

Levealdersutvikling for personer
med Downs syndrom i Norge
fra 1969 og frem til 2050

Frode Kibsgaard Larsen

Master of Public Health

MPH 2014:7



norden

Nordic School of Public Health
NHV

Levealdersutvikling for personer med Downs syndrom i Norge fra 1969 og frem til 2050

© Nordic School of Public Health NHV

ISSN 1104-5701

ISBN 978-91-86739-72-0



Master of Public Health

– Examensarbete –

Examensarbetets titel och undertitel				
Levealdersutvikling for personer med Downs syndrom i Norge fra 1969 og frem til 2050				
Författare				
Frode Kibsgaard Larsen				
Författarens befattning och adress				
Spesialrådgiver / vernepleier, Nasjonal kompetansetjeneste for aldring og helse, Sykehuset i Vestfold HF, Postboks 2136, 3103 Tønsberg				
Datum då examensarbetet godkändes 12.09.2014			Handledare NHV/Extern Max Petzold, professor	
Antal sidor 57	Språk – examensarbete Norsk	Språk – sammanfattning Norsk/engelsk	ISSN-nummer 1104-5701	ISBN-nummer 978-91-86739-72-0

Sammanfattning

Bakgrunn: Levealderen for personer med Downs syndrom har økt dramatisk på 1900 tallet i hele den vestlige verden. Imidlertid er det få undersøkelser om levealder for denne populasjonen på 2000-tallet, og vi har ikke funnet noen norske undersøkelser.

Hensikt: Undersøkelsen skal gi innsikt i levealdersutvikling i Norge fra 1969 og frem til 2010 og fremtidig forekomst av voksne og eldre med Downs syndrom frem til 2050.

Metode: Det er en kvantitativ nasjonal demografisk registerundersøkelse for å beregne levealdersutviklingen for personer med Downs syndrom (n = 2 593). Registerdataene som er samlet inn er kontinuerlige data som er basert på løpende tellinger i den nasjonale fødsels- og dødelighetsstatistikken. Innsamlede data er personer registrert med diagnosekode Downs syndrom, år født, år død, alder ved død og kjønn.

Hovedresultat: Gjennomsnittlig alder ved død for personer med Downs syndrom fra 1969 til og med 2009 økte fra 16,57 år til 53,40 år. Det var ingen statistisk signifikant forskjell på alder ved død mellom menn og kvinner. Gjennomsnittlig alder ved død for alle som døde etter fylte 40 år i studieperioden økte fra 53,95 år til 58,35 år. Forventet andel personer med Downs syndrom som vil bli 40 år og eldre vil øke fra 52 % for de som ble født i 1967 til 94 % for de som ble født i 2009.

Konklusjon: Levealderen for personer med Downs syndrom har økt betydelig fra 60-tallet og dette skyldes i hovedsak nedgang i spedbarnsdødeligheten. For de som overlever barneårene viser undersøkelsen imidlertid nesten ingen økning i rest levealder i løpet av undersøkelsesperioden. Frem til 2050 kan vi forvente en fordobling av antallet som vil være over 40 år.

Nyckelord

downs syndrom, demografi, alder ved død, levealdersutvikling



Master of Public Health

– Thesis –

Title and subtitle of the thesis				
The development of life expectancy for people with Down syndrome in Norway, 1969–2050				
Author Frode Kibsgaard Larsen				
Author's position and address Special Advisor / Authorised Social Educator, Ageing and Health, Norwegian Centre for Research, Education and Service Development, Vestfold Hospital Trust, P.O. Box 2136, N-3103 Tønsberg, Norway				
Date of approval 12.09.2014		Supervisor NHV/External Max Petzold, professor		
No. of pages 57	Language – thesis Norwegian	Language – abstract Norwegian/English	ISSN-no 1104-5701	ISBN-no 978-91-86739-72-0

Abstract

Background: Life expectancy for people with Down syndrome increased dramatically in the Western world during the 1900s. However, few surveys have investigated life expectancy for this population since 2000, none of them Norwegian. **Aim:** This study aimed to provide insight into life expectancy for Norwegians with Down syndrome between 1969 and 2010, and to project future rates for adults with Down syndrome until 2050. **Method:** This quantitative national demographic registry study estimated the development of life expectancy for people with Down syndrome (n = 2,593). To calculate age at death, we collected data from death certificates reported to Statistics Norway. Together with data from Medical Birth Registry, we simulated life tables. Collected data included persons with the diagnosis code for Down syndrome, birth year, year of death, age at death, and sex. **Main results:** Between 1969 and 2010, mean age at death of persons with Down syndrome increased from 16.57 years to 53.40 years, respectively. We observed no statistically significant difference in age at death between men and women. Average age at death for persons who died after 40 years of age increased from 53.95 years to 58.35 years during the study period. We estimated that the percentage of people with Down syndrome older than 40 years of age will increase, from 52% to 94% for those born in 1967 and 2009, respectively. **Conclusion:** Life expectancy for people with Down syndrome has increased significantly since the 1960s, mainly due to a relative decrease in newborn and infant mortality. Importantly, such individuals who survive childhood showed almost no increase in remaining life expectancy during the study period. By 2050, we expect the number of people with Down syndrome aged 40 or more years to double.

Key words

down syndrome, demographics, age at death, life expectancy

Innholdsfortegnelse

Introduksjon.....	5
Demografi for personer med Downs syndrom	5
Genetikk, helse og utviklingstrekk for personer med Downs syndrom	6
Levealdersutvikling	7
Historikk	8
Etnisitet.....	8
Nordisk perspektiv og folkehelseperspektiv.....	9
Teoretisk rammeverk for mål av levealder.....	10
Litt om registrene	11
Dødsårsaksregisteret.....	11
Medisinsk fødselsregister	12
Formål og spørsmålsstillinger	13
Metode.....	13
Undersøkelsens populasjon og datamateriale.....	14
Statistisk analyse og teori	14
Validitet, reliabilitet, sensitivitet og spesifisitet	16
Etiske vurderinger.....	17
Finansiering	18
Resultat	18
Del en – historisk utvikling	18
Fødte med Downs syndrom fra 1969 til og med 2009	18
Utviklingen av alder ved død fra 1969 til 2009 – histogrammer.....	20
Alder ved død for alle med Downs syndrom som døde i perioden	25
Alder ved død fordelt mellom menn og kvinner	27
Alder ved død for alle med Downs syndrom som døde etter fylte 40 år.....	29
Del to – forventet utvikling	31
Overlevelsesanalyse for perioden 1967 til og med 2009.....	31
Forventet utvikling frem til 2050.....	32
Diskusjon.....	34
Historisk levealdersutvikling.....	34
Forventet levealdersutvikling	37
Forskjeller mellom kjønnene	39

Metodediskusjon.....	40
Drøfting av validitet og reliabilitet	40
Undersøkelsens nytte- og generaliseringsverdi	42
Konklusjon	44
Takk	45
Referanser	45
Vedlegg.....	51
Vedlegg 1. ANOVA og Post hoc test mellom andelen fødte i fødselsårsgrupper	51
Vedlegg 2. Independent samples T-test mellom kjønn før og etter 1991.....	52
Vedlegg 3. ANOVA og Post hoc test for gjennomsnittlig alder ved død for alle som dør etter fylte 40 år	53
Vedlegg 4. ANOVA og Post hoc test for forventet utvikling frem til 2050.....	55

INTRODUKSJON

Økt levealder og store barnekull rett etter andre verdenskrig fører til en kraftig økning av antall eldre personer. En utvikling vi ser både i Norge og i resten av den vestlige verden. Vi får ingen midlertidig eldrebølge, men en varig høy eldreandel. Sunnere liv og forbedringer i helsevesenet det siste århundret har bidratt til at vi lever lengre. Noe som fører til store utfordringer i finansiering av trygdeutbetalinger og økt krav til et mer spesialisert helsevesen (Helse- og omsorgsdepartementet 2006, WHO 2012).

Befolkningens sammensetning på kort og lang sikt, med tanke på alder og sykkelighet, er derfor viktig i samfunnsplanleggingen for beregning av trygdekostnader, arbeidsevne, omsorgsbyrde og helse. Prognoser for befolkningsframskrivninger er ingen absolutt vitenskap. Prognosene bygger på modeller om framskrivninger hvor utviklingen av forhold som fruktbarhet, levealder, innenlands flytting og nettoinnvandring, er stipulert utfra historiske data og antagelser om fremtiden.

Demografi betyr befolkningsbeskrivelse eller befolkningslære. Det er en vitenskap som studerer befolkningens geografiske fordeling, fødsler og fruktbarhet, dødelighet og migrasjon. Faktorer som levekår og helse er med å forklare endringer i befolkningen. Demografer ønsker å forutsi hvordan levealdersutviklingen vil bli, og fra et demografisk synspunkt er det to hovedspørsmål som er viktige for å kunne si noe om befolkningsutviklingen. Hvor lenge lever vi og hvilken helse har vi i de årene vi lever. Gitt at vi lever lenger, blir dette friske år eller blir det år med redusert helse?

Demografisk kunnskap om personer med Downs syndrom er viktig både for et overordnet samfunnsperspektiv og på individnivå. Det er viktig for å kunne gi best mulig genetisk veiledning, medisinsk oppfølging, planlegge oppvekst og voksenlivet og best mulig kunne gi en forutsigbar og god alderdom. For å kunne gjøre dette trenger vi best mulig demografiske data. Like viktig er epidemiologiske undersøkelser som sier noe om en befolknings helse, sykdommers forløp, årsaker, utbredelse og konsekvenser.

Demografi for personer med Downs syndrom

Levealderen for personer med Downs syndrom har øket dramatisk på 1900 tallet i hele den vestlige verden (Dupont, Vaeth og Videbech 1986, Glasson et al. 2002, Haveman 2004, Maaskant, Gevers og Wierda 2002, Yang, Rasmussen og Friedman 2002). Imidlertid er det få undersøkelser om levealder for denne populasjonen på 2000 tallet, og vi har ikke funnet noen norske undersøkelser. Undersøkelser viser også at man lever lenger hvis en vokser opp utenfor en institusjon enn om man vokser opp på en institusjon (Dupont, Vaeth og Videbech 1986).

I den vestlige verden er det beregnet en forekomst av personer med Downs syndrom i befolkningen på seks til åtte pr 10 000 (Torr et al. 2010). I Norge med en befolkning på cirka fem millioner vil det si at det utgjør fra 3 000 til 4 000 personer. For hele populasjonen utviklingshemning utgjør Downs syndrom ti til 18 prosent (Glasson et al. 2002, Mantry et al. 2008, Singer og Strauss 1997). Syndromet blir diagnostisert hos en per 650 til 1000 levendefødte hvert år (Baird og Sadovnick 1988, Canfield et al. 2006,

Frid et al.1999). På grunn av en betydelig lavere levealder for personer med Downs syndrom og en historisk høy spedbarnsdødelighet, er det lavere forekomst av personer med Downs syndrom i befolkningen kontra andelen antall nyfødte tilsier. Den totale forekomsten av personer med Downs syndrom forventes å stige i årene fremover på grunn av en betydelig økning av levealder (Torr et al. 2010). I Norge fødes om lag 60 til 80 levendefødte barn med Downs syndrom hvert år. Forekomsten har vært svakt økende siden slutten av 60 tallet (Larsen 2009). Økt alder ved graviditet for mor er en risiko for å få et barn med Downs syndrom. Både i Norge og internasjonalt er det en tydelig trend med økt andel kvinner over 35 år som får barn (Cocchi et al. 2010). I følge Medisinsk fødselsregister er andelen kvinner som føder barn stigende spesielt for aldersgruppen over 40 år. Én av fem fødende kvinner er nå over 35 år.

Genetikk, helse og utviklingstrekk for personer med Downs syndrom

Downs syndrom, eller Trisomi 21, er den vanligste enkeltårsak til psykisk utviklingshemning. Årsak til syndromet er et ekstra kromosom 21 (Trisomi 21). Frem til år 2002 er det funnet 329 gener på kromosom 21. Syndromet gir varierende nevrobiologiske og nevropsykologiske utslag med nevromotoriske dysfunksjoner, kognitive svekkelser og språkvansker (Roizen og Patterson 2003). Det finnes fire typer Downs syndrom. Trisomi 21 hvor det er tre kopier av hele kromosom 21. Mosaikk hvor en del av kroppens celler har Trisomi 21 celler og en del har normale celler. Translokasjon hvor en del av kromosom 21 er festet til et annet kromosom, ofte nummer 14. Til slutt mosaikk translokasjon hvor en del av kroppens celler har translokasjon celler og en del normale celler. Omlag 92 prosent av de som har Downs syndrom har den første varianten, Trisomi 21 (Prasher 2005, Sherman et al. 2007)

Helserisiko voksne og eldre med Downs syndrom er mest utsatt for kan deles inn i fysiske/somatiske og psykiske tilstander. Fysiske/somatiske sykdommer en ofte ser er hjertesykdommer, epilepsi, kraftige hørsel og synsnedsettelse, overvekt, ustabilitet i leddene, testikkelkreft og autoimmune sykdommer som hypothyreose og cøliaki (Bittles og Glasson 2004, Larsen 2009, Malt et al. 2013). De har en høyere forekomst av psykiske sykdommer enn resten av befolkningen, men tilnærmet på samme nivå som for personer med utviklingshemning uten Downs syndrom. Demens av Alzheimers sykdom er den lidelsen de er mest utsatt for og opptil 50 prosent viser symptomene på sykdommen før de dør (Mann 1988). En nederlandsk undersøkelse viser høyest insidens i aldersgruppen mellom 55 og 59 år hvor hele 33 prosent hadde utviklet en demenssykdom (Coppus et al. 2006). De nevropatologiske forandringene med senile plakker og nevrofibrilære floker, er i en undersøkelse hvor hjernene til personer med Downs syndrom er obdusert, påvist i omtrent alle tilfellene etter at de er passert 40 år (Mann 1988). Deretter kommer depresjon med en forekomst på opptil ti prosent og ulike tvangslidelser (OCD) med en forekomst på inntil 4,5 prosent. Det er også funnet noe høyere forekomst av angstlidelser (Prasher og Lawrence 2006). I dag erfarer mange personer med utviklingshemning dårligere medisinsk oppfølging og det er estimert at

om lag 37 prosent av dødsfallene kunne ha vært unngått ved bedre helseoppfølging (Heslop et al. 2013).

Ikke alle mennesker med Downs syndrom har alle de typiske trekkene beskrevet i syndromet. Det er store individuelle forskjeller i ferdigheter og evnenivå. Hvert individ har sin egenart med nedarvede egenskaper fra mor og far og er påvirket av miljøet de lever i. Graden av utviklingshemning varierer fra dyp til lett grad. En stor amerikansk undersøkelse viser en fordeling hvor 25 prosent har mild grad, 44 prosent moderat grad, 17 prosent alvorlig grad og åtte prosent dyp grad av utviklingshemning. For seks prosent ble ikke graden av utviklingshemningen fastsatt (Day et al. 2005).

Levealdersutvikling

Undersøkelser viser en levealdersutvikling fra ni år i 1929 til 15 år i 1947 (Penrose, 1949) til 16 år på 60 tallet (Collmann og Stoller 1965), 30 til 35 år på 70 tallet (Deaton 1973) og mellom 43 til 55 år på 80 tallet (Baird og Sadovnick 1988, Carter og Jancar 1983). Forventet levealder på 90 tallet varierer i ulike undersøkelser fra 49 til 58 år (Day et al. 2005, Maaskant et al. 2002, Roizen og Patterson 2003, Strauss og Eyman 1996). Undersøkelser som beregner median levealder for alle levendefødte med Downs syndrom, viser en levealder rundt 49 år (Yang, Rasmussen og Friedman 2002), mens de som beregner levealder for de som er 40 år og eldre, viser en levealder rundt 55 år (Janicki et al. 1999). Kvinner ser ut til å ha noe høyere levealder enn menn (Glasson et al. 2003).

Mye tyder på at personer med Downs syndrom har en biologisk klokke som går raskere enn hos befolkningen generelt. Dette gir utfordringer i forhold til når en bør begynne å planlegge alderdommen, som for eksempel avgang fra arbeidslivet. Internasjonalt er det ulike syn på hva som defineres som gammel. I den vestlige og industrialiserte verden benyttes ofte kategoriene til Verdens helseorganisasjon (WHO), som har definert eldre som personer med en kronologisk alder fra 65 år. De forente nasjoner (UN) definerer eldre som personer med en kronologisk alder fra 60 år. Valget av disse grensene styres mye av når det er normalt for en person å tre ut av arbeidslivet. I utviklingsland kan det være andre vurderinger og kulturelle årsaker som ligger til grunn for når en person blir definert som gammel (Glascok og Feinman 1980).

I Norge og de fleste vestlige land er det lover og regler i arbeidslivet og trygderettigheter som følger den kronologiske alderen. For personer med Downs syndrom er ikke dette en funksjonell målestokk, siden de har en aldringsprosess som starter 20 til 30 år tidligere. Det er internasjonalt en samstemmighet om at en for personer med Downs syndrom bør begynne å ha fokus på aldersrelaterte sykdommer og mulig funksjonsfall fra 35 til 40 års alder (Prasher og Janicki 2002). Ved denne alderen bør en tenke på hva som skal skje i overgangen fra arbeidsliv til pensjonisttilværelse, og sørge for gode rutiner som sikrer oppfølging av helse.

Historikk

Det aller første spor etter Downs syndrom finner vi over 7000 år tilbake. Det er gjort funn på en hodeskalle ved Santa Rosa i Canada som er forenelig med Downs syndrom (Walker et al. 1991). Det som er vurdert til å være det første mest sikre funn er en hodeskalle som ble funnet i Leicestershire i England som er datert mellom år 700 – 900 e.Kr. (Brotthwell 1960). Går vi utenom medisinsk historie finner vi Downs syndrom presentert via kunsten på figurer fra Olmec kulturen i Mellom-Amerika opptil 3600 år tilbake (Starbuck 2011), på terracotta hode fra Tolteka kulturen i Mexico cirka år 500 e.Kr. (Martinez-Frias 2005) og på 1500 og 1600 tallet kan vi se de typiske ansiktstrekkene på flere malerier (Levitas og Reid 2003, Ward 2004).

Dr. John Langdon Down beskrev Downs syndrom detaljert under sin tjeneste som direktør ved Royal Earslwood Asylum for Idiots and Imbeciles i 1866 (Down 1995). Han ble overrasket over at syndromet ikke var omtalt før. Men senere forskning i den medisinske historie viser at en fransk psykiater Esquirol beskrev syndromet i 1838 og i 1844 av fransk fødte Dr. E. Sèguin. Den medisinske årsaken til selve kromosomavviket ble, om enn noe omdiskutert, oppdaget av franskmennene Lejeune, Gautier og Turpin i 1959 (Patterson og Costa 2005).

