980	21 533 280	33 267 292	96 017 112
Total kostnad	<i>30 739 710</i>	<i>28 274 340</i>	<i>26 952 330</i>	<i>37 241 684</i>	<i>123 208 064</i>

Kostnad för ett öppenvårdstillfälle redovisas i Sveriges Kommuner och Landstings KPP databas för åldersgrupperna 0 – 14 respektive 15 – 24. Kostnaden för ett öppenvårdstillfälle för åldersgrupperna 0 – 4, 5 – 9 respektive 10 – 14 har därför antagits vara den samma. Kostnaden i

åldersgruppen 15 – 19 har antagits vara den samma som kostnaden i åldersgruppen 15 – 24. I samtliga fall har kostnaden för onkologisk vård använts.

5.3 Totala direkta kostnader

De totala direkta kostnaderna för behandling av barncancer år 2015 beräknades till cirka 334 miljoner kronor. Av dessa behandlingskostnader utgör slutenvård ungefär 63 procent.

5.4 Kostnader för psykosocialt stöd

I en nyligen genomförd kartläggning av det psykosociala stödet som ges till barn med cancer och deras familjer vid de sex barncancercentren i Sverige framkom som generell slutsats att stödet bedöms som otillräckligt (Pirhonen, 2017). I kartläggningen gjordes ingen kvantifiering av det stöd som ges i nuläget. Ingen annan studie har genomförts där det psykosociala stödets omfattning kartläggs. Det är därför inte möjligt att i nuläget beräkna kostnaderna för de resurser som det psykosociala stödet faktiskt ianspråkar, utan tillgång till individuell registerinformation avseende vårdutnyttjande. Detta ligger utanför ramarna för den här studien. Vi genomför istället beräkningar av kostnaderna för psykosocialt stöd för ett antal tänkta scenarier där det psykosociala stödet varieras i omfattning och jämförs med ett utgångsläge som är tänkt att representera den nu rådande situationen. Omfattningen av det psykosociala stödet i utgångsläget har uppskattats utifrån de kvalitativa uppgifter som lämnats i Pirhönens kartläggning.

Vi antar att en familj består av ett cancerdrabbat barn, med ett syskon och två föräldrar. I vårt *huvudalternativ* (utgångsläget) för det psykosociala stödets omfattning antar vi att det cancerdrabbade barnet och övriga familjemedlemmar besöker kurator vid ett tillfälle under första året efter insjuknandet. I *jämförelsealternativet* (utökad psykosocialt stöd) antar vi att (1) de cancerdrabbade barnen besöker läkare, sjuksköterska, kurator respektive psykolog en gång per kvartal under det första året efter det att diagnosen ställts, (2) de cancerdrabbade barnen träffar kurator respektive psykolog en gång per år från år 2 till år 5 efter det att diagnosen ställts, (3) förälder respektive syskonet träffar kurator respektive psykolog en gång per kvartal under det första året efter det att diagnosen ställts, och gång per år därefter fram till 5 år efter det att diagnosen ställts. Vi använder den kostnad per besök hos vardera personalkategori som redovisas i Sveriges Kommuner och Landstings KPP databas (läkarbesök: 4 075 kronor, besök hos sjuksköterska: 3 908 kronor, besök hos kurator: 1 528 kronor, och besök hos psykolog: 3 886 kronor). Detta resulterar i en total kostnad för det psykosociala stödet, under nuvarande klinisk praxis (huvudalternativet), om 4.8 miljoner kronor avseende de barn som insjuknade i cancer år 2015. Motsvarande kostnad i jämförelsealternativet uppgår till 50.1 miljoner kronor. I tabellerna 14 och 15 illustreras omfattningen av det psykosociala stödet i rådande situation respektive i jämförelsealternativet. Stödets totala kostnader i jämförelsealternativet, uppdelat på typ av cancer och åldersgrupper, rapporteras i Tabell 16. Per diagnosticerat barn kostar det psykosociala stödet 12 351 kronor under nuvarande klinisk praxis, medan motsvarande kostnad i jämförelsealternativet uppgår till 129 767 kronor, för femårsperioden.

Tabell 15. Illustration av det psykosociala stödet enligt studiens huvudalternativ.