I den vestlige verden har levealderen for personer med Downs syndrom vært betydelig lavere enn for resten av befolkningen helt opp til vår tid. Historisk var levealderen for befolkningen i vikingtiden lik den vi fant hos personer med Downs syndrom på 1950 tallet (Collmann og Stoller 1965). Levealderen for personer med Downs syndrom i dag tilsvarende den som kom frem for befolkningen generelt fra folketellingene i Norge på 1860 tallet (Alnæs 1996).

Etnisitet

I undersøkelser fra USA og Australia er det en signifikant lavere levealder for svarte, latin-amerikanere og aboriginere med Downs syndrom i forhold til hvite med syndromet. I USA hadde svarte med Downs syndrom en median levetid på cirka 23 år i 1997, og andre med latin-amerikansk bakgrunn en median levetid på cirka ti år (Glasson et al. 2002, Yang, Rasmussen og Friedman 2002). I en undersøkelse fra Australia var det få aboriginere med Downs syndrom som levde lenger enn 12 år og de hadde en signifikant høyere dødelighet første leveår enn andre med syndromet (Leonard et al. 2000). Denne undersøkelsen skiller ikke mellom personer med Downs syndrom fra forskjellige etniske grupper. Forekomst og levealder for personer med Downs syndrom i den samiske populasjonen er ukjent, og hvorvidt de har hatt eller har en annen utvikling enn andre med syndromet er ikke kjent.

Nordisk perspektiv og folkehelseperspektiv

Jeg har ikke funnet undersøkelser om levealder for personer med Downs syndrom på 2000-tallet. Det er ikke tidligere gjort tilsvarende undersøkelser i Norge, Sverige, Island eller Finland. I Danmark er det gjennomført en undersøkelse om dødelighet og levealder for personer med Downs syndrom som bodde på en institusjon eller bodde i ordinære bomiljøer på begynnelsen av 80 tallet (Dupont et al. 1986). I Finland er det gjennomført en undersøkelse om utviklingshemmedes levealder generelt (Patja et al. 2000). Undersøkelsen til Dupont viste en gjennomsnittlig levealder på 55 år, og det var signifikante forskjeller om de vokste opp på institusjon eller i ordinære bomiljøer. De som vokste opp i ordinære bomiljøer levde lengst. Levealdersutviklingen for befolkningen generelt i de nordiske landene er sammenlignbar og vi antar at levealdersutviklingen for personer med Downs syndrom også vil være det. Det er minimalt med undersøkelser som viser levealdersutviklingen for personer med utviklingshemning generelt og personer med Downs syndrom spesielt i de nordiske landene. Derfor bør denne undersøkelsen også ha relevans for andre land i Norden.

Personer med Downs syndrom utgjør den største andelen av personer med utviklingshemning med kjent etiologisk årsak. Generelt har 80 prosent av de eldre med utviklingshemning en kronisk lidelse og 50 prosent har to eller flere lidelser. Når personer med utviklingshemning blir eldre vil også mange erfare utvikling av nye kroniske lidelser som en følge av den medfødte funksjonsnedsettelsen (Heller, Fisher og Marks 2014). Personer med Downs syndrom er ikke en stor gruppe i nasjonal målestokk, men betydelig nok i et folkehelseperspektiv. De har stor risiko for å utvikle demenssykdom tidlig i livet (Coppus et al. 2006) og dermed økt forbruk av offentlige tjenester. Personene selv blir berørt, deres pårørende og venner, som i sum blir en betydelig andel personer. Det er en populasjon som forventes å øke i antall eldre personer. Kunnskap om levealdersutviklingen vil derfor være viktig for å planlegge fremtidige helse- og omsorgstjenester. Mange kommuner er ikke forberedt på denne utviklingen og mangler planer og oversikter for fremtidig utvikling (Westerberg 2012).

Undersøkelsen vil kunne gi informasjon til myndighetene i deres forberedelse til fremtidens omsorgsoppgaver. Den kan dokumentere levealdersutvikling for personer med Downs syndrom etter avviklingen av institusjonene tidlig på 90-tallet. I tillegg til å gi prognoser til arbeidet som pågår med å planlegge fremtidens tjenester for personer med utviklingshemning. Fra 2012 ble det store endringer i norsk helse- og omsorgslovgivning. Helse- og omsorgstilbyderne fikk krav til å samhandle på tvers av nivåer og legge tjenestene nærmere tjenestemottaker. I forkant av disse endringene ble det vedtatt en ny folkehelselov hvor ansvaret for folkehelsearbeid legges til kommunene slik at de kan bruke alle sine etater til å fremme folkehelse. Kommunene skal ha ansvar for at de får et tydelig bilde av hva som er lokale helseutfordringer. Til det vil de trenge demografiske og epidemiologiske data for å få god oversikt og treffe rette tiltak.

Vår hypotese er at levealdersutviklingen i Norge er tilsvarende den vi ser i andre vestlige land. I dag overlever langt flere barn med syndromet de første leveår, og flere vokser opp og blir gamle. Siden fødselsratene er noenlunde stabile og flere lever opp, vil vi i årene fremover få flere eldre med Downs syndrom enn hva vi tidligere har hatt.

Teoretisk rammeverk for mål av levealder

Demografisk og epidemiologisk kunnskap er viktig for å kunne si noe om befolkningens helsetilstand og levealdersutvikling. Det finnes ulike metoder å måle helsetilstanden på for hele eller deler av befolkningen. Forventet levealder for nyfødte er mest vanlig, men i den vestlige verden ser man at denne målestokken alene er lite informativ. Økt livslengde gir beskjedne utslag på forventet levealder, mens nedgang i spedbarnsdødelighet gir store utslag (Beaglehole 2003).

Den tydeligste trenden i økt livslengde i de industrialiserte landene er nedgangen i dødsratene blant de eldre. Helt opptil 60-tallet var det nesten ikke nedgang i dødeligheten blant de eldre, kun blant de yngre. Da skjedde det et skifte og siden 70-tallet har det vært en «aging of mortality decline», og det er i de eldre gruppene en ser størst endring. Mye skyldes en nedgang i kroniske degenerative sykdommer (Wilmoth 2000).

WHO og UN har etablert målemetoder som skal vise noe om en befolknings helsemessige utvikling. Målemetodene kombinerer opplysninger om dødelighet, sykkelighet og grad av funksjonshemming. Disability adjusted life years (DALY) er et mål for byrden av en sykdom i en populasjon og måler gapet mellom nåværende helsestatus og den ideelle situasjonen for alle. Det vil si år tapt på grunn av dårlig helse, funksjonshemming eller tidlig død. Årsaker til et eventuelt gap er tidlig død, funksjonshemming og risikofaktorer som fører til sykdom. En DALY kan derfor betraktes som ett år tapt med god helse. Metoden forutsetter at den beste målestokken for å vurdere effekten på helsen er tid levd med en kronisk sykdom. DALY ble opprinnelig utviklet ved Harvard universitetet for Verdensbanken og senere adoptert av WHO. Den er nå blitt en vanlig målestokk for konsekvensutredninger innenfor folkehelse. Healthy Life Expectancy (HALE) måler forventet levealder med god helse, ved å ta hensyn til år levd med redusert helse på grunn av sykdom og ulykker (Beaglehole 2003).

Ulike nevropsykiatriske tilstander, hjerte- og karsykdommer og kreft utgjør over 60 prosent av den byrde, eller DALY, som sykdom fører med seg for Norges befolkning. Nevropsykiatriske tilstander gjør størst utslag, i og med at tilstandene har lav dødelighet og fører til et lengre liv med redusert helse og funksjonsmestring i dagliglivet. Forventet levealder og HALE er målt i flere europeiske land. Norge ligger midt på treet i forhold til sammenlignbare land i Europa. WHO estimerer at vi lever med god helse i cirka 91 prosent av våre liv og at vi taper i gjennomsnitt 7,1 år på grunn av sykdom (differansen mellom levealder og HALE), noe som samsvarer med resten av Europas befolkning (World Health Organization 2006).

Grunnlaget for å bruke disse modellene er undersøkelser av hele befolkningsgrupper. De sier noe om befolkningens generelle tilstand. Vi kan ikke se at målemetodene er benyttet i undersøkelser på en utvalgt kohort med helt spesielle karakteristika, slik som personer med Downs syndrom. Selv om utviklingshemning ikke klassifiseres som en

sykdom, lever mange med en eller flere kroniske lidelser og har en høyere sykkelighet en befolkning generelt (Heller, Fisher og Marks 2014). Vi antar de derfor vil komme dårlig ut i disse modellene hvor antall år levd med sykdom er den viktigste variabelen. I tillegg kommer at grunnlagsdataene baserer seg på innhenting av selvrapporterte spørreskjemaer, hvor personer med utviklingshemning av kognitive årsaker naturligvis vil ha store metodiske utfordringer.

Litt om registrene

Dødsårsaksregisteret

Offisiell helsestatistikk i Norge kan spores tilbake til 1850-tallet. Denne bygget på innberetninger legene sendte inn om befolkningens sykdom og dødelighet. Første rapport ble publisert i 1856 der konklusjonen er: «Som det nøiagtigere vil erfares af de efterfølgende Amtsberetninger var Sundhedstilstanden i Riget i 1853 i det hele taget været meget god, navnlig bedre end i det foregaaende Aar.» (Bore 2007). Siden 1951 har Norge, som medlem av WHO, forpliktet seg til å ha en offisiell dødsårsaksstatistikk etter den internasjonale sykdomsklassifikasjonen International Classification of Diseases (ICD). Dødsårsaksregisteret er regulert etter dødsårsaksforskriften som sier at *Dødsårsaksregisteret skal gi grunnlag for utarbeidelse av nasjonal, regional og lokal dødsårsaksstatistikk, samt overvåke dødsårsaker og belyse endringer i dødsårsaker over tid. Videre skal registeret fremme, og gi grunnlag for forskning. Dødsårsaksregisteret skal også gi grunnlag for informasjon og kunnskap for planlegging, kvalitetssikring og kvalitetsutvikling av helsetjenesten.*

Det er Nasjonalt folkehelseinstitutt som er registreier, men Statistisk sentralbyrå (SSB) samler inn og behandler dataene. Statistikken omfatter alle døde som på dødstidspunktet var registrert som bosatt i Norge ifølge folkeregisteret. Det er ingen forskjell om personen døde i eller utenfor landets grenser. Ved alle dødsfall utstedes det en Legeerklæring om dødsfall – en medisinsk dødsmelding.

Dødsårsaksstatistikken blir altså utarbeidet etter de medisinske dødsmeldingene som sendes SSB fra offentlige leger. I tillegg innhentes tilleggsopplysninger fra Kreftregisteret, Medisinsk fødselsregister (Mfr), samt resultat av obduksjon fra sykehus og rettsmedisinske laboratorier. Disse informasjonskildene betegnes som diagnosegrunnlag.

Når dødsårsak kodes skiller man mellom underliggende og medvirkende dødsårsak. Det er opplysninger på dødsmeldingen sammen med eventuelt øvrig diagnosegrunnlagsmateriale, som bestemmer hva som blir underliggende dødsårsak. Underliggende dødsårsak er definert som:
a) den sykdom eller skade som startet rekken av de sykelige tilstander som ledet direkte til døden eller

b) de ytre omstendigheter ved den ulykke eller voldshandling som var årsaken til den dødelige skade.

Den medvirkende dødsårsak er definert som «andre vesentlige tilstander som kan ha bidratt til dødens inntreden, men uten å stå i direkte årsaksforhold til den tilstand som framkalte døden (Sosialdepartementet 1982).

Registerets kvalitet skal sikres ved at dødsmeldingene kobles opp mot det nasjonale folkeregisteret. Statistisk sentralbyrå sender purring til kommunelegen i dødskommunen for å få inn manglende dødsmeldinger. For ufullstendige, eller unøyaktig utfylte dødsmeldinger, etterspørres tilleggsopplysninger fra kommunelegen i kommunen der hvor dødsfallet fant sted. Dødsårsaken kodes med ICD-10 kode "R999 Ukjent dødsårsak", der dødsårsak ikke kan dokumenteres. I om lag en tredjedel av dødsfallene kodes underliggende dødsårsak på grunnlag av dødsmeldinger sammen med opplysninger fra de andre informasjonskildene. For de resterende kodes dødsårsaken kun fra den informasjon som er gitt på dødsmeldingen. Der hvor ICD ikke har en dekkende kode for årsak til død, settes en kode i samarbeid mellom Dødsårsaksregisteret og en medisinsk konsulent.

For å unngå feilkoding er det laget validitets- og konsistenskontroller som er innebygd i Dødsårsaksregisterets IT-systemer. Men systemet er avhengig av at de som fyller ut meldingene gjør det korrekt og med mest mulig detaljopplysninger (Djume og Ekornrud 2009).

Medisinsk fødselsregister

Som en følge av thalidomide katastrofen tidlig på seksti tallet, hvor et stort antall barn ble født med alvorlige deformiteter, ble Medisinsk fødselsregister (Mfr) etablert i 1967. Formålet med opprettelsen var å overvåke alle fødsler for å oppdage raske økninger av tilsvarende misdannelser i fremtiden. I tillegg har Mfr en oppgave med epidemiologisk overvåkning av perinatale, det vil si rundt fødselen, helseproblemer.

I følge forskriften skal Mfr inneholde person identifiserte opplysninger om alle fødte i Norge og deres foreldre. Med fødte så menes alle som er født etter 22 svangerskapsuker, eller 154 dager. Mfr registrerer også spontanaborter etter 84 dager, avbrutte svangerskap på grunn av stor fare for at barnet kan få alvorlig sykdom eller stor fare for kvinnens liv eller helse. Mfr er lokalisert i Bergen og Nasjonalt folkehelseinstitutt er ansvarlig for innsamling og behandling av opplysninger i registeret.

Registeret inneholder en rekke opplysninger om mor og barn og noen opplysninger om far. For den fødte lagres personlige opplysninger, fødested og helseforhold. Registeret kan videre samle administrative og medisinske opplysninger fra barnets første leveår, og om tilstander som var til stede ved fødselen. Opplysningene kan kobles med blant annet Dødsårsaksregisteret for å frembringe statistikk. Kravet er at opplysningene aidentifiseres og resultatet av sammenstillingen presenteres i en anonymisert form. Opplysningene skal slettes så snart statistikkfremstillingen er tilfredsstillende

gjennomført. Helt siden opprettelsen av registeret har det blitt registrert om fosteret har Downs syndrom. Drøfting av registerets kvalitet blir presentert senere.

Formål og spørsmålsstillinger

Denne undersøkelsen skal gi innsikt i levealdersutvikling og fremtidig forekomst av voksne og eldre med Downs syndrom. Den har som formål å undersøke levealdersutviklingen for personer med Downs syndrom i Norge fra 1969 til og med 2009, og se om det har vært kjønnsforskjeller i levealdersutviklingen. Undersøkelsen vil også beregne andelen av fødte personer med Downs syndrom som vil bli 40 år og eldre frem til 2050.

1. Hva er gjennomsnittlig og median alder ved død for personer med Downs syndrom fra 1969 til og med 2009?
2. Er det forskjell mellom kvinner og menn med Downs syndrom på gjennomsnittlig alder ved død for samme tidsperiode?
3. Hva er gjennomsnittlig og median alder ved død for alle med Downs syndrom som døde etter fylte 40 år fra 1969 til og med 2009?
4. Hva er forventet levealdersutviklingen for personer med Downs syndrom som blir 40 år og eldre frem til 2050 (framskriving av data)?

Årsak til å gjøre et skille ved 40 år er for å sammenligne internasjonale undersøkelser som har satt denne grensen (Janicki et al. 1999). Nevrobiologisk ser man store endringer etter fylte 40 år (Mann 1988). I undersøkelsen vil det være en drøfting av resultatene opp mot resultater i sammenlignbare internasjonale undersøkelser. Undersøkelsen ser ikke på årsaker til død.

Metode

Undersøkelsen er en nasjonal demografisk undersøkelse for å beregne den historiske utviklingen av alder ved død og å beregne fremtidig andel av eldre personer med Downs syndrom. Det er en registerundersøkelse og siden det er en definert populasjon som følges er designet en historisk kohortundersøkelse. Undersøkelsen er kvantitativ med deskriptiv statistikk som er en grunnleggende statistisk analyse av kvantitative data. Deskriptiv statistikk bruker statistiske metoder som gjennomsnittsverdier, medianer, frekvenser, spredninger i datasettet med mer for å sammenstille, presentere og analysere dataene (Ejlertsson 2003). Ulike gruppeinndelinger, tidsintervaller og kjønn testes for variasjon og statistisk signifikante forskjeller ved variansanalyser. Dataene som er samlet inn til undersøkelsen er kontinuerlige data som er basert på løpende tellinger i fødsels- og dødelighetsstatistikken.

Undersøkelsens populasjon og datamateriale

Undersøkelsens populasjon er alle personer i Norge som kan identifiseres med diagnosen Downs syndrom i Mfr for perioden 1967 til og med 2009, og i Dødsårsaksregisteret for perioden 1969 til og med 2009. Hovedfokus i undersøkelsen er den eldre gruppen av personer med Downs syndrom, som vi her har definert 40 år og eldre. Det er gjort en begrensning til å ha fokus på den demografiske utviklingen, både historisk og i et fremtidsperspektiv. Undersøkelsen skiller ikke mellom ulike genetiske varianter av Downs syndrom, grad av utviklingshemning eller eventuelle geografiske forskjeller. Den skiller ikke om personene har vokst opp på eller utenfor institusjon før institusjonene ble avviklet i Norge i 1991. Hverken fødsels- eller dødsmeldingene er verifisert utover det som er meldt inn til registerne.

Datagrunnlaget for undersøkelsen er tre datasett. Første datasett er alle registrerte døde personer med Downs syndrom i perioden fra 1969 til og med 2009 (n = 1659). Inklusjonskriteriene er alle personer registrert med Downs syndrom som enten underliggende dødsårsak, eller som en av de seks medvirkende dødsårsaker i dødsmeldinger innrapportert til Dødsårsaksregisteret ved Statistisk sentralbyrå. Andre datasett er alle levendefødte med diagnosen Downs syndrom i perioden 1967 til og med 2009 (n = 2593) fra Mfr. Dataene fra de to datasettene kommer ikke frem i ordinære statistikker fra de to registrene og er bestilt spesielt til undersøkelsen. Datasett tre er et koblet datasett over alle personer med Downs syndrom som var levendefødt i perioden 1967 til og med 2007 og døde i perioden 1969 til og med 2007 (n = 389). Datasett tre er koblet mellom Dødsårsaksregisteret og Mfr og koblingen er utført av Dødsårsaksregisteret. Dette datasettet har ikke med de som ble født og døde i årene 1967 og 1968, siden dødsårsaksregisteret først var i drift fra 1969.

Mfr har i perioden 1967 til og med 1998 benyttet klassifikasjonssystemet ICD-8 med diagnosekode 7593, og siden 1999 benyttet ICD-10 med diagnosekode Q90. Dødsårsaksregisteret har for perioden 1969 til og med 1985 følgende data registrert på hvert enkelt individ: år død, alder ved død og kjønn. For perioden 1986 til og med 1995: år død, alder ved død, kjønn, underliggende dødsårsak og de seks medvirkende dødsårsaker. Dødsårsaker for denne perioden er registrert etter klassifikasjonssystemet ICD-9 med diagnosekode 7580. For perioden 1996 til og med 2009 er det samlet inn tilsvarende data som foregående periode. Her er dødsårsaker registrert etter ICD-10 med diagnosegruppe Q90.

Statistisk analyse og teori

I undersøkelsen brukes forskjellige statistiske metoder og analyser for å synliggjøre levealdersutviklingen. Den historiske delen starter med å vise en grov oversikt over datagrunnlaget ved å bruke histogrammer. Histogrammer er en grafisk fremstilling som viser et visuelt inntrykk av fordelingen av data hvor det er arealet og ikke høyden av søylen, som i et søylediagram, som sier noe om mengden. Histogrammene viser en frekvensfordeling av alder ved død.

Beregning av gjennomsnittet er det mest vanlige mål for sentraltendens i en populasjon. Dette finner vi ved å summere alder ved død for alle individene i undersøkelsen og dele på antall individer døde. Median og typetall er to andre mål som også brukes for å beregne sentraltendens. Typetall, den alderen ved død hvor det dør flest individer, er ikke et kjent mål i undersøkelser vi kan gjøre sammenligninger, og er ikke benyttet i analysen. Median er oftere benyttet og viser den alder ved død som deler hele utvalget i to like deler når hele utvalget er sortert i en stigende årrekke. Medianen benyttes ofte når det i datautvalget er ekstremverdier, eller skjevfordeling av data, som for eksempel i stor grad vil påvirke gjennomsnittet (Kvikstad 1990).

Standardavvik (SD) er et spredningsmål for verdiene i et datasett og viser hvor mye variasjon eller spredning dataene er fra gjennomsnittet. Lavt standardavvik indikerer at verdiene i datasettet ligger i nærheten av gjennomsnittet. Høyt standardavvik indikerer at datapunktene er spredt ut over et stort spekter av verdier (Ejlertsson 2003).

Konfidensintervall viser intervallet hvor vi med sannsynlighet kan si at den sanne gjennomsnittsverdien ligger. Sannsynligheten oppgis i prosent og her brukes 95 prosent konfidensintervall, siden vi opererer med et signifikansnivå på fem prosent. Konfidensintervallet angir med andre ord sikkerhetsmarginer.

Gjennomsnittlig levealdersutvikling fra 1969 til 2009 beregnes i fem års grupper, såkalte abridged life tables. Ved årsgrupper vil det bli for få personer i hver gruppe og for stor fluktuasjon fra alder til alder. En life table eller dødelighetstabell, er en tabell som viser for hver alder sannsynligheten for at en person i den alderen vil dø før neste bursdag (Bowling 2002). Vi vil også se om det er forskjeller i levealdersutviklingen mellom kvinner og menn. Beregningene er utført med statistikkprogrammet IBM SPSS versjon 21 og enkelte beregninger med regnearket Microsoft Excel 2010.

I del to gjøres først en overlevelsesanalyse med utgangspunkt i reelle data på fødte og døde for perioden 1967 til og med 2009. Overlevelsesanalyse, eller survival analysis, er en statistisk metode som er et delområde av forløpsanalysen. I overlevelsesanalysen ser man på tiden fram til en bestemt hendelse inntreffer (Bowling 2002). I denne undersøkelsen er hendelsen når en person med Downs syndrom dør. I forløpsanalysen studerer man ikke bare om en hendelse inntreffer, men også når ulike hendelser inntreffer – et forløp av hendelser. I undersøkelsen blir det ikke kalkulert aldersspesifikke overlevelsesrater siden vi ikke har størrelsen på den levende forekomsten av personer med Downs syndrom (Yang, Rasmussen og Friedman 2002).

Framskrivning av en fremtidig befolknings størrelse gjøres normalt via kompliserte modeller som anvender sannsynlige rater for dødsfall, fruktbarhet, innenlands flytting og nettoinnvandring (Brunborg 2004). For en kohort som Downs syndrom blir det vanskelig å bruke slike modeller. I registrene kan vi ikke identifisere andel innenlandsk flytting eller nettoinnvandring, og reproduksjon er minimal. For å stipulere en forventet utviklingen frem til 2050 har vi tatt utgangspunkt i life table matrisen til den gjennomførte overlevelsesanalysen.

Stipulering av forventet utvikling frem til de blir 40 år er gjort ved å beregne andelen som overlever fra det siste aldersintervallet (death/at risk) til fødselskullet foran. Til slutt satte vi inn de stipulerte dataene for hvert fødselskull inn i en ny SPSS matrise og gjorde en ny overlevelsesanalyse og beregnet den kumulative andelen som vil bli 40 år og eldre frem til 2050.

Utvalget i undersøkelsen er delt inn i ulike grupper. For å teste om det er statistisk signifikante forskjeller mellom gruppene ble variansanalysen ANOVA og t-test utført i deler av undersøkelsen. Ved sammenligning mellom to grupper brukes t-test og ved flere enn to grupper kan det brukes ANOVA. ANOVA er en forkortelse for Analysis of Variance. Med en ANOVA analyse kan en studere om det er forskjeller internt i aldersgruppene, versus om det er forskjeller mellom aldersgruppene (Bjørndal og Hofoss 2004). ANOVA beregner en F verdi som er forholdet mellom variasjonen mellom gruppene og innad i gruppene. Er denne statistisk signifikant kan det tolkes at det er statistisk signifikante forskjeller mellom gruppene. ANOVA viser sluttstatusen og ikke mellom hvilke grupper det er signifikante forskjeller. I de testene hvor det ble vist signifikante forskjeller ble alle gruppene analysert opp mot hverandre med en post hoc test for å se mellom hvilke grupper det var statistisk signifikant forskjell. ANOVA testen viser heller ikke hvor store forskjellene er i alder ved død mellom aldersgruppene. Forskjellene kan enten være stor eller liten og ha mer eller mindre klinisk relevans. For å måle størrelsen på variasjonene mellom aldersgruppene er det der hvor det var statistisk signifikante forskjeller utført beregninger på effektstørrelsen (effect size). Det er benyttet den mest vanlige målemetoden for One-Way ANOVA som er Eta-squared.

$$\eta^2 = \frac{SS_{\text{between}}}{SS_{\text{total}}}$$

Analysen i drøftingsdelen har tatt utgangspunkt i Cohen's effekt indeks for gradering av effektresultatene (Cohen 1992). Beregningene viser til eta-squared koeffisienten og er tolket jamfør Ellis (2010).

Validitet, reliabilitet, sensitivitet og spesifisitet

Resultatet i forskning forutsetter at datamaterialet er av god kvalitet. Det vil si at datamaterialet er gyldig i forhold til konkrete problemstillinger, som referer til validitet, og at datamaterialet er pålitelig, noe som referer til reliabilitet.

Validitet sier noe om en undersøkelse måler det den skal måle og ikke andre forhold. Det er tolkningen av dataene som valideres, ikke selve målemetodene eller testene. Det vil si at en må skaffe til veie relevante data på en pålitelig måte. Videre må tilfeldige og systematiske feil og konfundere elimineres før en kan konkludere med at den sammenhengen en ser i et funn er gyldig eller valid (Bjørndal og Hofoss 2004).

Med reliabilitet menes pålitelighet og i forskning er det forbundet med målesikkerhet. En klokke kan være pålitelig, men samtidig vise tiden helt feil hvis den for eksempel er stilt en time for sent. Et funn i en undersøkelse er reliabel om andre kommer til det

samme resultatet. Det fordrer at metodene og utvalget er nøyaktig beskrevet, slik at andre kan etterprøve undersøkelsen med de samme premisser. Reliabilitetsbegrepet tar for seg hvordan en undersøkelse er utført (Bjørndal og Hofoss 2004).

En studie kan oppnå høy reliabilitet og samtidig lav validitet. Denne undersøkelsen bygger på data fra to nasjonale registre som er avhengig av at rapporteringen til registrene er riktige og komplette – at de er reliable. Tolkningen av dataene dekker et definert utvalg av personer som er identifiserbare i nevnte registre og bør derved være valide.

Registrenes sensitivitet og spesifisitet er to andre faktorer som kan påvirke resultatet av undersøkelsen og si noe om registerdataenes nøyaktighet. Diagnostisk sensitivitet og spesifisitet er tekniske egenskaper ved en test eller undersøkelsesmetode som angir evnen til å identifisere friske og syke individer i en gruppe. Sensitivitet sier noe om sannsynligheten for at man ved hjelp av en test eller undersøkelsesmetode kan påvise Downs syndrom hos dem som virkelig har syndromet. Mens spesifisitet sier noe om en test eller undersøkelsesmetode kan ekskludere friske individer.

Etiske vurderinger

Det er søkt og innvilget godkjenning fra Mfr og Statistisk sentralbyrå om å koble sammen registrene. Dataene vi har fått tilsendt fra registrene er avidentifisert og inneholder ikke personopplysninger som navn, fødselsnummer eller bosted. Med helseforskningslovens ikrafttredelse 1. juli 2009 er det gjort endringer med hensyn til hvem som skal godkjenne medisinske og helsefaglige forskningsprosjekter. Søknad om utlevering av avidentifiserte data fra de sentrale helseregistrene til helsefaglig forskning skal sendes til de aktuelle registrene. Det er derfor ikke krav om å søke godkjenning fra Regional etisk komité (REK), jamfør hjemmel i registerforskriften. For skriftlig avklaring av dette er det sendt søknad om undersøkelsen er fremleggingspliktig til REK, og de har bekreftet at den ikke er fremleggingspliktig for komiteen.

Vi kan ikke se at undersøkelsen vil innebære noen spesielle etiske konflikter. Verken data som er samlet inn eller resultater innebærer noen som helst form for identifisering av enkeltindivider eller geografisk tilhørighet. Heller ingen personer i utvalget eller deres slektninger vil bli direkte berørt i undersøkelsen.

Et etisk spørsmål som er drøftet nøye, er om det kan være konflikt mellom et resultat som trolig vil vise en betydelig lavere levealder enn den generelle befolkningen, og at dette er en lett definerbar og utsatt gruppe. Vi har resonert oss frem til at det er allment kjent at personer med Downs syndrom har en lavere levealder enn befolkningen generelt. Dette vil derfor ikke representere informasjon som vil divergere fra det som er allment kjent.

De avidentifiserte registerdataene er lagret på et passordbeskyttet område på en sikker database tilhørende Nasjonal kompetansetjeneste for aldring og helse.

Forskningsarbeidet utøves i tråd med gjeldende lovverk og internt kvalitetssystem for å ivareta anonymitet, integritet, oppdragsgiveres interesser og god dokumentasjon.

Finansiering

Undersøkelsen finansieres i sin helhet av Nasjonal kompetansetjeneste for aldring og helse. Kostnader for å koble registrene er oppgitt fra Mfr å ha en kostnadsramme på mellom kroner 10.000,- og 25.000,-. Det er påløpt kostnader for innhenting av data fra Dødsårsaksregisteret som ikke er koblet med Mfr. Andre kostnader er ikke tatt med her, da disse sees som en del av masterutdanningen.

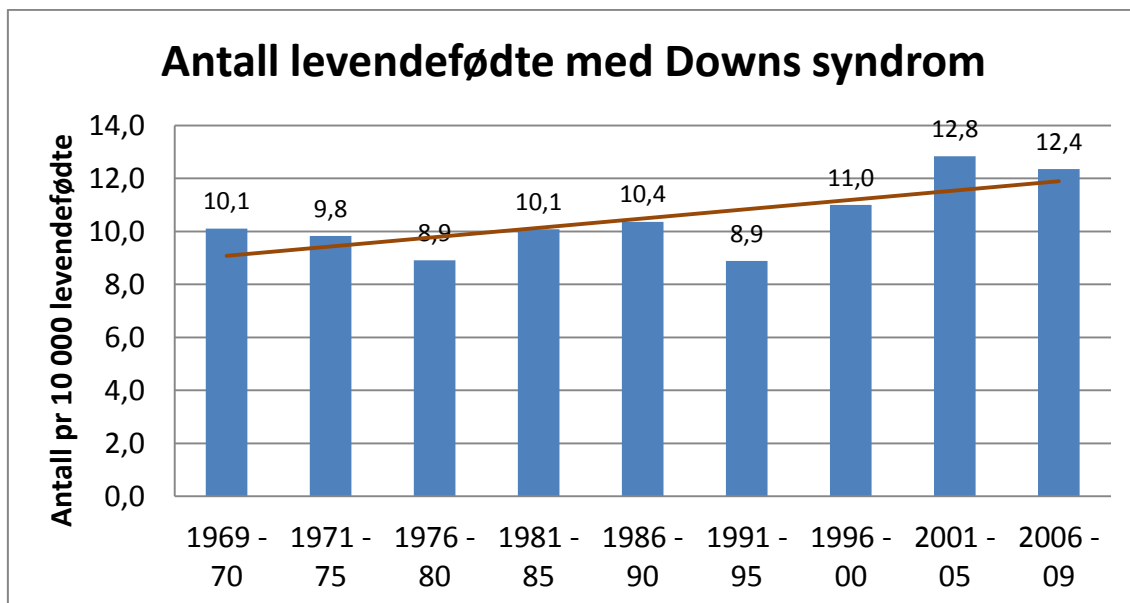
RESULTAT

Resultatene fra undersøkelsen er delt inn i to hovedområder. Del en presenterer den historiske utviklingen av alder ved død for personer med Downs syndrom. I del to presenteres forventet utvikling frem til år 2050.

Del en – historisk utvikling

Fødte med Downs syndrom fra 1969 til og med 2009

Grunnlaget for å analysere levealdersutviklingen er utviklingen av nyfødte med Downs syndrom og nyfødte i befolkningen generelt. Antall fødte personer med Downs syndrom kommer frem i tabeller fra Mfr og viser fødselsrater per 10 000 nyfødte per kalenderår. I undersøkelsen er det ikke tatt hensyn til dødfødte og nemndbehandlede aborter. Nyfødte med Downs syndrom er en liten kohort og de er derfor samlet i femårsgrupper, med unntak av første og siste årsgruppe. For året 2009 var tabellene fra Mfr over nyfødte med Downs syndrom ikke splittet i kjønn. Fordelingen her er beregnet etter gjennomsnittet for perioden 1969 – 2009.



Figur 1. Antall levendefødte med Downs syndrom per 10 000 levendefødte barn i Norge fra 1969 til og med 2009. Kilde: Medisinsk fødselsregister, Nasjonalt folkehelseinstitutt (www.fhi.no) pr. 31.08.2012.

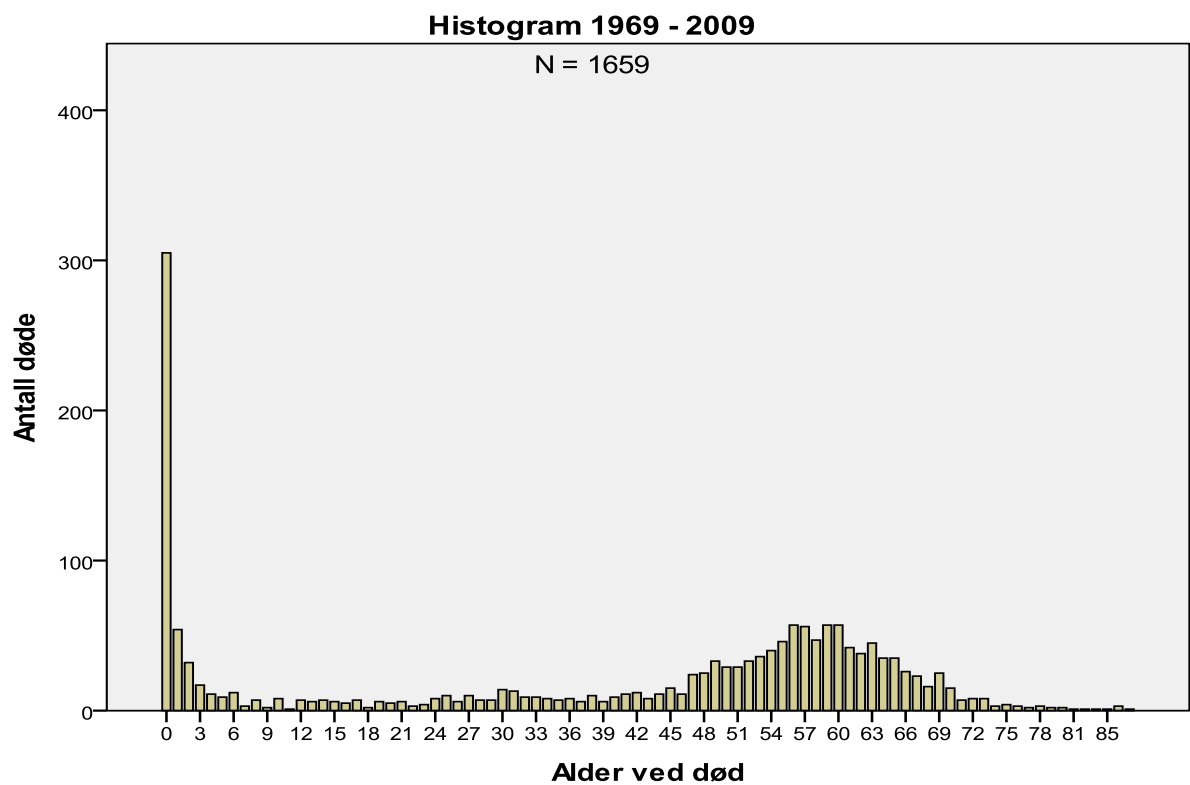
Totalt antall levendefødte med Downs syndrom i perioden er 2472, hvorav 1283 (52 %) er gutter og 1189 (48 %) er jenter. I samme periode var totalt antall levendefødte i Norge 2 359 001. Laveste andel fødte med syndromet er i årsintervallene 1976 – 1980 og 1991 – 1995 med 8,9 fødte per 10 000 levendefødte. Trenden for hele undersøkelsesperioden under ett er stigende, og høyeste antall er på 2000-tallet med 12,8 per 10 000 fødte i årsintervall 2001 – 2005. I siste årsintervall er det en synkende tendens til antall fødsler. For hele perioden ble det født ett barn med Downs syndrom per 954 fødsler.