Tillfällen per år													
	År 1				År 2				År 3 – 5				
	läkare	sjuusköterska	kurator	psykolog	läkare	sjuusköterska	kurator	Psykolog	läkare	sjuusköterska	kurator	psykolog	
Leukemi													
barnet	4	4	4	4	0	0	1	1	0	0	1	1	
syskonet	0	0	4	4	0	0	1	1	0	0	1	1	
föräldrarna	0	0	4	4	0	0	1	1	0	0	1	1	
CNS													
barnet	4	4	4	4	0	0	1	1	0	0	1	1	
syskonet	0	0	4	4	0	0	1	1	0	0	1	1	
föräldrarna	0	0	4	4	0	0	1	1	0	0	1	1	
Övrig cancer													
barnet	4	4	4	4	0	0	1	1	0	0	1	1	
syskonet	0	0	4	4	0	0	1	1	0	0	1	1	
föräldrarna	0	0	4	4	0	0	1	1	0	0	1	1	

Tabell 16. Totala kostnader för det psykosociala stödet enligt studiens jämförelsealternativ.

Tabell 16: Totala kostnader för det psykosociala stödet enligt studiens jämförelsealternativ:					
kostnader	Ålder				Totalt
	0 - 4	5 - 9	10 - 14	15 - 19	
Diagnos					
Leukemi					
barnet	1 881 298	1 006 276	568 764	306 258	3 762 596
syskonet	1 849 379	989 203	559 115	301 062	3 698 758
föräldrarna	1 849 379	989 203	559 115	301 062	3 698 758
CNS					
barnet	1 531 289	568 764	875 022	787 520	3 762 596
syskonet	1 505 309	559 115	860 176	774 159	3 698 758
föräldrarna	1 505 309	559 115	860 176	774 159	3 698 758
Övrig cancer					
barnet	2 318 809	875 022	2 056 302	4 287 609	9 537 742
syskonet	2 279 467	860 176	2 021 414	4 214 864	9 375 922
föräldrarna	2 279 467	860 176	2 021 414	4 214 864	9 375 922
Totalt	16 999 706	7 267 050	10 381 500	15 961 556	50 609 810

6 RESULTAT

I den här studien har vi beräknat värdet av produktionsbortfall och sjukvårdskostnader orsakade av barncancer som diagnosticerades under år 2015. Beräkningarna av produktionsbortfall inkluderade förtidig död och permanent nedsatt produktivitet hos barncanceröverlevare, och sjukskrivningar hos barnens föräldrar. Totalt beräknades dessa indirekta kostnader uppgå till 7.0 miljarder kronor. Därav är 65 procent kostnader som i mer eller mindre stor utsträckning skulle kunna undvikas med en förbättrad rehabilitering och psykosocialt omhändertagande. De direkt kostnaderna – behandlingskostnader – som barncancer som diagnosticerades år 2015 orsakade beräknades till 334 miljoner kronor. Kostnaden för det psykosociala stöd som antogs i jämförelsealternativet ovan är alltså väsentligen mindre än de minskade produktivetsförluster som en förbättrad arbetsmarknadsproduktivitet hos överlevare och färre sjukskrivningar hos föräldrarna skulle kunna bidra till.

I nästa avsnitt genomför vi beräkningar av det psykosociala stödets kostnadseffektivitet, under försiktiga antaganden om de effekter som stödet har.

6.1 Kostnadseffektivitet

Studiens huvudsyfte var att beräkna en gräns för psykosociala stödinsatserns effekt. Vi konstaterade att produktionsbortfall till ett ungefärlig värde av 4.5 miljarder kronor utgör ett tak för effekten av psykosociala insatser gällande de drabbade barnens arbetsmarknadsproduktivitet och föräldrarnas sjukskrivningar. Ett tankeexperiment kan illustrera potentialen hos ett förbättrat psykosocialt stöd. Antag att föräldrarna till de barn som insjuknar i cancer reduceras sin bortavaro från arbetet med 30 procent med hjälp av, eller till följd av, det psykosociala stöd som skissades ovan. Detta skulle reducera kostnaderna för dessa föräldrars sjukskrivningar med ungefär lika stort belopp som den psykosociala insatsen kostar. Det psykosociala stödet skulle alltså i detta fall vara självfinansierande, även om inga andra effekter skulle uppnås.