Trendlinje i diagrammet viser en trend med en økning av andelen fødte med Downs syndrom for hele undersøkelsesperioden. For å tallfeste dette ble det utført en ANOVA (Vedlegg 1) test for å se om det var statistisk signifikant forskjell for andelen fødte mellom fødselsårsgruppene for hele perioden. ANOVA viser sluttresultatet og viser ikke mellom hvilke grupper det er signifikante forskjeller. For å teste dette gjøres en Tukey HSD post hoc test for å se mellom hvilke fødselsårsgrupper det var signifikante forskjeller. ANOVA testen viste en F-verdi på 3,590 som var statistisk signifikant ($p = 0,004$). Effektstørrelsen (Eta-squared) på forskjellen i antall fødte mellom årsintervallene viste at omlag 47 % av den totale variasjonen kan tilskrives forskjellen mellom gruppene. Post hoc testen (Vedlegg 1) viste at det var statistisk signifikant forskjell mellom de to fødselsårsgruppene 1976 – 1980 og 2001 – 2005 hvor andelen var 8,91/12,84 per 10 000 fødte ($p = 0,011$). Neste var mellom 1991 – 1995 og 2001 – 2005 hvor andelen var 8,87 per 10 000 fødte ($p = 0,010$).

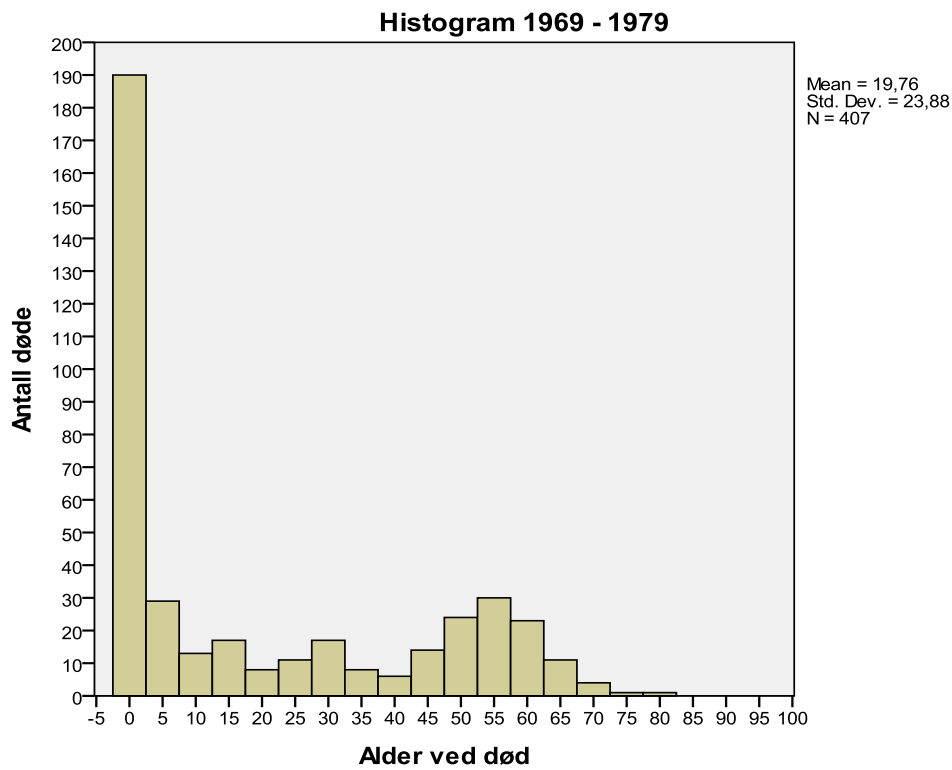
Utviklingen av alder ved død fra 1969 til 2009 – histogrammer

Analysen av dataene startet med å få en oversikt over tallmaterialet, en indikasjon på hvordan alder ved død har endret seg i undersøkelsesperioden og om det var en normal eller skjevfordeling av dataene. Dataene er hentet fra Dødsårsaksregisteret for perioden 1969 til og med 2009. Dette er rådata og er ikke koblet med data fra Mfr. Totalt 1659 er registrerte døde med diagnosen Downs syndrom og aldersspenn ved død er fra null til 89 år. Dødsårsaksregisteret har ikke med dødfødte og nemndbehandlede aborter. Det ble laget en serie med histogrammer delt inn i ti års perioder samlet for begge kjønn. Histogrammene viser fordeling på alder (antall) ved død for hele perioden histogrammet representerer. For visuelt å se om det var store forskjeller mellom kjønnene er det satt opp en befolkningspyramide som er en annen form for histogram. Her er materialet delt inn i to perioder, før og etter 1991, året for gjennomføring av ansvarsreformen.

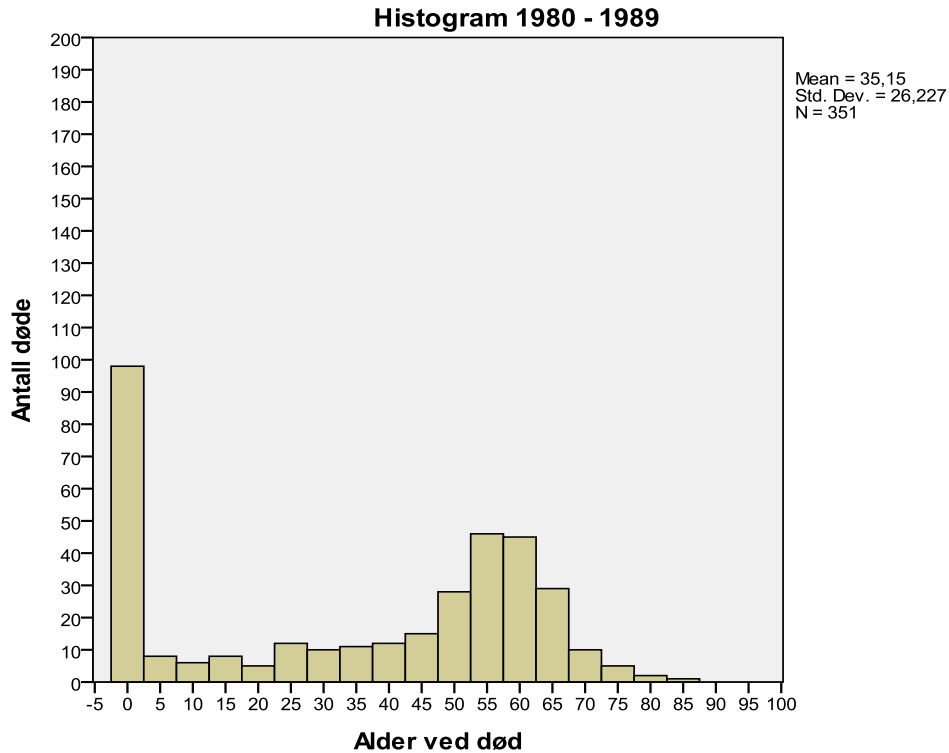
Figur 2 er et histogram for hele perioden fra 1969 til og med 2009 og viser at 18,38 prosent (305 personer) av de som døde, døde i løpet av første leveår. Andelen sank til 3,25 prosent (54 personer) mellom første og andre leveår. Etter fjerde leveår og frem til 47. leveår var andelen som døde noenlunde stabil mellom 0,12 prosent (to personer) til 0,84 prosent (14 personer) i hver årsgruppe. For de neste ti årene øker andelen til en topp med 3,44 prosent (57 personer) i årsgruppe 56. De neste fem årene er dødstallene stabile, for deretter å synke de neste ti år til 0,42 prosent (syv personer) i årsgruppe 71 og videre gradvis redusering til eldste registrerte døde på 89 år. Oppsummert er det to topper i histogrammet. En klar topp med en høy andel av de som døde det første leveåret (18,38 %) og en høy andel mellom 47 og 70 år (52,34 %).



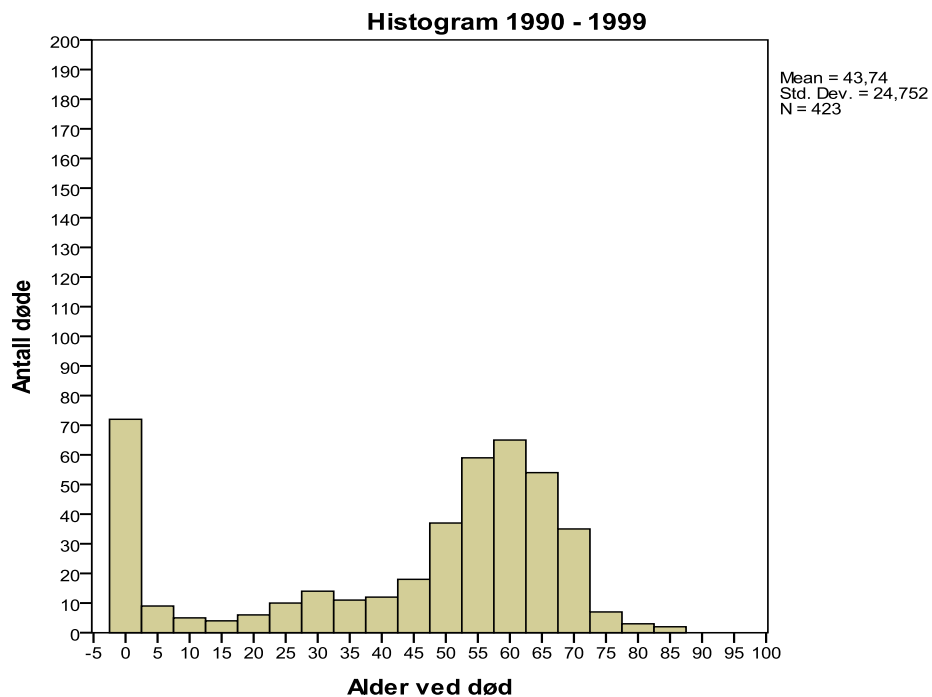
Figur 2. Histogram for alder ved død for personer med Downs syndrom som døde i perioden 1969 til og med 2009.



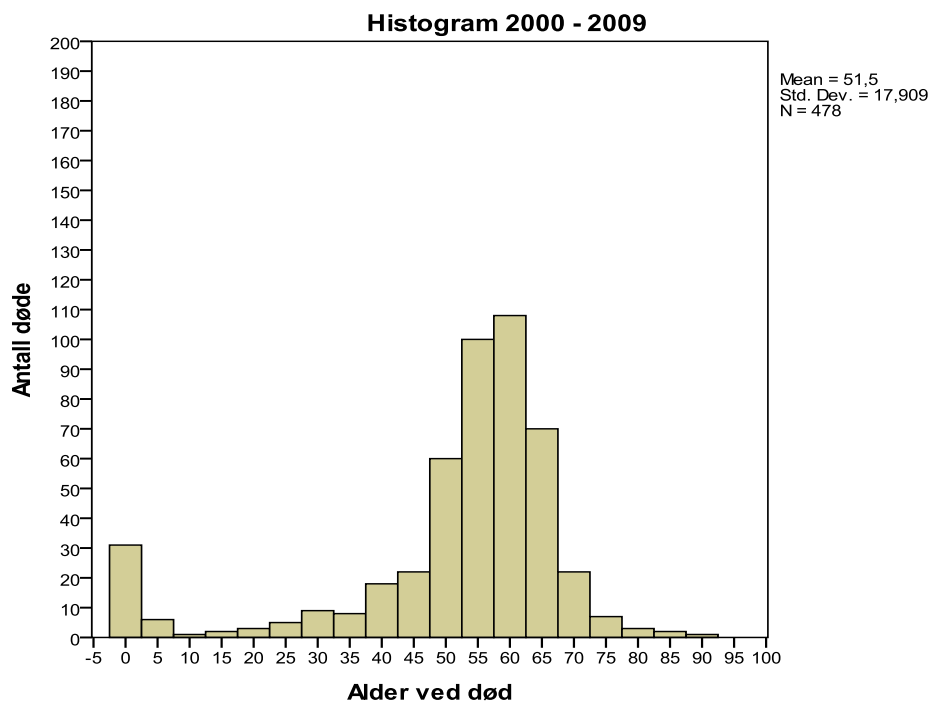
Figur 3a. Histogram for alder ved død for personer med Downs syndrom som døde i perioden 1969 til og med 1979.



Figur 3b. Histogram for alder ved død for personer med Downs syndrom som døde i perioden 1980 til og med 1989.

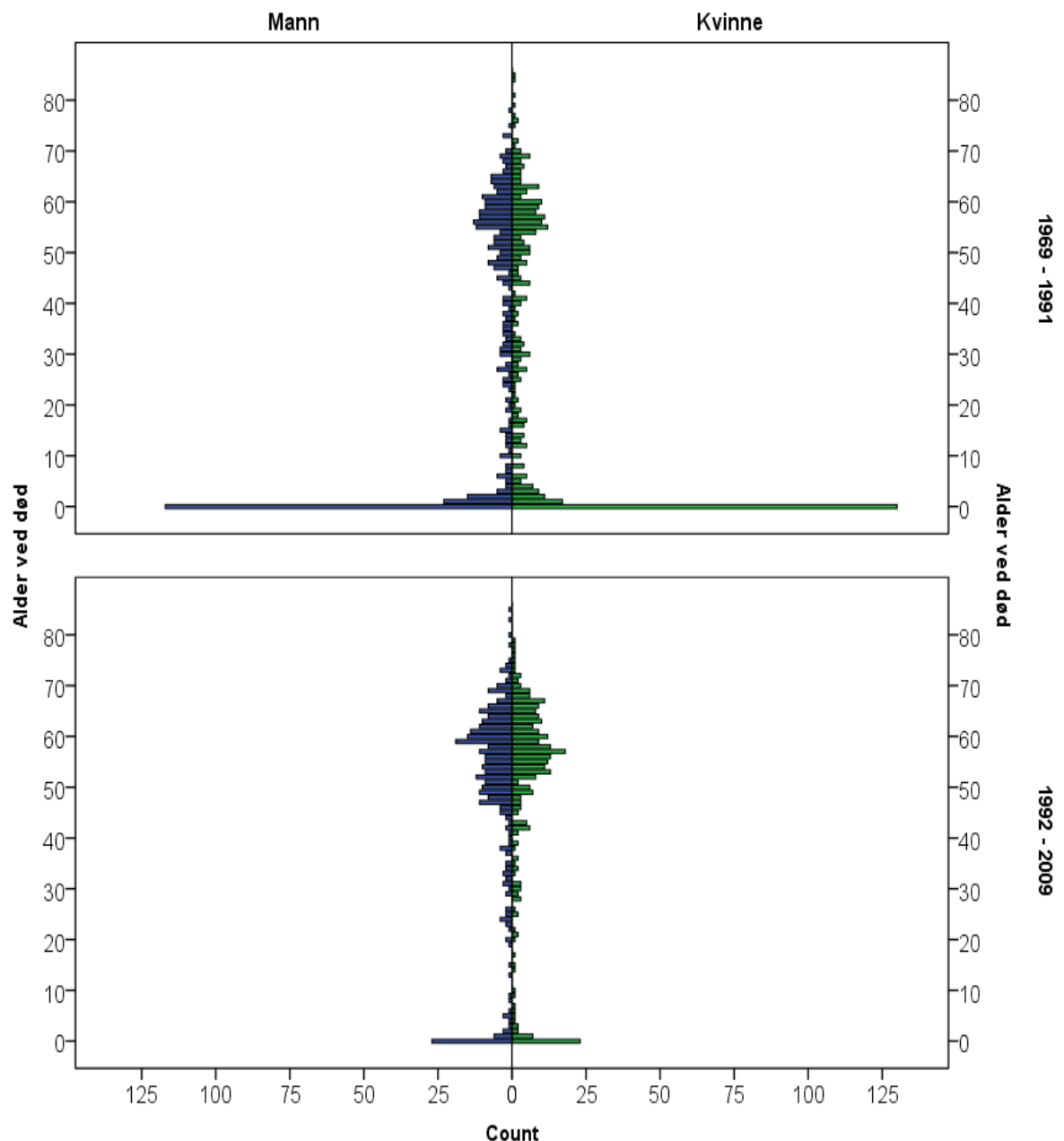


Figur 3c. Histogram for alder ved død for personer med Downs syndrom som døde i perioden 1990 til og med 1999.



Figur 3d. Histogram for alder ved død for personer med Downs syndrom som døde i perioden 2000 til og med 2009.

Histogrammene viser en betydelig nedgang i antall som døde i alderen null til fem år i hver tiårs gruppe (Figur 3a-d). For aldersgruppen fem til 40 år vises det også en nedgang og spesielt for gruppen mellom fem til 15 år. Antall døde i gruppen mellom 40 til 45 år er noenlunde stabil i hele perioden. Men for gruppen fra 50 til 70 år er det en betydelig økning i antall som dør. Spesielt ser man en markert økning i tidsperioden 2000 til og med 2009, og det er i aldersintervallet 50 til 70 år de fleste med Downs syndrom dør samlet i hele perioden.



Figur 4. Befolkningspyramide for alder ved død for personer med Downs syndrom fordelt på kjønn i to tidsperioder: 1969 – 1991 og 1992 – 2009.

Modellen er befolkningspyramide som her viser personer med Downs syndrom fordelt på kjønn og alder ved død. Befolkningspyramiden er delt i to perioder ved 1991, året hvor ansvarsreformen ble gjennomført.

Befolkningspyramiden viser at det har skjedd en stor nedgang i antall døde de første leveår for begge kjønn fra perioden 1969 – 1991 til 1992 – 2009. Nedgangen er noe større for kvinner i første leveår. En ser også en svak nedgang i antall døde for begge kjønn i perioden fra fire til om lag 40 år. Økningen i antall døde er i neste periode fra 45 til 72 år og flere dør senere i denne perioden enn for tilsvarende periode før 1991. Befolkningspyramiden viser også at det er blitt en liten skjevfordeling over antall døde mellom kvinner og menn i perioden fra 45 til 70 år, med en overvekt antall døde blant menn.