Då det gäller livskvalitet är beräkningarna mer beroende av de antaganden vi gjort. Enligt de tre huvudalternativen förloras 12 438, 15 126 respektive 16 577 kvalitetsjusterade levnadsår (QALYs)

enligt alternativen svag, måttlig och stark påverkan på livskvaliteten. Vi genomförde kostnadseffektivitetsberäkningar under antagandena att livskvaliteten för de drabbade barnen och deras familjer förbättras från måttligt till svag påverkan och från stark till måttlig påverkan genom att använda psykosocialt stöd enligt jämförelsealternativet istället för enligt rådande praxis. Beräkningarna utfördes för tre olika antaganden om effekterna av det psykosociala stödets effekt på föräldrarnas sjukskrivningar tiden två år efter barnets diagnos: att sjukskrivningarna inte påverkas, att de minskar med 5 procent, respektive att minskningen är 25 procent. Kostnaderna för ett ytterligare kvalitetsjusterat levnadsår varierade mellan ungefär 12 000 kronor och 36 000 kronor (12 000 respektive 36 000 kronor för en ytterligare QALY). Dessa kostnader per kvalitetsjusterat levnadsår är i samtliga fall betydligt lägre än den informella gräns för när en åtgärd skall betraktas som kostnadseffektiv. Beräkningsresultaten för de olika alternativen och för de olika diagnosgrupperna visas i Tabell 17.

Tabell 17. Kostnadseffektivitetskvoter för de olika beräkningsalternativen.

Sjukskrivningar minskar 0 % (två år efter diagnos)	Förändring i livskvalitet	
	Måttlig till Svag	Stark till Måttlig
Leukemi	16 309	31 590
CNS	19 962	36 624
Övrig Cancer	19 590	35 677
Sjukskrivningar minskar 10 % (två år efter diagnos)		
Leukemi	15 520	30 061
CNS	18 995	34 851
Övrig Cancer	18 421	33 548
Sjukskrivningar minskar 15 % (två år efter diagnos)		
Leukemi	12 362	23 944
CNS	15 130	27 760
Övrig Cancer	13 742	25 028

Beräkningarna inkluderade inga antagna effekter av psykosocialt stöd enligt jämförelsealternativet (jämfört med rådande praxis) på föräldrarnas sjukskrivningar under barnets behandlingstid, på barnens framtida arbetsmarknadsbeteende eller arbetsoförmåga. Detta innebär att vid en relativt liten förbättring av barncanceröverlevarnas marknadsproduktivitet och/eller minskning av risken för permanenta arbetsoförmåga kommer det psykosociala stödet (enligt jämförelsealternativet) att vara kostnadsbesparande. Dessutom är det psykosociala stödets omfattning enligt jämförelsealternativet sannolikt väsentligt större än vad som skulle krävas för att uppnå de effekter som vi har diskuterat, vilket innebär att de kostnadseffektivitetskvoter som beräknats sannolikt utgör en övre gräns för kostnaden per kvalitetsjusterat levnadsår. I en randomiserad studie undersökte Kazak et al. (2004) effekterna av en psykosocial intervention (Surviving Cancer Competently Intervention Program) på tonåriga överlevares och deras föräldrars posttraumatiska stresssymptom. Studiens resultat tyder på att posttraumatiska stresssymptom kan reduceras med psykosocialt stöd. Den intervention som studerades motsvarar resursmässigt det första årets stöd i vårt jämförelsealternativ.

Den enskilt största indirekta kostnaden som cancer hos barn medför är förknippad med är den framtida marknadsproduktiviteten. Inkomsterna (som kan ses som ett mått på produktivitet) är lägre och arbetslösheten högre bland barncanceröverlevare än hos den del av befolkningen som inte haft någon cancersjukdom i barndomen. Eftersom värdet av inkomstskillnaderna mellan överlevare och den övriga populationen taget över hela arbetslivet är betydande skulle

psykosociala stödinsatser som ger endast en liten förbättring av barncanceröverlevarens produktivitet ge stora utslag för den beräknade kostnadseffektiviteten för dessa insatser. De ovanstående kostnadseffektivitetsberäkningarna inkluderade inte heller effekter på föräldrarnas sjukskrivningar under barnets behandlingstid. Den beräknade kostnadseffektiviteten hos psykosociala stödinsatser skulle alltså ytterligare förbättras om också sjukskrivningar under behandlingstiden inkluderades. Det är också viktigt att notera, som tidigare påpekats, att de sjukskrivningar som tagits med i våra beräkningar endast är de av försäkringskassan ersatta sjukdagar. Detta innebär att inga sjukskrivningstillfällen som varat kortare tid än två veckor finns med i beräkningarna. Sannolikt är kostnaderna för korta sjukskrivningar som kan relateras till barncancer betydande. Ytterligare förbättring av den beräknade kostnadseffektiviteten hos psykosociala stödinsatser uppnås alltså i den utsträckning dessa sjukskrivningar minskar som ett resultat av stödinsatserna.

I en nyligen publicerad studie rapporterar Willems et al.(2017) kliniskt signifikanta effekter av webbaserad psykosocialt stödjande intervention (Cancer aftercare guide). Författarna argumenterar för att interventionens låga kostnad gör den lämplig som ett redskap för att identifiera och utvärdera individuella stödbehov.

7 DISKUSSION

Då ett barn drabbas av cancer påverkas barnets och den omgivande familjens livssituation negativt. Detta visar sig bland annat genom att barncanceröverlevarens framtida arbetsmarknadssituation påverkas och genom att föräldrarna är sjukskrivna i en väsentligt större omfattning än andra föräldrar. Studier visar att de som överlever en cancersjukdom i barndomen har sjuk- eller aktivitetsersättning (tidigare förtidspension) i större utsträckning än de som inte haft en cancer sjukdom i barndomen, har lägre genomsnittliga inkomster än de som inte har haft cancer i barndomen, och att föräldrarna till barn som insjuknat i cancer är sjukskrivna mångdubbelt mer än andra föräldrar under flera år efter barnets diagnos (Hjelmstedt et al., 2017). Dessa arbetsmarknadsrelaterade effekter medför samhällsekonomiska kostnader som uppgår till ungefär 4.5 miljarder kronor för de barn som insjuknar i cancer under *ett* år. De kostnader som uppkommer på grund av överlevarens permanenta sjuklighet, lägre arbetsmarknadsproduktivitet och föräldrarnas sjukskrivningar skulle potentiellt delvis kunna undvikas genom åtgärder som stödjer barnens utveckling och underlättar föräldrarnas situation under och efter behandling. Visst stöd finns i den vetenskapliga litteraturen för att föräldrars livssituation kan påverkas positivt genom stödjande interventioner (Cernvall et al., 2015; Lindström et al., 2016). Vi har tidigare nämnt att stödfunktioner och uppföljande hälso- och sjukvård uppfattas som otillräckliga av överlevarena och deras föräldrar (Hovén et al., 2017, 2015). I en studie bland svenska föräldrar till barn som insjuknat i cancer framgår att dessa föräldrar i stor utsträckning upplever det psykosociala stödet som otillräckligt (Pöder et al., 2008).

7.1 Forskningsläget

I arbetet med den här studien har vi summerat kunskapsläget avseende långtidseffekterna av cancer i barndomen och effekterna av olika typer av rehabiliteringsinsatser. Även om de senaste årens forskning genererat mycket ny kunskap kvarstår väsentliga kunskapsluckor. Främst gäller detta kunskap om psykosociala interventioners effekter på barncanceröverlevares och deras familjers livsvillkor. Mer precist gäller det den exakta kopplingen mellan, å ena sidan en interventions utformning och omfattning, och barncanceröverlevares livskvalitet, skolgång, och arbetsmarknadsuppförande och föräldrars livskvalitet och arbetsmarknadsuppförande, å den andra sidan. Randomiserade kontrollerade studier saknas nästan helt (Kazak et al., 2004, är ett undantag). Detta innebär att man egentligen inte kan kvantifiera effekter på livskvalitet och sjukskrivningar av ett visst psykosocialt stöd med vanlig vetenskaplig säkerhet.

Vi kan dock konstatera att effekterna av psykosocialt stöd riktat till barncanceröverlevare och deras familjer är ett mycket aktivt och växande forskningsområde. I nuläget publicerade resultat tyder på att sådana insatser är effektiva då det gäller att utrusta och stödja överlevarna i deras uppväxt och som vuxna individer (Font-Gonzales et al., 2016; Mucci och Torno, 2015; Overholser et al., 2015; Castellino et al., 2014; Enskär och Berterö, 2010; Bonneau et al., 2011; Kazak et al., 2004). Dock existerar ingen evidens som kvantifierar relationen mellan utformningen av psykosocialt stöd, till barncanceröverlevare och deras anhöriga, och de effekter som uppnås för de cancerdrabbade barnen och deras familjer.