Det ble utført en independent samples t-test for å teste om det var statistisk signifikante forskjeller på alder ved død mellom kjønnene mellom de to periodene før og etter 1991 (Vedlegg 2). T- testen viste ingen statistisk signifikant forskjell mellom menn og kvinner hverken før eller etter 1991.

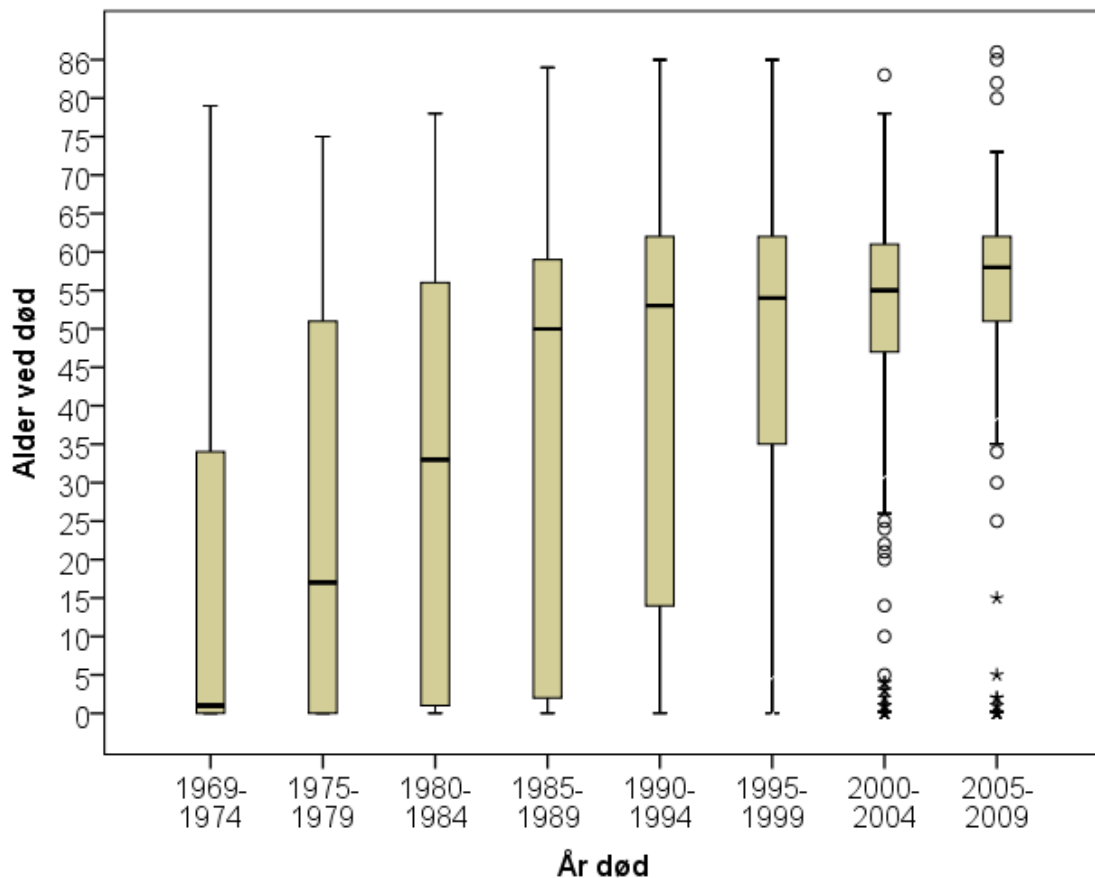
I sum viser histogrammene en tydelig utvikling med at antallet døde de første leveår synker betydelig i første del av undersøkelsesperioden, og en markant økning av antallet døde i aldersgruppene mellom 50 og 65 år i sist del av perioden.

Alder ved død for alle med Downs syndrom som døde i perioden

Tabell 1. Gjennomsnittlig og median alder ved død for alle med Downs syndrom som døde i perioden 1969 til og med 2009. N=1659

Årsintervall	N	Gj.snitt alder ved død (SD)	95 % CI for gj.snitt	Median alder ved død	Min – maks alder
1969 – 1974	249	16,57 (22,8)	13,73 – 19,42	1,0	0 – 79
1975 – 1979	158	24,77 (24,8)	20,88 – 28,67	17,0	0 – 75
1980 – 1984	166	31,49 (25,6)	27,57 – 35,42	33,0	0 – 78
1985 – 1989	185	38,43 (26,4)	34,59 – 42,26	50,0	0 – 85
1990 – 1994	216	41,62 (26,3)	38,09 – 45,15	53,0	0 – 86
1995 – 1999	207	45,96 (22,9)	42,82 – 49,09	54,0	0 – 86
2000 – 2004	228	49,43 (18,8)	46,97 – 51,88	55,0	0 – 84
2005 – 2009	250	53,40 (16,8)	51,30 – 55,50	58,0	0 – 89

I tabellen er populasjonen samlet i femårs intervaller. Populasjonen er såpass liten at det blir stor fluktusjon ved å bruke enkeltår. I første årsgruppe er det et intervall på seks år. Dette ble valgt for ikke få ett enkelt år i en egen aldersgruppe.



Figur 5. Boxplot med median alder ved død for alle med Downs syndrom som døde i perioden 1969 til og med 2009. IQR er 25 – 75 percentilen. Outliers (o) mellom 1,5 og 3 IQR og extremes (*) over 3 IQR.

Gjennomsnittlig alder ved død har økt fra 16,57 år i årsintervall 1969 – 1974 og til 53,40 år i årsintervall 2005 – 2009. Det er en økning på hele 36,83 år og som tilsvarer 0,92 år per leveår i undersøkelsesperioden. Størst økning er det mellom første og andre årsintervall 1969 – 1970 og 1975 – 1979 på 8, 2 år, som gir en økning på 4,1 år per leveår. Økningen stiger mest frem til 1990 for deretter å flate ut til en økning på mellom 0,64 til 0,87 år per leveår i de neste årsintervallene. Verdien av konfidensintervallet varierer fra $\pm 2,1$ til $\pm 3,93$.

Resultatet viser en stor økning i median alder ved død. Fra ett år i første årsgruppe til 58 år i siste årsgruppe. Økningen av median alder ved død er størst i første del av undersøkelsesperioden frem til 1985, hvor en stor andel døde de første leveår. Det største enkeltspranget er mellom første og andre årsintervall, hvor median alder ved død økte til 17 år. Til neste årsintervall (1980 – 1984) er det en økning på 94,5 prosent til 33 år. Til fjerde årsintervall er det en økning på 52 prosent (17 år) og så flater det ut til siste årsintervall som har en median alder ved død på 58 år. Boxplottet viser en trend mot at verdiene samles om medianen mot slutten av undersøkelsesperioden.

I undersøkelsen er det en stor spredning av dataene. Standardavviket (SD) starter på 22,8 år i første årsintervall og øker til 26,4 i årsintervall 1985 – 1989 og så gradvis reduseres til 16,8 år ved siste årsintervall.

Alder ved død fordelt mellom menn og kvinner

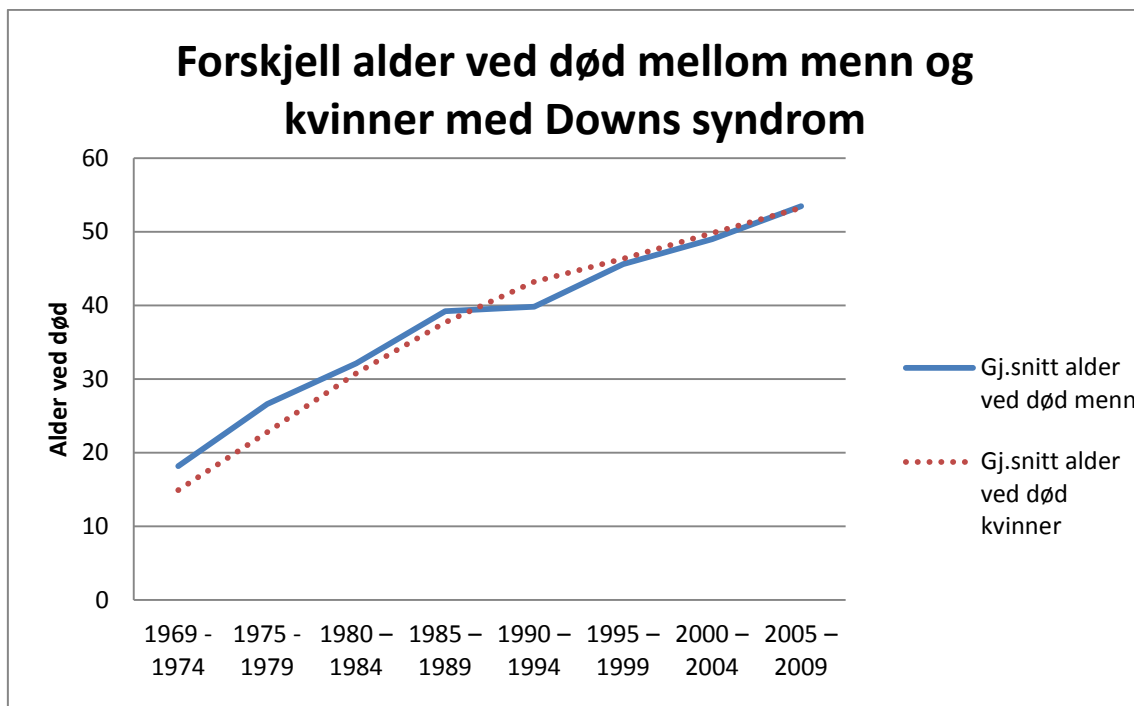
Fordeling mellom kjønnene er nesten lik. Av utvalget på 1659 personer er 842 (50,8 %) menn og 817 (49,2 %) kvinner.

Tabell 2. Gjennomsnittlig alder ved død delt mellom menn og kvinner med Downs syndrom i perioden 1969 til og med 2009. Mannen er referanseverdi for gjennomsnittlig differanse.

Årsgruppe	Kjønn	Mean age at death	t	df	Mean Difference	P-verdi T-test
1969-1974	Mann	18,19	1,134	247	3,272	0,258
	Kvinne	14,92				
1975-1979	Mann	26,64	,972	156	3,837	0,332
	Kvinne	22,81				
1980-1984	Mann	32,16	,348	164	1,388	0,728
	Kvinne	30,78				
1985-1989	Mann	39,23	,389	183	1,516	0,698
	Kvinne	37,71				
1990-1994	Mann	39,85	-,942	214	-3,376	0,347
	Kvinne	43,23				
1995-1999	Mann	45,63	-,226	205	-0,724	0,822
	Kvinne	46,36				
2000-2004	Mann	49,03	-,325	226	-0,813	0,745
	Kvinne	49,84				
2005-2009	Mann	53,51	,103	248	0,221	0,918
	Kvinne	53,29				

For menn med Downs syndrom øker gjennomsnittlig alder ved død med 35,32 år i undersøkelsesperioden. Det vil si en økning på 0,86 år for hvert leveår i samme periode. Økningen i median alder er totalt på 55,5 år

For kvinner med Downs syndrom er økningen på gjennomsnittlig alder ved død 38,37 år i undersøkelsesperioden. Noe som er en økning på 0,94 år for hvert leveår i samme periode: Økningen i median alder er totalt på 57 år.



Figur 6. Forskjell i utvikling av alder ved død i årsgrupper mellom menn og kvinner med Downs syndrom i perioden 1969 – 2009.

Kvinner med Downs syndrom hadde 3,05 år større økning i gjennomsnittlig alder ved død enn menn med syndromet i undersøkelsesperioden. Menn hadde en høyere alder ved død fra start av undersøkelsesperioden og frem til og med 1989, størst de ti første år med opptil 3,83 år. De 15 neste årene, til og med 2004, hadde kvinner noe høyere alder ved død og størst var forskjellen i perioden 1990 – 94 med 3,38 år. Mennene hadde igjen en marginal høyere alder ved død de fem siste årene av undersøkelsesperioden.

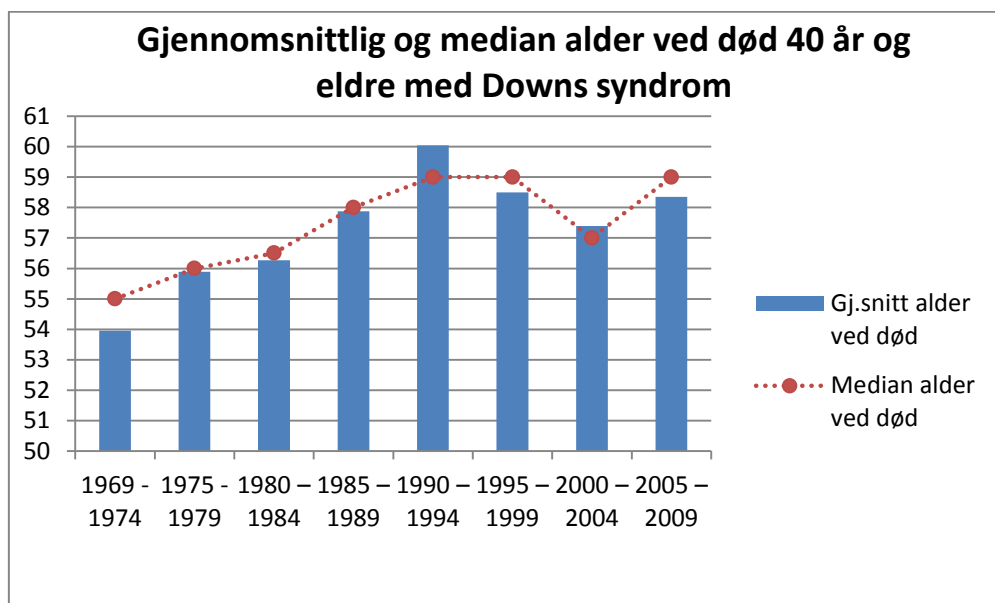
For å se om det var statistisk signifikante forskjeller på alder ved død mellom kjønnene ble det utført en independent samples t-test for utvalget samlet og fordelt i årsgrupper (Tabell 2). T- testen viste ingen statistisk signifikant forskjell mellom menn og kvinner hverken samlet eller for hver årsgruppe.

Alder ved død for alle med Downs syndrom som døde etter fylte 40 år

Tabell 3. Gjennomsnittlig og median alder ved død for alle som er blitt 40 år og eldre med Downs syndrom i perioden 1969 til og med 2009. N=996.

Årsintervall	N	Gj.snitt alder ved død (SD)	95 % CI for gj.snitt	Median alder ved død	Min – maks alder
1969 – 1974	59	53,95 (7,9)	51,90 – 56,00	55,0	40 – 79
1975 – 1979	54	55,89 (7,5)	53,83 – 57,94	56,0	40 – 75
1980 – 1984	78	56,27 (7,6)	54,55 – 57,99	56,5	40 – 78
1985 – 1989	112	57,88 (8,6)	56,26 – 59,49	58,0	40 – 85
1990 – 1994	136	60,04 (8,4)	58,62 – 61,47	59,0	40 – 86
1995 – 1999	150	58,50 (8,3)	57,16 – 59,84	59,0	41 – 86
2000 – 2004	184	57,39 (7,6)	56,28 – 58,49	57,0	41 – 84
2005 – 2009	223	58,35 (7,6)	57,35 – 59,36	59,0	40 – 89

Tabellen viser utviklingen av alder ved død for de som har vokst opp og blitt 40 år og eldre. Målet med tabellen er å se om de som har levd opp blir eldre enn tidligere, økt livslengde, og at det ikke bare er barnedødeligheten som er gått ned.



Figur 7. Gjennomsnittlig og median alder ved død for alle som dør etter fylte 40 år med Downs syndrom i perioden 1969 til og med 2009.

Gjennomsnittlig alder ved død økte fra 53,95 i årsintervall 1969 – 1974 til 60,04 år i årsintervall 1990 – 1994, en økning på 6,09 år. Deretter gikk den noe ned de to neste årsintervaller til 57,39 år i intervallet 2000 – 2004 og steg noe i siste til 58,35 år. Det er stor variasjon i antall personer i hvert årsintervall. I starten av undersøkelsesperioden var det en større andel av de som døde som var under 40 år og dermed langt lavere antall personer med Downs syndrom som vokste opp og ble 40 år og eldre.

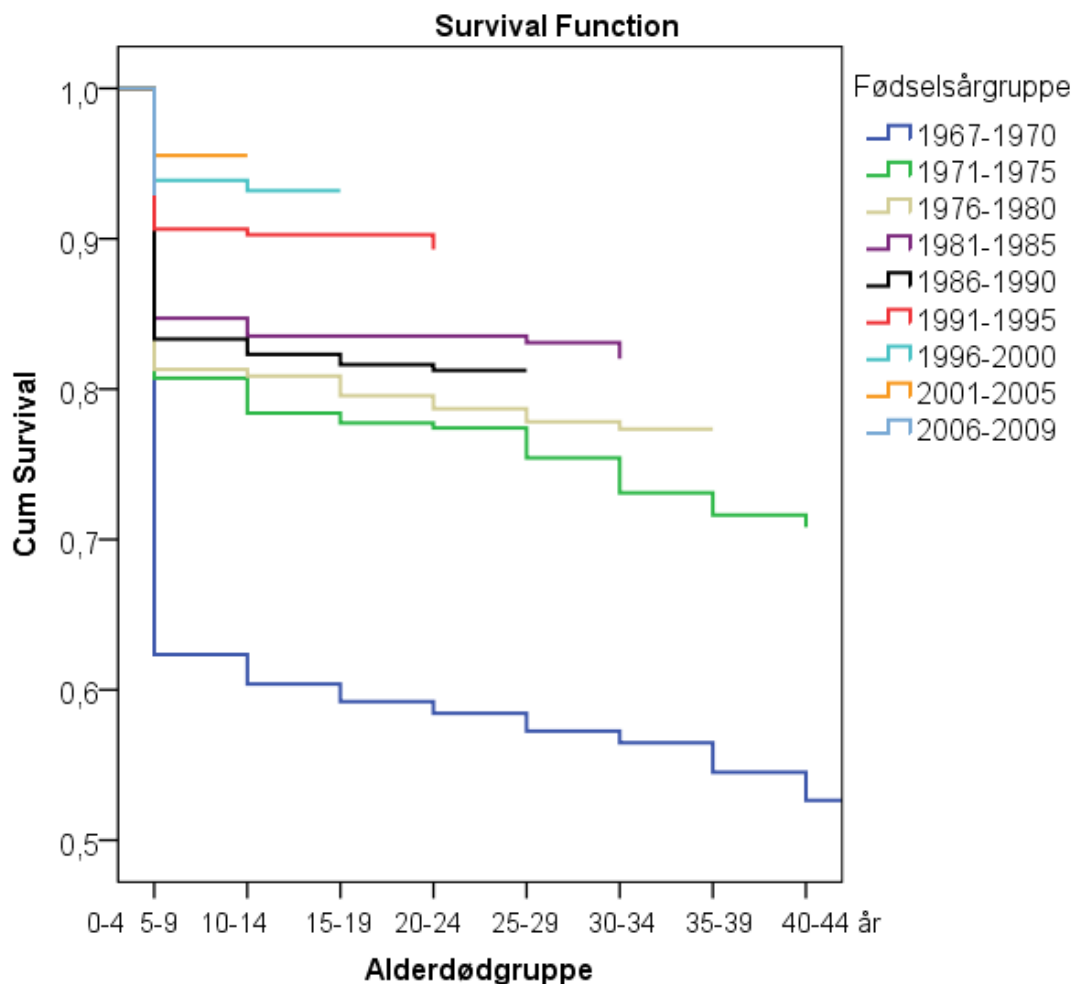
Median alder ved død øker med fire år fra 55 år i første årsintervall til 59 år i årsintervall 1990 – 1994. Deretter med unntak av årsintervall 2000 – 2004 er den stabil på 59 år. I årsintervall 2000 – 2004 reduseres den med to år.