Den publicerade vetenskapliga litteraturen visar att de som överlevt CNS tumörer har en sämre total livssituation än de som överlevt andra cancertyper. De som överlevt CNS tumörer är i större utsträckning än andra barncanceröverlevare arbetslösa eller permanent arbetsoförmögna, och har en genomsnittligt lägre utbildningsnivå (se, exempelvis, Dumas, 2106). Dessutom har den här gruppen lägre genomsnittlig inkomst än andra barncanceröverlevare. Denna sämre livssituation för CNS-canceröverlevarna betyder att behovet av stödinsatser bland dessa personer är större än bland de andra överlevarna. Möjligen innebär det också att psykosociala stödinsatser är mer effektiva när de riktas till CNS överlevarna. Huruvida detta är fallet är en viktig framtida forskningsfråga.

De interventioner som är potentiellt effektiva begränsar sig dock inte till psykosociala stödinsatser. Mer direkt funktionellt inriktade interventioner har också visat sig vara en möjlig väg att stödja barncanceröverlevarna (Castellino et al., 2014). Castellino et al. går bland annat igenom evidensen avseende interventioner som riktar sig mot kognitiv dysfunktion. Särskilt finner man belägg för att barn som överlevt CNS cancer och som lider av kognitiva funktionsnedsättningar kan förbättra den kognitiva funktionen med hjälp av den här typen av insatser. Det visas också att vissa farmakologiska behandlingar förbättrar den kognitiva funktionen bland dessa överlevare.

Systematiska kunskapssammanställningar har genomförts gällande effekterna av nutrition respektive fysisk aktivitet för barncanceröverlevares hälsotillstånd (Cohen et al., 2016; Braam et al., 2016). I båda fallen konstateras det att kunskapsläget är oklart, och att vidare forskning är nödvändig.

Avslutningsvis kan man konstatera att även om kunskapsläget avseende effekterna av stödjande interventioner riktade till barncanceröverlevare och deras familjer har väsentliga kunskapsluckor så finns det övertygande belägg för att vissa typer av stödåtgärder har stor potential att förbättra överlevarnas livssituation. I den internationella vetenskapliga litteraturen argumenteras det för ett mer systematiskt tillvägagångssätt vad gäller långtidsuppföljning av barncanceröverlevarnas livssituation, vilket skall inkludera tidig identifiering av riskgrupper (exempelvis risken att inte klara skolgång och den framtida arbetsmarknadssituationen) och riktade insatser mot dessa (King et al., 2017; Mulder et al., 2016; Skinner, 2012; Gurney et al., 2009; Skinner et al., 2006). I den här studien har vi visat att de potentiella vinsterna med effektiva psykosociala stödinsatser är betydande och att sådana åtgärder sannolikt är kostnadseffektiva.

7.1.1 Framtida studier utifrån svensk registerinformation

Svenska registerdata erbjuder stora möjligheter att ytterligare förbättra kunskapsläget avseende barncanceröverlevarnas livssituation. Registerinformation kan också utnyttjas dels för att förbättra kunskapen om vilka stödinsatser som barncanceröverlevare faktiskt får och har fått, dels för att relatera stödinsatsernas omfattning till utfall senare i livet. Sammanlänkning av de olika totalbefolkningsregister som handhas av Socialstyrelsen och Statistiska Centralbyrån ger fyllig

longitudinell information om hälsa, hälso- och sjukvårdsutnyttjande, utbildningsaktiviteter, arbetsmarknadsuppförande och familjebildning. Sammantaget erbjuder dessa informationskällor en till stor del outnyttjad källa till kunskapsförbättringar inom barncancerområdet.

Följande specifika frågeställningar är otillräckligt undersökta i den vetenskapliga litteraturen, och är alltså potentiellt mycket fruktsamma områden för framtida studier:

- Omfattning och utformning av de stödåtgärder som barncancerdrabbade faktiskt erhåller,
- Effekterna av cancer i barndomen på utbildnings- och yrkesval,
- Permanent sjuklighet. Sjuk- eller aktivitetsersättning beviljas utifrån hälsogrunder. Kunskapen om dessa för barncanceröverlevare är otillräcklig,
- Sjukskrivningar som inte omfattas av försäkringskassans ersättning,
- Effekterna av cancer i barndomen på framtida hälsorelaterat beteende (rökning, motion, matvanor etc),
- Betydelsen av etnicitet för ovanstående frågeställningar.

8 REFERENSER

- Alessi D, Dama E, Barr R, Mosso M, Maule M, Magnani C, Pastore G, Merletti F. Health-related quality of life of long-term childhood cancer survivors: A population-based study from the Childhood Cancer Registry of Piedmont, Italy. *European Journal of Cancer*, 2007;43:2545-2552.
- Armstrong GT, Chen Y, Yasui Y, et al. Reduction in Late Mortality among 5-Year Survivors of Childhood Cancer. *N Engl J Med*, 2016;374:833-42.
- Barakat L, Li Y, Hobbie W, Ogle S, Hardie T, Volpe E, Szabo M, Reilly M, Deatrick J. Health-related quality of life of adolescent and young adult survivors of childhood brain tumors. *Psycho-Oncology*, 2015;24:804–811.
- Barr R, Feeny D, Furlong W. Economic evaluation of treatments for cancer in childhood. *European Journal of Cancer*, 2004;40:1335–1344
- Blaauwbroek R, Stant A, Groenier K, Kamps W, Meyboom B, Postma A. Health-related quality of life and adverse late effects in adult (very) long-term childhood cancer survivors. *European Journal of Cancer*, 2007;43:122-130.
- Bolin K, Lindgren B. Rökning – produktionsbortfall och sjukvårdskostnader. Stockholm: Statens Folkhälsoinstitut, 2004.
- Bolin, K., Lindgren, B. Smoking, Healthcare cost, and loss of productivity in Sweden 2001. *Scandinavian Journal of Public Health*, 2007;35:187-196.
- Boman KK, Lindblad F, Hjern A. Long-term outcomes of childhood cancer survivors in Sweden. *Cancer*, 2010;116:1385–91.
- Bonneau J, Lebreton J, Taque S, Chappe C, Bayart S, Edan C, Gandemer V. School Performance of Childhood Cancer Survivors: Mind the Teenagers! *Journal of Pediatrics*, 2011;158:135-41.
- Braam KI, van der Torre P, Takken T, Veening MA, van Dulmen-den Broeder E, Kaspers GJL. Physical exercise training interventions for children and young adults during and after treatment for childhood cancer. Cochrane Database of Systematic Reviews 2016, Issue 3. Art. No.: CD008796. DOI: 10.1002/14651858.CD008796.pub3.
- Cantrell M. A Narrative Review Summarizing the State of the Evidence on the Health-Related Quality of Life Among Childhood Cancer Survivors. *Journal of Pediatric Oncology Nursing*, 2011;28:75–82
- Castellino SM, Ullrich NJ, Whelen MJ, Lange BJ. Developing Interventions for Cancer-Related Cognitive Dysfunction in Childhood Cancer Survivors. *Journal of the National Cancer Institute*, 2014; 106(8). DOI:10.1093/jnci/dju186.
- Cernvall M, Carlbring P, Ljungman L, Ljungman G, von Essen L. Internet-based guided self-help for parents of children on cancer treatment: a randomized controlled trial. *Psycho-Oncology*, 2015;24: 1152–1158.

Cohen JE, Wakefield CE, Cohn RJ. Nutritional interventions for survivors of childhood cancer. Cochrane Database of Systematic Reviews 2016, Issue 8. Art. No.: CD009678. DOI: 10.1002/14651858.CD009678.pub2.

Drummond MF, Sculpher MJ, Torrance GW, O'Brien B, Stoddart GL. *Methods for the Economic Evaluation of Health Care Programmes*. 3rd Edition. Oxford Medical Publications. Oxford: Oxford University Press, 2005.

Dumas A, Berger C, Auquier P, Michel G, Fresneau B, Allodji RS, Haddy N, Rubino C, Vassal G, Valteau-Couanet D, Thouvenin-Doulet S, Casagrande L, Pacquement H, El-Fayech C, Oberlin O, Guibout C, de Vathaire F. Educational and occupational outcomes of childhood cancer survivors 30 years after diagnosis: a French cohort study. *British Journal of Cancer*, 2016;114:1060 – 1068.

Enskär K, Berterö C. Young Adult Survivors of Childhood Cancer; Experiences Affecting Self-image, Relationships, and Present Life. *Cancer Nursing*, 2010;33:E18-E24.

Font-Gonzalez A, Feijen E, Sieswerda E, van Dulmen-den Broeder E, Grootenhuis M, Maurice-Stam H, Caron H, Essink-Bot ML, van der Pal H, Geskus R, Kremer L. Social outcomes in adult survivors of childhood cancer compared to the general population: linkage of a cohort with population registers. *Psycho-Oncology*, 2016;25: 933–941.