ANOVA test viser en F-verdi på 4,612 og det er en statistisk signifikant ($p < 0,001$) forskjell på alder ved død mellom årsgruppene (Vedlegg 3). Det var kun for de som var født i årsgruppe 2000 – 2004 det ikke var signifikant forskjell mellom noen av de andre gruppene. Om lag tre % av den totale variasjonen kan tilskrives forskjellen mellom gruppene.

Del to – forventet utvikling

Del to i undersøkelsen er en analyse av hvordan vi kan forvente levealdersutviklingen vil bli for personer med Downs syndrom frem til år 2050. Fokus er på de som blir 40 år og eldre. Analysen bygger på de historiske dataene vi har fra Mfr på fødte i perioden 1967 – 2009 og Dødsårsaksregisteret over døde i perioden 1969 - 2009. Fra disse dataene har vi stipulert et fremtidig scenario. Resultatet presenteres først med de reelle fødsels og dødstill. Deretter de tall hvor vi har stipulert utviklingen. Resultatene i del to presenteres samlet for begge kjønn.

Overlevelsesanalyse for perioden 1967 til og med 2009



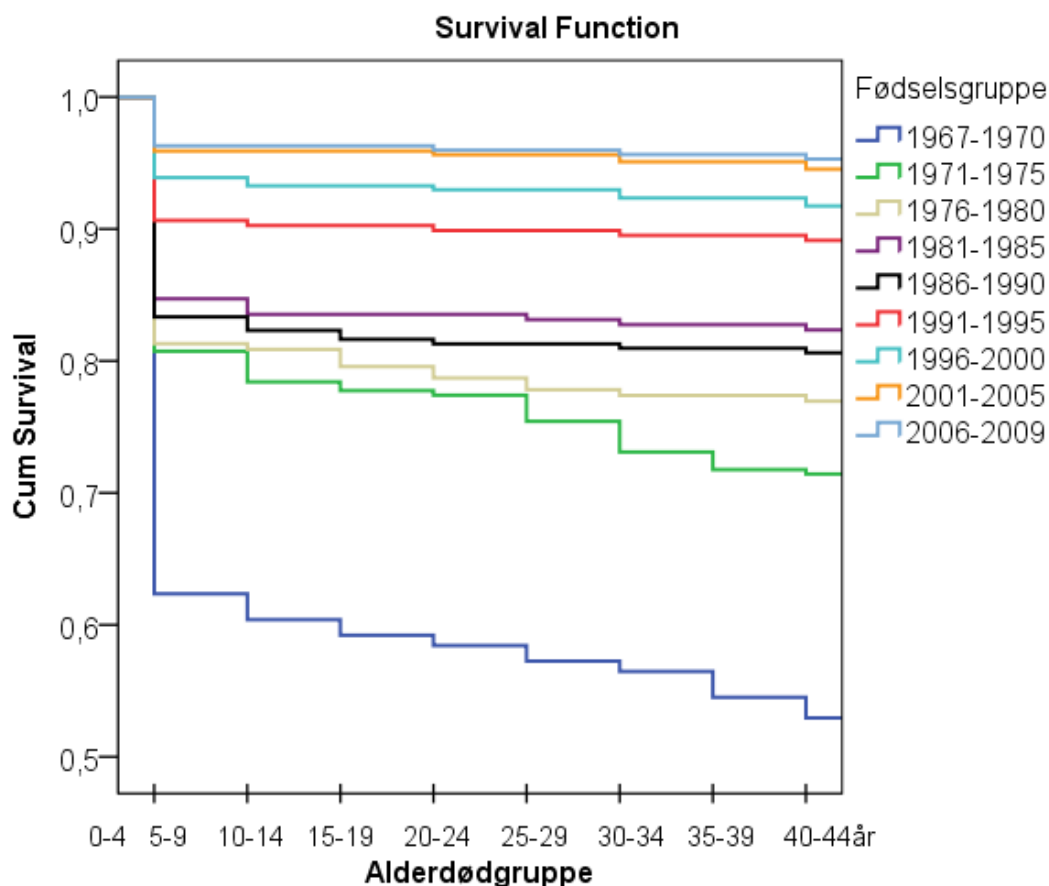
Figur 8. Overlevelse ved ulike fødsels- og aldersintervall for personer med Downs syndrom for perioden 1967 til og med 2009. N= 2593.

Overlevelsesanalysen viser andelen personer med Downs syndrom som lever ved en gitt alder ved de forskjellige fødselsgruppene. I denne delen har vi tatt med alle som er født fra 1967 for å få et størst mulig aldersspenn, slik at vi kan få best mulig grunnlag til å beregne fremtidig forekomst. Det totale aldersspennet i undersøkelsen blir med dette 43 år og det er 2593 individer i datagrunnlaget. Dødeligheten i de to årene (1967 og 1968), før Dødsårsaksregisteret ble etablert i 1969, er beregnet med forutsetning at dødeligheten var lik gjennomsnittet for de fem første årene etter oppstart av Dødsårsaksregisteret.

For de som var født i perioden 1967 – 1970 blir 52 prosent 40 år eller eldre. For denne aldersgruppen var det stort frafall de fire første leveår og det var 62 prosent som ble fem år eller eldre. For neste fødselsårsgruppe var det en større overlevelse og 19 prosent flere overlevde de fem første leveår. Dette ser vi også igjen ved andelen som blir 35 til 39 år og eldre med en overlevelse på 71 prosent, som er 18 prosent høyere enn den første fødselsgruppen. Andelen som blir fem år og eldre øker til en topp for årskullet som ble født mellom 2001 – 2005 med 96 prosent. I det siste årskullet, 2006 – 2009 er andelen redusert med tre prosent. For undersøkelsesperioden fra start til slutt er det en økning på 31 prosent for de som blir fem år eller eldre. Dette gir tilsvarende høyere overlevelsesrate for hvert fødselskull i perioden vi kan følge hvert kull. Det er to fødselsgrupper som skiller seg noe ut. Det er fødselskullet fra 1986 – 1990 og som tidligere nevnt 2006 – 2009, hvor andelen som overlever de første fire årene er lavere enn det foregående fødselskullet. Noe som også forplanter seg videre til slutten av perioden vi kan følge hvert kull.

Forventet utvikling frem til 2050

For å stipulere forventet utviklingen frem til 2050 har vi tatt utgangspunkt i life table matrisen til overlevelsesanalysen ovenfor. Med denne som grunnlag har vi stipulert hvor mange som vil bli 40 år og eldre for alle fødselskullene i undersøkelsesperioden. Det vil si at for de som er født i det første fødselsintervallet fra 1967 - 1970 er det reelle data og viser faktisk hvor mange som i dag er blitt 40 år og eldre. For det neste fødselsintervallet har vi faktiske tall frem til de blir 35 år. Stipulering av forventet utvikling frem til de blir 40 år er gjort ved å beregne andelen som overlever fra det siste aldersintervallet (death/at risk) til fødselskullet foran. For neste fødselskull er det stipulert for de som blir 30 år og eldre ved å gjøre samme prosedyre som ovenfor, men da med to aldersintervaller 30 - 34 år og 35 – 39 år. Slik fortsatte vi for alle fødselskullene, og på det siste fødselsintervallet fra 2006 – 2009 er kun det første aldersintervallet reelle data, mens resten er stipulert. På grunnlag av dette beregnet vi andelen som ble 40 år og eldre i 2050.



Figur 9. Stipulert overlevelse ved ulike fødsels- og aldersintervall for personer med Downs syndrom frem til 2050. N=2593.

I overlevelsesanalysen ble utviklingen i de første leveårene beskrevet, og de er de samme for denne delen av analysen. Her vil vi fokusere på de som blir 40 år og eldre. I første fødselsgruppe vil 52 prosent leve opp og bli 40 år og eldre, og det er som nevnt reelle data. I neste fødselsgruppe gjør andelen et merkbart hopp og 70 prosent vil trolig oppnå 40 år. Til tredje fødselsgruppe fra 1976 – 1980 kan det også forventes en betydelig økning med ytterligere seks prosent. Vi kan derfor forvente at mellom 2016 og 2020 vil 76 prosent av de som ble født i fødselsintervallet oppnå å bli 40 år, noe som er en økning på 24 prosent fra 2010. For den neste fødselsgruppen er overlevelsen 81 prosent, mens den trolig vil gå tilbake for fødselsgruppen mellom 1986 – 1990 til 79 prosent og så er det en gradvis økning frem til 2050 hvor vi kan forvente at 94 prosent av de som ble født i 2009 vil bli 40 år.

ANOVA testen viser en klar trend og det er en tydelig økning for andelen fra hver fødselsgruppe som vil bli 40 år og eldre for hele framskrivingsperioden (Vedlegg 4). Trenden for hele undersøkelsesperioden er statistisk signifikant ($p < 0,001$) og effektberegning (Eta-squared) viser at om lag ti % av den totale variasjonen kan tilskrives forskjellen mellom gruppene. Post hoc testen Tukey HSD viser en gradvis reduksjon av forskjellen mellom fødselskullene fra start av undersøkelsesperioden og

frem til 1991, men de er statistisk signifikante. Deretter er det fortsatt en økning, men den er ikke statistisk signifikant.

I Tabell 4 er datagrunnlaget fødselstallene fra Mfr over antall levendefødte med Downs syndrom. Med unntak av første og siste fødselsgruppe med fire årskull, er resten samlet i fem års grupper og beregnet antall personer med Downs syndrom som forventes å bli 40 år og eldre. Faktoren er den prosentvise andelen som kom frem av den stipulerte overlevelsesanalysen fra Figur 9.

Tabell 4. Prognose for de som blir 40 år og eldre med Downs syndrom frem til 2050

Fødselsår	Andel som blir 40 år og eldre i %	Antall som blir 40 år og eldre
1967-1970	52	133
1971-1975	70	211
1976-1980	76	175
1981-1985	81	207
1986-1990	79	232
1991-1995	88	235
1996-2000	91	298
2001-2005	93	340
2006-2009	94	280

DISKUSJON

Historisk levealdersutvikling

Histogrammene, levealdersutviklingen målt i median alder og overlevelsesanalysen viser tydelig at det har vært en dramatisk nedgang i spedbarnsdødeligheten og tilsvarende økt levealder. Dette er også godt dokumentert i flere internasjonale undersøkelser (Haveman 2004, Maaskant et al. 2002, Torr et al. 2010, Yang, Rasmussen og Friedman 2002). Undersøkelsen viser en betydelig levealdersutvikling på en relativt kort tidsperiode, og årsaken til den positive utviklingen har skjedd i de første leveår. For alle levendefødte har alder ved død økt med gjennomsnittlig 0,92 år for hvert år i hele undersøkelsesperioden.

Levealdersutviklingen for de som har blitt 40 år og eldre er positiv for deler av undersøkelsesperioden og alder ved død økte med et kvart år for hvert år frem til og med 1994. Fra 1995 er det en nedgang på om lag en tiendedel hvert av de siste 15 årene (Tabell 3). Dette viser en tydelig trend med at det er flere som lever opp, men de som lever opp blir ikke eldre enn tidligere. Variasjonen i alder ved død mellom aldersgruppene var statistisk signifikant, men effektutregningen viste at forskjellen kun var på tre prosent. Det er (Ellis 2010) en liten forskjell og understøtter at alder ved død nesten har stått stille for de som har levd opp og blitt 40 år og eldre. I befolkningen generelt har det vært en økning av levealderen som følge av lavere dødelighet i alle aldersgrupper (Brunborg 2008). Mye tyder på at personer med Downs syndrom har med den medisinske kunnskap vi har per i dag, oppnådd et tak på levealdersutviklingen. Flere internasjonale undersøkelser viser samme trend. De kan vise til en utflating av levealdersutviklingen og forventer at dette er en utvikling som opprettholdes i tiden fremover (Day et al. 2005, Torr et al. 2010). Vi kan derfor ikke forvente en like positiv utvikling som vi har sett siden 70-tallet og frem til i dag. Men det er også undersøkelser som trekker en annen slutning. Coppus (2013) mener bedre forståelse av de underliggende nevrokjemiske, biokjemiske og nevropatologiske prosessene, som kan være en årsak til Alzheimer's sykdom hos personer med Downs syndrom, kan føre til en økning av livslengde og livskvalitet. Denne undersøkelsen kan ikke trekke en slik slutning.

I overlevelsesanalysen med de reelle data som ligger til grunn for framskrivningen (Figur 9), kan vi se at de som ble født i perioden fra 1967 til og med 1980 har en litt dårligere overlevelseskurve for hele livsløpet, enn de som er født i perioden 1981 til 2009. I den første perioden hadde alle årstrin en dramatisk økning i overlevelse de første leveår. Men etter dette var det en trinnvis nedgang i overlevelse for alle aldersgrupper. For den siste perioden var overlevelsen de første leveår høyere og den fortsetter å holde seg høy i hele undersøkelsesperioden. I undersøkelsen skiller spesielt de første årene frem til 1974 seg ut med en meget høy spedbarnsdødelighet. Median alder er bare ett år og gjennomsnittlig levealder er 16,57 år, med det laveste for 1969 med 11,67 år. Undersøkelsen har et hovedfokus på den eldre gruppen og har derfor ikke gått nærmere inn på spedbarnsdødeligheten, og hvorfor dødeligheten var så ekstremt høy i begynnelsen av perioden. Det er kjent at nyfødte med Downs syndrom har en overhyppighet av medfødt hjertefeil og gastrointestinale misdannelser (Vik, Borthne og Johansen 1999), men hvorvidt dette spiller inn her kommer ikke frem av datagrunnlaget.

Undersøkelsen viser en trinnvis nedgang i overlevelseshaster i det midtre aldersspennet (15 til 45 år) for perioden fram til 1980, for så å holde seg mer stabil i den siste delen av perioden. For hele undersøkelsesperioden er det en stor nedgang i overlevelseshastene fra cirka 45 til 70 år, hvor den største delen av personer med Downs syndrom dør. I midt stadiet viser undersøkelser at personer med syndromet har en fire ganger så høy dødelighet som personer med en annen årsak til utviklingshemning. Hovedårsaken til død i denne perioden i livet er hjerte- og karsykdommer, luftveissykdommer og kreft. Dette er likt både for personer med Downs syndrom og personer med utviklingshemning av annen årsak (Esbensen, Seltzer og Greenberg 2007, Patja, Molsa og Iivanainen 2001). For den siste delen av livet er demens og mobilitetsproblemer den

største risikofaktoren for død. Noe som skiller seg fra befolkningen og andre med utviklingshemning, hvor hjerte- og kar sykdommer og kjønn er største risikofaktor for død (Coppus et al. 2008).

Utfordringene med å sammenligne denne undersøkelsen med andre undersøkelser fra sammenlignbare land er mange. Det er metodiske forskjeller som utvalgenes størrelse, forskjell i valg av statistiske metoder, forskjell i inndeling av alder og aldersgrupper, etiologisk årsak til syndromet, grad av utviklingshemming, ulike tidsperioder og lengde, forskjellige og blandede boforhold med mer. Vi finner ingen direkte sammenlignbar studie. For noen kan vi gjøre sammenligninger for deler av undersøkelsesperioden, mens for andre kan vi sammenligne trender og utvikling.

Friedman (2001) og Yang (2002) har gjennomført to store amerikanske populasjons undersøkelser med henholdsvis 33 836 og 17 897 personer som er identifisert med Downs syndrom i et nasjonalt dødsårsaksregister. Undersøkelsen dekker perioden 1968 til og med 1997. De kan dokumentere en levealdersutvikling som viser en median alder ved død på ett år i 1968, 25 år i 1983 og 49 år i 1997. For denne undersøkelsen viser median alder ved død i Norge samme verdi ved start i 1969, men er åtte år høyere i 1983 og fem år høyere i 1997. Maaskant (2002) utførte i perioden 1991 – 1995 en undersøkelse i Nederland med 4 272 personer med Downs syndrom som viser en forventet levealder på 51 år. I samme tidsperiode viser denne undersøkelsen om lag 42 år. Glasson (2003) viser fra en populasjonsstudie i Australia en median alder på opptil 61,1 år i år 2000, noe som er 6,1 år høyere enn det var i Norge. En undersøkelse fra California for perioden 1988 - 1999 viser en forventet levealder på 55,5 år (Day et al. 2005) og det er hele 12,6 år høyere enn hva vi ser i denne undersøkelsen for samme tidsperiode. Vi kan ikke finne levealdersstudier med data etter år 2000 som vi kan sammenligne med. Det er vanskelig å trekke noen konklusjoner fra disse sammenligningene siden de spriker mye, men det er en trend. I starten av undersøkelsesperioden var det like lav levealder i Norge som det var i andre land. Senere har levealdersutviklingen vært betydelig mer positiv i andre land enn det har vært i Norge. Men det er store variasjoner mellom undersøkelsene og ulik metodisk tilnærming.