French A, Tsangaris E, Barrera M, Guger S, Brown R, Urbach S, Stephens D, Nathan P. School Attendance in Childhood Cancer Survivors and Their Siblings. *The Journal of Pediatrics*, 2013;162:160-5.

Frobisher, C, Lancashire E, Jenkinson H, Winter D, Kelly J, Reulen R, Hawkins M. Employment status and occupational level of adult survivors of childhood cancer in Great Britain: The British Childhood Cancer Survivor Study. *International Journal of Cancer*, 2017;140, 2678–2692.

Gatta G, Capocaccia R, De Angelis R, Stiller C, Coebergh JW; EURO CARE Working Group. Cancer survival in European adolescents and young adults. *Eur J Cancer*, 2003;39(18):2600 - 2610

Gatta G, Zigon G, Capocaccia R, Coebergh JW, Desandes E, Kaatsch P, et al. Survival of European children and young adults with cancer diagnosed 1995 – 2002. *Eur J Cancer*. 2009;45(6): 992-1005.

Grant J, Cranston A, Horsman J, Furlong W, Barr N, Findlay S, Barr R. Health status and health-related quality of life in adolescent survivors of cancer in childhood. *Journal of Adolescent Health*, 2006;38:504-510.

Gurney J, Krull K, Kadan-Lottick N, Nicholson H, Nathan P, Zebrack B, Tersak J, Ness K. Social Outcomes in the Childhood Cancer Survivor Study Cohort. *Journal of Clinical Oncology*, 2009;27:2390-2395

Hjelmstedt S, Lindahl Norberg A, Montgomery S, Hed Myrberg I, Hovén E. Sick leave among parents of children with cancer – a national cohort study. *Acta Oncologica*, 2017;56:692-697, DOI: 10.1080/0284186X.2016.1275780.

Hjern A, Lindblad F, Boman K. Disability in adult survivors of childhood cancer: a Swedish national cohort study. *J Clin Oncol*, 2007;25:5262–5266.

Hodgson, TA The state of the art of cost-of-illness estimates. I Scheffler RM, Rossiter LF (red) Advances in health economics and health services research. Volume 4. Greenwich, Connecticut: JAI press, 1983.

Hovén E, Lannering B, Gustafsson G, Boman K. Information needs of survivors and families after childhood CNS tumor treatment: a population-based study. *ACTA ONCOLOGICA*, 2017. <https://doi.org/10.1080/0284186X.2017.1406136>

Hovén E, Lannering B, Gustafsson G, Boman K. The Met and Unmet Health Care Needs of Adult Survivors of Childhood Central Nervous System Tumors – A Double-Informant, Population-Based Study. *Cancer*, 2015: 4294 – 4303.

Hovén E, Lannering B, Gustafsson G, Boman K. Persistent impact of illness on families of adult survivors of childhood central nervous system tumors: a population-based cohort study. *Psycho-Oncology*, 2013;22:160–167.

Jacobson L, Lindgren B. Vad kostar sjukdomarna? Sjukvårdskostnader och produktionsbortfall fördelat på sjukdomsgrupper 1980 och 1991. Stockholm: Socialstyrelsen, 1996.

Kazak AE. Evidence-Based Interventions for Survivors of Childhood Cancer and Their Families. *Journal of Pediatric Psychology*, 2005;30:29-39.

Kazak AE, Alderfer MA, Streisand R, Simms S, Rourke MT, Barakat LP, Gallagher P, Cnaan A. Treatment of Posttraumatic Stress Symptoms in Adolescent Survivors of Childhood Cancer and Their Families: A Randomized Clinical Trial. *Journal of Family Psychology*, 2004;18:493–504.

King A, Seidel K, Di C, Leisenring W, Perkins S, Krull K, Sklar C, Green D, Armstrong G, Zeltzer L, Wells E, Stovall M, Ullrich N, Oeffinger K, Robison L, Packer R. Long-term neurologic health and psychosocial function of adult survivors of childhood medulloblastoma/PNET: a report from the Childhood Cancer Survivor Study. *Neuro-Oncology*, 2017;19:689-698.

Langeveld NE, Grootenhuis MA, Voute P, De Haan R, Van den Bos C. Quality of life, self-esteem and worries in young adult survivors of childhood cancer. *Psycho-oncology*, 2004;13:867-881, 2004

Langeveld NE, Ubbink MC, Last BF, Grootenhuis MA, Voûte PA, De Haan RJ. Educational achievement, employment and living situation in long-term young adult survivors of childhood cancer in the Netherlands. *Psycho-Oncology* 2003;12:213-225.

Lindgren B. Costs of illness in Sweden 1964-1975. Doktorsavhandling. Lund. Economic Studies 24. Lunds Universitet, Nationalekonomiska institutionen, 1981.

Lindström C, Aman J, Anderz A, Carlsson R, Lindahl Norberg A. Group intervention for burnout in parents of chronically ill children – a small-scale study. *Scandinavian Journal of Caring Sciences*, 2016;30:678–686.

Maunsell E, Pogany L, Barrera M, Shaw AK, Speechley KN. Quality of life among long-term adolescent and adult survivors of childhood cancer. *Journal of Clinical Oncology*, 2006;24:2527 – 35.

McDougall, J, Tsonis, M. Quality of life in survivors of childhood cancer: a systematic review of the literature. *Support Care Cancer*. 2009;17(10):1231-1246.

Mewes C. Rehabilitation for cancer survivors – cost-effectiveness and budget impact. PhD dissertation, University of Twente, Enschede, the Netherlands, 2016.

Mucci, Grace A., Torno, Lilibeth R. (Eds.) Handbook of Long Term Care of The Childhood Cancer Survivor.. Springer, 2015.

Mulder RL, van der Pal HJH, Levitt GA, Skinner R, Kremer LCM, Brown MC, Bárdi E, Windsor R, Michel G, Frey E. Transition guidelines: An important step in the future care for childhood cancer survivors. A comprehensive definition as groundwork. *European Journal of Cancer*, 2016;54:64 – 68.

Overholser LS, Moss KM, Kilbourn K, Risendal B, Jones AF, Greffe BS, Garrington T, Leonardi-Warren K, Yamashita TE, Kutner JS. Development of a Primary Care-Based Clinic to Support Adults With a History of Childhood Cancer: The Tactic Clinic. *Journal of Pediatric Nursing*, 2015;30:724–731.

Pirhonen L. Kartläggning av det psykosociala stödet för barn med cancer och deras familjer vid de sex barncancercentren i Sverige. Rapport, Barncancerfonden, 2017.

Pöder U, von Essen L. Perceptions of support among Swedish parents of children on cancer treatment: a prospective, longitudinal Study. *European Journal of Cancer Care*, 2009;18: 350–357.

Rice, DP. Estimating the cost of illness. Health economics series No. 6, Public health Service. Washington DC: US Government Printing Office, 1966.

SCB. Livslängdstabeller, olika år.

Skinner R, Hamish W, Wallace B, Levitt G. Long-term follow-up of people who have survived cancer during childhood. *Lancet Oncology*, 2006;7: 489–98

Skinner R. Long-term effects of cancer therapy in children – functional effects, late mortality and long-term follow-up. *Pediatrics and Child Health*, 2012;22:248-252

Vinkel Koch S. *Psychosocial late effects of childhood and adolescent cancer*. Section of Paediatric Haematology and Oncology, Copenhagen University Hospital, Department of Psychosocial Cancer Research Institute of Cancer Epidemiology, Danish Cancer Society. 2004. PhD thesis.

Wengenroth L, Gianinazzi M, Rueegg C, Luer S, Bergstraesser E, Kuehni C, Michel G. Health-related quality of life in young survivors of childhood Cancer. *Quality of Life Research*, 2015;24:2151–2161.

Willard W, Klosky JL, Li C, Srivastava DK, Brinkman TM, Robison LL, Hudson MM, Phipps S. The Impact of Childhood Cancer: Perceptions of Adult Survivors. *Cancer*, 2017;123:1625-34.

Willems R, Bolman C, Mesters I, Kanera I, Beaulen A, Lechner L. Short-term effectiveness of a web-based tailored intervention for cancer survivors on quality of life, anxiety, depression, and fatigue: randomized controlled trial. *Psycho-Oncology*, 2017;26:222–230.

Zeltzer L, Lu Q, Leisenring W, Tsao J, Recklitis C, Armstrong G, Mertens A, Robison L, Ness K. Psychosocial Outcomes and Health-Related Quality of Life in Adult Childhood Cancer Survivors: A Report from the Childhood Cancer Survivor Study. *Cancer Epidemiol Biomarkers Prev*, 2008;17: 435-446.