Ved 40 år er det påvist store nevrobiologiske endringer hos personer med Downs syndrom (Mann 1988). Undersøkelsen ser ikke på årsaker til død, men viser tydelig at det er store endringer i levealdersutviklingen de neste ti leveårene. Internasjonalt er det enighet om at fra 40 års alder bør en ha et ekstra øye for økt risiko for sykdommer og slitasje (Prasher 2005, Torr et al. 2010). Ved dette tidspunktet bør miljøene rundt den enkelte sikre at de har gode rutiner til å følge opp helse og mestring av adaptive ferdigheter. Helseforebyggende og helsefremmende tiltak bør starte i god tid før dette.

I et historisk perspektiv har levealderen for personer med Downs syndrom i Norge i dag krysset levealderen som var i den norske befolkningen på 1860-tallet (Statistisk sentralbyrå 2011). Dette var victoriatiden og samme tidsepoke hvor Darwin beskrev sin evolusjonsteori og Langdon Down beskrev Downs syndrom for første gang (Down 1995). Levealdersutviklingen vi ser hos personer med Downs syndrom de siste 40 år er

den samme levealdersutvikling den norske befolkning oppnådde på 1 000 til 1 200 år, fra vikingetiden i tidlig middelalder og frem til i dag (Alnæs 1996).

Andelen levendefødte med Downs syndrom er en på 954 levendefødte. Dette er i nedre sjikt sammenlignet med andre vestlige land, hvor andelen er fra en på 650 til 1000 (Bittles et al. 2007, Cocchi et al. 2010, Yang, Rasmussen og Friedman 2002). Det var stor variasjon i antall levendefødte mellom årsintervallene i hele undersøkelsesperioden. Svingningen var både statistisk signifikant ($p < 0,004$) og stor (Ellis 2010) hvor 47 % av total variasjon kan tilskrives forskjell mellom gruppene. Forekomsten av Downs syndrom har sammenheng med mors alder ved fødsel og har økt svakt fra 1969 og frem til 2004. Etter dette har fødselsraten vært litt fallende, selv om antallet fostre som er diagnostisert med syndromet er stigende. Årsaken til dette kan være at det er flere kvinner som er over 35 år når de føder barn. I dag er hver femte fødende kvinne over 35 år og gjennomsnittlig alder ved fødsel har økt fra 25,2 år i 1986 til 30,4 år i 2012 (Folkehelseinstituttet 2013). Internasjonalt erfares en tilsvarende trend (Cocchi et al. 2010). Ved økt alder er det økt risiko for å få et barn med kromosomavvik og Downs syndrom. I dag tilbys fosterdiagnostikk til gravide som enten er 38 år eller eldre ved termin, til par som tidligere har fått barn med alvorlig sykdom eller utviklingsavvik, der det kan påvises økt risiko for alvorlig sykdom hos fosteret, eller hvis mor bruker medisiner som kan skade fosteret. Ved påvist kromosomavvik kan det søkes om svangerskapsavbrudd.

I det siste er det kommet en debatt om å benytte en ny og ikke-invasiv metode med en blodprøve og ultralyd som vil være mindre risikofylt og vil gjøre det enklere å foreta fosterdiagnostikk. Hvorvidt denne debatten vil påvirke aborttallene er ikke kjent, men kan trolig få konsekvenser for fremtidig antall fødte barn med Downs syndrom. Dette har skjedd i Danmark, hvor antall nyfødte med syndromet ble halvert umiddelbart etter innføring av en ny nasjonal screeningstrategi i perioden 2004 til 2006 (Ekelund et al. 2008). Det lave fødselstallet har fortsatt å synke. Siste år med statistikk over fødte fra Mfr er fra 2012 og den viser at det i Norge ble født 46 levendefødte med syndromet, som tilsvarer 7,5 fødte per 10 000 fødsler. Det er en betydelig nedgang fra de foregående år. Men i 1992 og 1994 var det også enkeltår med store dropp i antall fødte med syndromet, hvor antall fødte var 6,8 og 7,2 per 10 000 fødte. Det er derfor for tidlig å trekke en konklusjon om at dette er en trend. Nevnte nedgang vil uansett ikke ha noen betydning for denne undersøkelsen, siden den stopper i år 2009.

Forventet levealdersutvikling

Framskrivning av levealdersutviklingen er den delen av undersøkelsen som har vært mest utfordrende rent metodisk. Så langt er det ikke identifisert undersøkelser med metodebeskrivelser som kan anvendes til denne studien. Nivået på oppgaven må også tas i betraktning når det skal velges statistisk metode. Derfor er det brukt alternative metoder og foretatt prosjekteringer av en fremtidig utvikling med ekstrapoleringer ut fra gitte forutsetninger. Framskrivning av populasjoner bygger på historisk utvikling og legger inn prognoser for fremtidige rater av dødsfall, fruktbarhet, innenlandsk flytting

og netto innvandring (Brunborg 2004). Downs syndrom er en populasjon som ikke reproducerer seg selv, og ved innflytting til Norge er det usikkerhet om personer med syndromet blir registrert for tilstanden. Innenlandsk flytting kan vi kontrollere for siden det er et nasjonalt utvalg i studien. Det er en populasjon hvor det har skjedd en rekordrask endring i overlevelse, men samtidig er det i tiden fremover stor usikkerhet om antallet nyfødte vil synke drastisk. Fluktuasjon i populasjonens størrelse både i fortid og kanskje i fremtid skaper metodiske utfordringer. Det er ingen stabil populasjon over tid og det er kun et kort tidsbilde fra de siste årene hvor levealdersutviklingen har vært stabil, og som kan gi en viss validitet i framskrivningen. Den fremtidige prognosen på levealdersutvikling kan derfor være skjør, men det er dette grunnlaget vi har å bygge på.

Årsaken til at år 2050 er valgt som et endepunkt for framskrivningen har både en utvalgsforklaring og en samfunnsmedisinsk forklaring. Det er en begrensning i registrene siden disse ble etablert for litt over 40 år siden. Med vår metode er vi avhengig av å bygge på et løp som er like langt tilbake i tid, som vi skal prosjektere frem i tid. Den andre viktige årsaken er som tidligere nevnt usikkerheten rundt hva som skjer med antallet nyfødte og en videre framskrivning ville bygge på for mange usikre antagelser. I den norske samfunnsdebatten er det også stort fokus på hvordan norske myndigheter planlegger fremtidens eldreomsorg hvor mange av kalkylene går frem til 2050. Demografiske data som denne undersøkelsen frembringer vil også kunne være viktige innspill til en slik planlegging og debatt.

De nærmeste årene gir de sikreste prognosene og jo nærmere vi kommer 2050, jo mer usikre blir prognosene som bygger på større grad av stipulerte data. I dag kan vi forvente at om lag 52 prosent av de som ble født for 40 år tilbake har vokst opp og er blitt 40 år. De seks neste årene vil denne andelen øke med 24 prosent poeng og det er en betydelig økning. Siden storparten av grunnlaget for framskrivningen i denne perioden bygger på reelle data og lite stipulering, antar vi dette er en prognose som vil skje med stor sannsynlighet. Det forventes også en økt andel eldre i befolkningen i denne perioden og slik sett er ikke dette noe unormalt. Men årsaken er vidt forskjellig. I befolkningen generelt er det følger etter de store fødselskullene etter krigen, men for personer med Downs syndrom skyldes det nedgang i spedbarnsdødelighet. Videre frem til 2009 så kan man forvente at 94 prosent av de som ble født dette året vil bli 40 år og eldre. For hele undersøkelsesperioden øker andelen som vil nå 40 års alder med en prosent for hvert år. Statistisk er denne økningen signifikant og middels stor, 10 prosent, jamfør klasseinndeling av effekt størrelse beskrevet av Ellis (2010).

Prognosene tyder på en gradvis økning for hvert år, med unntak for de som er født mellom 1986 og 1990. For dette fødselskullet var det en høyere dødelighet det første leveåret enn fødselskullene før og etter. Dette forplanter seg videre i livsløpet og fører til en liten nedgang i antallet som lever opp og blir 40 år. Det er vanskelig å finne en direkte årsakssammenheng til denne nedgangen, men det er hendelser som var i dette tidsrommet som bør nevnes. I april 1986 skjedde kjernekatastrofeulykken i Tsjernobyl, Ukraina. Dette er et godt stykke unna Norge, men vi ble berørt og det kom radioaktivt nedfall over store områder i Norge. Det har fått konsekvenser for jordbruksnæringen ved at radioaktive stoffer har kommet i næringskjeden. Men det som kanskje kan være

mest sentralt i denne sammenheng er at Mfr i Norge registrerte en liten forbigående nedgang i fødsler etter ulykken. Om dette skyldes økt angst for å bli gravid eller et økt antall tidligaborter er usikkert. Nedgangen er ikke statistisk signifikant (Wium, Lund og Reitan 2007). Vi vet ikke om det har hatt noen spesiell effekt på fostre og nyfødte med Downs syndrom, men det kan tenkes at de er ekstra sårbare for miljøpåvirkninger. I årsintervallet 1991 - 1995 er det også en merkbar nedgang fødte med Downs syndrom fra 10,4 til 8,9 per 10 000 fødte (Figur 1). Det var i denne perioden hvor ansvarsreformen ble forberedt og etablert. Det kan ha fått konsekvenser for de som skulle gi spesialiserte helsetjenester til personer med utviklingshemning. Personer med utviklingshemning skulle etter ansvarsreformen få helsetjenestene fra det ordinære helsetilbudet. For disse tjenestene var utviklingshemmede en ny gruppe. Det kan ha vært manglende kunnskap eller ansvarslinjer som har ført til økt dødelighet i de første leveårene. Som nevnt tidligere er dette også en periode hvor de er ekstra utsatt for blant annet hjertefeil.

Ut fra andelen levendefødte med Downs syndrom i undersøkelsesperioden og andelen som vil leve opp til de blir 40 år, har vi kunnet lage en tabell som viser hvor mange dette blir fra hvert fødselskull. Det øker fra 33 personer fra fødselskullene før 1970 til 70 personer hvert år for de som fødes etter 2006. I antall personer blir det over en fordobling fra i dag som i 2050 kan forvente å bli over 40 år. Antallet kan være noe lavere enn de reelle tallene, siden undersøkelsene om validiteten til Mfr registeret viser at de ikke klarer å registrere alle nyfødte med Downs syndrom. Feilmarginen var økende jo nærmere en kom opprettelsen av registeret i 1967.

Økningen i andelen som vil leve opp til å bli 40 år er signifikant for hele undersøkelsesperioden. Når vi analyserer hvert fødselskull, så er økningen signifikant mellom alle gruppene frem til 1991. Det er i disse årskullene hvor nedgangen i spedbarnsdødeligheten har vært størst og det er en naturlig forklaring på de store forskjellene. En viktig forutsetning for å analysere ANOVA og forskjellene mellom gruppene er at dataene bør være innenfor en normalfordeling. Det vil si pluss/minus en. For hele utvalget og for fødselsgruppene frem til 1995 er verdiene innenfor normen og det styrker resultatet for at det er statistisk signifikante forskjeller mellom fødselsgruppene i den første halvdel av utvalget.

Det er et problem med å sammenligne vår undersøkelse med andre internasjonale undersøkelser, siden det ikke er noen konsensus på metode og fremgangsmåte i demografiske undersøkelser for personer med utviklingshemning. Det burde derfor bli initiert et internasjonalt arbeid med å drøfte metodeutvikling for slike undersøkelser. Vi ville da få et mye bredere og statistisk sikrere materiale til å predikere fremtidig utvikling, samt evaluere effekt av større nasjonale programmer og folkehelsetiltak.

Forskjeller mellom kjønnene

I de fleste land er levealderen høyere for kvinner enn for menn. Dette gjelder generelt i befolkningen (Brunborg 2008) og det samme ser en hos personer med

utviklingshemning med en annen årsak enn Downs syndrom (Glasson et al. 2003). For personer med Downs syndrom ser det ut som det er et annet bilde. Fra starten av undersøkelsen og frem til 1990 var alderen ved død noe lengre for menn, med 3,8 år på det meste. Så var det et skifte i 1990 hvor kvinnene de neste 15 årene levde lengre før mennene igjen de siste fem årene har hatt en marginal høyere alder ved død. Spesielt i årene mellom 1990 og 94 var det et markert skifte hvor kvinnene hadde en alder ved død som var 3,4 år høyere. Hva det skyldes vet vi ikke og forskjellen var etter en t-test ikke signifikant. Når vi sammenligner med andre land ser vi forskjellige resultater og det er ikke et entydig funn det vi finner i vår undersøkelse. Undersøkelsen Yang (2002) gjorde i USA viser det motsatte og kvinner hadde en litt høyere alder ved død. Glasson (2003) sin undersøkelse fra Australia har samme resultat som våres, med at menn lever over kvinnene med i gjennomsnitt 3,3 år.

Metodediskusjon

Drøfting av validitet og reliabilitet

Det er tre faktorer som kan påvirke undersøkelsens validitet. Det er 1) *bias*, metodefeil eller vurderingsskjevhet, 2) *konfundere*, faktor som er relatert både til eksponeringen og til utfallet og 3) tilfeldige feil (*random errors*). En utfordring med registerundersøkelsen er å kontrollere for mulige feil, siden dataene bygger på registre hvor vi ikke kan gå inn og gjøre kvalitetssjekk på det som er registrert.

Feilkildene i Dødsårsaksregisteret kan være mange og skyldes formelle, logiske og juridiske årsaker. Det er flere undersøkelser og artikler som dokumenterer mangler ved registeret. Informasjons bias på grunn av legenes registreringer eller manglende registreringer nevnes oftest som hovedårsak til feilkildene (Glatte og Blix 1980, Rogde 2009, Tyrer og McGrother 2009). Årsakene til dette kan være selve dødsårsaksundersøkelsen med diagnose setting og rapportering på dødsmeldingene (Nordrum 2004, Nruham og Mehlum 2010). Dette viser seg også i forsinkelsene ved publikasjon av statistikk på grunn av manglende innsending av dødsmeldinger (Reseland 2009). For de personene, hvor det etter gjentatte purringer til legene ikke foreligger dødsårsak, blir disse registrert med ukjent dødsårsak. Andre feil kan skyldes tolkning av dødsmeldingsteksten og ved tastefeil. Det er sannsynlig at slike feil er tilfeldige og ikke vil gi systematiske feil i denne studien. Det vil si at de ikke vil påvirke konklusjonene, men kan gi noe økt usikkerhet.

Missing cases kan være at personer med Downs syndrom ikke står registrert med ICD koden for Downs syndrom i Dødsårsaksregisteret, hverken som hoved eller underliggende dødsårsak. De kan for eksempel ha omkommet i en ulykke og er kodet for dette. Downs syndrom er i seg selv ikke en dødsårsak og per definisjon skal det kun registreres den sykdom, skade eller ytre omstendighet som direkte leder til eller er årsaken til dødsfallet. Hvor mange dette kan være er ukjent. Det foreligger ingen undersøkelser vi kjenner til om utvalgsfeil for gruppen Downs syndrom. Men for andre

diagnosegrupper er dette rapportert (Rogde 2009). I datagrunnlaget fra Dødsårsaksregisteret er det utlevert koder for årsak til død fra deler av undersøkelsesperioden. Disse dataene er ikke analysert, men det er gjort en opptelling av hvor mange som hadde Downs syndrom som underliggende dødsårsak. For perioden 1986 til og med 2009 utgjorde dette hele 51,4 prosent av tilfellene. Downs syndrom er noe de dør med og ikke av. Det kan også være en systematisk feil at vi ikke fanger opp de friskeste, som ikke blir registrert med diagnosen Downs syndrom ved død. Eller de med svake kjennetegn/symptomer på Downs syndrom ved fødsel og derved ikke blir registrert med syndromet i fødselsmeldingen. Utvalget i undersøkelsen er samtlige registrert med Downs syndrom fra hele landet og ut fra antall fødte og døde, vurderer vi feilene som tilfeldige og at de ikke vil påvirke resultatet av levealdersutviklingen.

Konfidensintervallet (CI) hadde vært av større betydning hvis det hadde vært ett statistisk utvalg av populasjonen Downs syndrom som hadde blitt analysert. I denne undersøkelsen vil den statistiske usikkerheten være mindre enn det som fremkommer av konfidensintervallet på grunn av endelig populasjon. Dog vet vi at registrene ikke identifiserer alle med Downs syndrom, men vurderer dette som tilfeldig og vil trolig ikke påvirke resultatet. Selv om dette per i dag er tilnærmet hele populasjonen med Downs syndrom, er det kun en del av en fremtidig populasjon av personer med Downs syndrom, hvilket motiverer for bruk av statistiske usikkerhetsmål. Studien predikerer også en fremtidig utvikling på hvordan vi kan forvente overlevelsen vil bli og da mener jeg usikkerhetsmålene og hypoteseanalysene er relevante.

Det er utført undersøkelser som har kartlagt om registreringene i Mfr er valide og om registeret fanger opp alle som fødes med syndromet. Den første undersøkelsen viste at for perioden 1967 til 1976 ble 72,2 prosent av fødte med Downs syndrom identifisert i Mfr. Årsaken til at de ikke fanger opp alle kan være omfanget av foster indiserte aborter, uensartet diagnostikk, varierende meldefrekvens og mangelfull registrering (Bjerkedal og Kristensen 2007). En undersøkelse så på barn født i Hordaland i perioden 1985 til 1988 og viste at 60 prosent av de fødte med syndromet ble fanget opp av registeret. Dataene fra denne undersøkelsen bygger på etablering av et dobbelt eller parallelt register som ble etablert i Hordaland i en fire års periode (Lie, Heuch og Irgens 1994). Den siste undersøkelsen så på alle fødte i årene 2001 til 2005 og fant en tilfredsstillende sensitivitet med 81,6 prosent identifisering av alle klinisk verifiserte tilfeller med Downs syndrom i Mfr. Sensitiviteten var noe høyere for eldre mødre som fødte barn med syndromet, noe høyere for levendefødte enn dødfødte og det var regionale forskjeller (Melve et al. 2008).

En analyse over mulige missing cases i datamaterialet til denne undersøkelsen viser at Mfr og Dødsårsaksregisteret mangler registreringer på personer med Downs syndrom i sine respektive registre. Siden personene er aidentifisert kan vi kun matche personene på år født, år død og kjønn for de som er født og døde i perioden 1969 til og med 2007. I det koblede datasettet er det 365 personer, mens det er 473 personer i Dødsårsaksregisteret. Det vil si at det er registrert 108 (22,8 %) færre personer med Downs syndrom i Mfr registeret. Når vi går inn og matcher enkeltregistreringer finner vi manglende registreringer i begge registre, og det vil si at det er personer registrert med Downs syndrom i fødselsregisteret som ikke er registrert i dødsårsaksregisteret og

motsatt. Forskjellen er størst i begynnelsen og trenden er en gradvis sammstemmighet mellom de to registrene, men med noen unntak, eksempelvis i 1999 og 2000.

Årsak til forskjellene i registrene kan spesielt i begynnelsen av undersøkelsesperioden være slik som Bjerkedal og Kristensen (2007) dokumenter i sin studie med feil eller manglende registrering. Det bør også være med i vurderingen at Mfr var nyopprettet i 1967 og kunnskap og rutine om registreringen trolig ikke var godt nok etablert så tidlig i registerets historie. Videre er det koblete datasettet en bestilling til registereierne og om det har skjedd en feil i kodingen/koblingen av registrene er vanskelig å vurdere, siden vi ikke har tilgang til de personidentifiserte dataene. Men det burde være en ukomplisert kobling og vi vurderer det som lite sannsynlig som årsak til missing cases.

Med spesiell vekt på den siste undersøkelsen til Melve (2008) med tilfredsstillende sensitivitet, og utviklingen vi ser siden starten av registeret, så viser registreringene i Mfr en tilfredsstillende validitet med en økt kvalitet på registreringene. Det er ikke dokumentert noen systematiske feil som kan påvirke resultatene av undersøkelsen. Størrelsen på undersøkelsens utvalg vurderer vi som tilfredsstillende og ved å samle utvalget i fem års grupper mener vi resultatet av analysens del en med historisk levealdersutvikling ikke blir påvirket av missing cases. For del to med forventet levealdersutvikling tror vi heller ikke missing cases vil påvirke resultatet med den prosentvise andelen av de med Downs syndrom som blir 40 år, men trolig vil antallet som blir 40 år og eldre være noe lavere enn hva som hadde fremkommet hvis en kunne gjøre en fullverdig folketelling.

Det er ikke identifisert mulige konfundere. I datagrunnlaget kan vi ikke skille ut hvilke variant av type Downs syndrom det enkelte individ hadde. Av de fire ulike variantene av syndromet, er det kun Mosaikk Downs syndrom hvor utviklingsforstyrrelsen er noe mindre uttalt. I og med at over 90 prosent av de med Downs syndrom har typen Trisomi 21 (Prasher 2005), tror vi ikke dette vil gi utslag på resultatene. Det er ikke funnet undersøkelser som viser forskjell på levealder mellom de ulike typene.

Undersøkelsens nytte- og generaliseringsverdi

For samfunnsplanleggere lokalt og nasjonalt er det viktig med gode demografiske data og oversikter, slik at de kan planlegge å legge til rette for endringer som vil komme i befolkningen. Personer med Downs syndrom utgjør ikke en stor andel av befolkningen, men det er en ressurskrevende gruppe som krever forholdsmessig større andel av kommunenes helse- og omsorgsbudsjetter. Framskrivninger av denne og tilsvarende populasjoner blir derfor viktige grunnlag i samfunnsplanleggingen. På nasjonalt nivå er det viktig med demografiske data for denne og andre sårbare grupper når myndighetene skal fylle planene i fremtidens eldreomsorg med praktiske tiltak.

I den norske samfunnsdebatten er det stort fokus på hvordan norske myndigheter planlegger fremtidens eldreomsorg hvor kalkylene går frem til 2050. Demografiske data

som denne undersøkelsen frembringer vil kunne være viktige innspill til en slik planlegging og debatt.

I og med at spedbarnsdødeligheten har sunket dramatisk på bare noen få tiår, er det tydelig at helse- og omsorgstjenestene i kommuner og spesialisthelsetjenesten har vært flinke til å behandle barna slik at de lever opp. Men denne positive utviklingen er for det meste fraværende hos de voksne og eldre med Downs syndrom. Dette må også sees i lys av at befolkningen generelt har hatt og får en økt livslengde. Demografiske data blir derfor viktig for det første å dokumentere som her, at det er en gruppe mennesker som har en dårligere utvikling enn forventet, samtidig som vi har data å måle opp i mot og evaluere når tiltak iverksettes. Dette kan være tiltak som er spesifikt rettet mot de utfordringer vi kjenner til at personer med Downs syndrom har innenfor helse og sosialt miljø, og mer generelle folkehelsepolitiske tiltak.

For den som selv har Downs syndrom og deres nærpå personer, enten det er pårørende eller betalt omsorgspersonell, vil det være viktig å ta lærdom av utviklingen vi ser for å forebygge en god alderdom. Det er viktig med kunnskap om at denne kan komme tidligere enn det man forventer og at et tidligere aldringsløp også kan betraktes som normalt. De fleste vil ha rett på å få satt opp en individuell plan hvor de i god tid kan vurdere egnede boforhold og aktiviteter og å planlegge hvordan og når en overgang til å bli pensjonist kan forløpe best mulig.

Mange pårørende er bekymret for hvordan det skal gå med barna når de faller bort (Hotvedt et al. 2013). Spesielt foreldre til barn med Downs syndrom vil oppleve en parallell aldring med sine barn. For mange vil det være viktig å vite at deres barn får et godt liv etter sin egen bortgang og at de får de tjenester de har behov for. Undersøkelser som denne kan derfor være med til både å få innsikt i en forventet utvikling, samt brukes som en dokumentasjon ovenfor bevilgende myndigheter til å etablere nødvendige tiltak.

Dette er en nasjonal registerundersøkelse som vi tror favner majoriteten av de som er født og døde med Downs syndrom i undersøkelsesperioden. De historiske dataene som er grunnlaget for ekstrapolering av fremtidig overlevelsesevne og forekomst frem til 2050, mener vi er generaliserbare for lokale forhold i Norge. De vil også være generaliserbare ovenfor andre land i den vestlige verden som har tilsvarende historisk utvikling og sosioøkonomiske forhold som oss. Det var noe avvikende resultater for Norge i forhold til undersøkelser fra sammenlignbare vestlige land. Men disse har ikke data som er nyere enn år 2000 og det kan være metodiske valg og ikke samfunnsutvikling, som gjør sammenligninger vanskelig.

Det er godt dokumentert at personer med Downs syndrom har et betydelig kortere livsløp en mange andre personer med utviklingshemning av annen etiologisk årsak. Undersøkelsen vil derfor ikke være generaliserbar for personer med utviklingshemning av annen årsak enn Downs syndrom. Undersøkelsen skiller heller ikke mellom graden av utviklingshemning og undersøkelser viser at levealdersutviklingen har en sammenheng med graden av utviklingsforstyrrelse. Om lag 40 til 50 prosent av personer med Downs syndrom har en moderat grad av utviklingshemning og resten er fordelt

omtrentlig likt mellom gradene over og under, lik gausskurven. Vi vurderer derfor resultatene i undersøkelsen til i hovedsak å representere middelveidien som tilsvarer moderat grad av utviklingshemning. Den bør brukes med større forsiktighet ved ytterpunktene av gradsstigen for utviklingshemning.

KONKLUSJON

I hovedtrekk viser undersøkelsen at spedbarnsdødeligheten har sunket dramatisk siden 60 og 70-tallet og flere med Downs syndrom vil leve opp og bli gamle, men de blir ikke eldre enn før. Livslengden ser ut til å ha flatet ut og dødeligheten i barne-, ungdoms- og tidlig voksenår har vært noenlunde stabil. Alder ved død var i første halvdel av studien noe høyere for menn enn for kvinner. Dette har jevnet seg ut og i siste halvdel av studien er det nesten lik alder ved død. Forskjellene var ikke statistisk signifikant. I alderen 50 til 70 år vil de fleste med Downs syndrom falle fra, men det er også unntak og flere som lever opp i 80 årene.

Sammenlignet med andre nasjoner som vi kan sammenligne oss med ser det ut til at Norge har sakkett litt av når det gjelder levealdersutviklingen. På 60 og 70-tallet var vi mer like, men fra slutten av 80-tallet sakker vi av og vi ligger til dels betydelig etter i levealdersutviklingen. På 2000 tallet er det dårlig med sammenlignbare undersøkelser og vi vet ikke helt hvor i bildet vi er i dag. Dette burde studeres nærmere, både for å se dagens utvikling og eventuelt se på mulige årsaker. Felles nordiske og eller internasjonale undersøkelser bør bli initiert og være av interesse for flere nasjoner.

Det at livslengden ikke har økt kan tolkes både negativt og positivt. Det negative er at årsakene som har ført til den positive trenden vi ser i befolkningen med økt livslengde, ikke kommer personer med Downs syndrom til gode. Mens det positive er at de som blir behandlet, spesielt for hjerte- og mage tarm problematikk i de første leveår lever like lenge som andre med syndromet uten disse sykdommene. I og med at vi får flere voksne og eldre med syndromet blir det viktig at kunnskapen vi har i dag om årsakene til kortere livslengde, blir brukt til å øke livskvaliteten og livslengden. Mye har vært gjort i barneårene, men det har stagnert i voksenlivet.

I årene frem til 2020 kan vi forvente en betydelig økning i antall voksne og eldre med Downs syndrom. Deretter er det en gradvis stigning frem til 2050, hvor andelen over 40 år vil være over det doble i forhold til det vi ser i dag. Etter dette er det vanskelig å predikere en utvikling. Dersom nye rutiner for fosterdiagnostikk, som er under debatt blir innført, kan vi trolig forvente en lik utvikling i Norge som vi ser i flere andre land. Det kan føre til en nedgang av fødte med syndromet og forekomsten etter 2050 vil falle kraftig. Historisk kan det derfor i de kommende årene være siste gang vi kan følge en så stor gruppe personer med Downs syndrom, og dette er noe både fagmiljøer, forskere og politikere bør være klar over.

TAKK

Det er mange jeg vil takke som har gjort det mulig å gjennomføre denne masteren. Først vil jeg gi en stor takk til Nasjonal kompetansetjeneste for aldring og helse som har gitt meg handlerom til å fullføre utdanningen og oppgaven. Spesielt vil jeg rette en stor takk til professor Øyvind Kirkevold som har veiledet og med stor faglig dyktighet og engasjement har vært med meg i hele prosessen. Takk til alle kollegaer som har bidratt med litteratursøk, lese korrektur og faglige innspill.

Vil takke Nordic School of Public Health - NHV, for et inspirerende studie og mange gode minner fra spennende diskusjoner og tid sammen med studiekollegaer i Gøteborg. Takk til professor Max Petzold for veiledning i planlegging og gjennomføring av masteroppgaven. Vil også takke epidemiolog og forsker Marian Maaskant fra Maastricht University i Nederland og Prof. Dr. Friedrich Dieckmann fra Katholische Hochschule i Münster, Tyskland, for nyttige metodediskusjoner i arbeidet med undersøkelsen.

Til slutt og ikke minst, vil jeg gi en stor takk til mine barn og kone Vigdis, for deres tålmodighet og toleranse for at jeg kunne få fullføre dette studiet som har vært meget viktig for meg. Uten støtten og troen fra dere ville dette ikke vært mulig å gjennomføre.

REFERANSER

- Alnæs, K. (1996). *Historien om Norge, Det ligger et land*, Gyldendal, Oslo.
- Baird, P. A. & Sadovnick, A. D. (1988). Life expectancy in Down syndrome adults. *Lancet*, 2(8624), 1354-1356.
- Beaglehole, R. (2003). *Global public health: a new era*, Oxford University Press, Oxford.
- Bittles, A. H., Bower, C., Hussain, R. og Glasson, E. J. (2007). "The four ages of Down syndrome", *Eur J Public Health*, 17(2), 221-225.
- Bittles, A. H. & Glasson, E. J. (2004). "Clinical, social, and ethical implications of changing life expectancy in Down syndrome", *Dev Med Child Neurol*, 46(4), 282-286.
- Bjerkedal, T. & Kristensen, P. (2007). "Live born in Norway 1967 - 76 with the diagnosis of Down syndrome", *Nor J Epidemiol*, 17, 157-164.
- Bjørndal, A. & Hofoss, D. (2004). *Statistikk for helse- og sosialfagene* (2. utg. ed.), Gyldendal akademisk, Oslo.
- Bore, R. R. (2007). *På liv og død helsestatistikk i 150 år*, Statistisk sentralbyrå, Oslo.
- Bowling, A. (2002). *Research methods in health. Investigating health and health services* (2. ed.), Open University Press, Buckingham.
- Brothwell, D. R. (1960). "A possible case of mongolism in a Saxon population", *Annals of Human Genetics*, 24, 141 - 150.

- Brunborg, H. (2004). Befolkningen blir eldre *Økonomiske analyser 5/2004*, Statistisk sentralbyrå, Oslo.
- Brunborg, H. (2008). *Utviklingen i levealder og utforming av delingstall i et reformert pensjonssystem*, Statistisk sentralbyrå, Oslo.
- Canfield, M. A., Honein, M. A., Yuskiv, N., Xing, J., Mai, C. T. & Collins, J. S. (2006). "National estimates and race/ethnic-specific variation of selected birth defects in the United States, 1999-2001", *Birth Defects Res A Clin Mol Teratol*, 76(11), 747-756.
- Carter, G. & Jancar, J. (1983). "Mortality in the mentally handicapped: a 50 year survey at the Stoke Park group of hospitals (1930-1980)", *J Ment Defic Res*, 27 (Pt 2), 143-156.
- Cocchi, G., Gualdi, S., Bower, C., Halliday, J., Jonsson, B. & Myrelid, A. (2010). "International trends of Down syndrome 1993-2004: Births in relation to maternal age and terminations of pregnancies" *Birth Defects Res A Clin Mol Teratol*, 88(6), 474-479.
- Cohen, J. (1992). "A Power Primer." *Psychological Bulletin*, 112(1), 155-159.
- Collmann, R. D. & Stoller, A. (1965). "Data on mongolism in Victoria", *J Ment Defic Res*, 7, 60-68.
- Coppus, A., Evenhuis, H., Verberne, G. J., Visser, F., van Gool, P. & Eikelenboom, P. (2006). "Dementia and mortality in persons with Down's syndrome", *J Intellect Disabil Res*, 50(Pt 10), 768-777.
- Coppus, A. M. (2013). "People with intellectual disability: what do we know about adulthood and life expectancy?", *Dev Disabil Res Rev*, 18(1), 6-16.
- Coppus, A. M., Evenhuis, H. M., Verberne, G. J., Visser, F. E., Oostra, B. A. & Eikelenboom, P. (2008). "Survival in elderly persons with Down syndrome", *J Am Geriatr Soc*, 56(12), 2311-2316.
- Day, S. M., Strauss, D. J., Shavelle, R. M. & Reynolds, R. J. (2005). "Mortality and causes of death in persons with Down syndrome in California", *Dev Med Child Neurol*, 47(3), 171-176.
- Deaton, J. G. (1973). "The mortality rate and causes of death among institutionalised mongols in Texas", *J Ment Defic Res*, 17(2), 117-122.
- Djume, W. & Ekorud, T. (2009). *Dødsårsaker 1995-2006, Noregs offisielle statistikk D 411*, Statistisk sentralbyrå, Oslo.
- Down, J. L. (1995). "Observations on an ethnic classification of idiots. 1866", *Ment.Retard.*, 33(1), 54-56.
- Dupont, A., Vaeth, M. & Videbech, P. (1986). "Mortality and life expectancy of Down's syndrome in Denmark", *J Ment Defic Res*, 30 (Pt 2), 111-120.
- Ejlertsson, G. (2003). *Statistik för hälsovetenskaperna*, Studentlitteratur, Lund.
- Ekelund, C. K., Jorgensen, F. S., Petersen, O. B., Sundberg, K. & Tabor, A. (2008). "Impact of a new national screening policy for Down's syndrome in Denmark: population based cohort study", *BMJ*, 337, a2547.

- Ellis, P.D. (2010). *The Essential Guide to Effect Sizes: Statistical Power, Meta-Analysis, and the Interpretation of Research Results*, Cambridge University Press.
- Esbensen, A. J., Seltzer, M. M. & Greenberg, J. S. (2007). "Factors predicting mortality in midlife adults with and without Down syndrome living with family", *J Intellect Disabil Res*, 51(Pt 12), 1039-1050.
- Folkehelseinstituttet. (2013). *Downs syndrom (Trisomi 21) i Norge*. Available at: <http://www.fhi.no/artikler/?id=106993> (accessed February 2014).
- Frid, C., Drott, P., Lundell, B., Rasmussen, F. & Anneren, G. (1999). "Mortality in Down's syndrome in relation to congenital malformations", *J Intellect Disabil Res*, 43 (Pt 3), 234-241.
- Friedman, J. M. (2001). "Racial disparities in median age at death of persons with Down syndrome—United States, 1968–1997", *Centers for Disease Control and Prevention. Morbidity and Mortality Weekly Report*, 50, 463–465.
- Glascok, A. P. & Feinman, S. L. (1980). "A holocultural analysis of old age", *Comparative Social Research* 3, 311-332.
- Glasson, E. J., Sullivan, S. G., Hussain, R., Petterson, B. A., Montgomery, P. D. & Bittles, A. H. (2002). "The changing survival profile of people with Down's syndrome. Implications for genetic counselling", *Clin.Genet.*, 62(5), 390-393.
- Glasson, E. J., Sullivan, S. G., Hussain, R., Petterson, B. A., Montgomery, P. D. & Bittles, A. H. (2003). "Comparative survival advantage of males with Down syndrome", *Am.J.Hum.Biol.*, 15(2), 192-195.
- Glatte, E. & Blix, E. (1980). *En vurdering av dødsårsaksstatistikken feil på dødsmeldingene*. Oslo.
- Haveman, M. (2004). "Disease Epidemiology and Aging People with Intellectual Disabilities", (Vol. 1, pp. 16-23). *Journal of policy and practice in intellectual disabilities*, Blackwell Publishing.
- Heller, T., Fisher, D. & Marks, B. (2014). Ageing. In L. Taggart & W. Cousins (Eds.), *Health promotion for people with intellectual and developmental disabilities*, Open University Press, England.
- Helse- og omsorgsdepartementet. (2006). *Omsorgsplan 2015: Mestring, muligheter og mening framtidens omsorgsutfordringer*, Departementet, Oslo.
- Heslop, P., Blair, P. S., Fleming, P., Hoghton, M., Marriott, A. & Russ, L. (2013). "The Confidential Inquiry into premature deaths of people with intellectual disabilities in the UK: a population-based study", *Lancet*.
- Hotvedt, K., Johansen, K. B., Larsen, F. K. & Nordström, B.-O. (2013). *Kurs for pårørende til eldre personer med utviklingshemning. Evaluering av prosjektet STERK – Støtte, erfaring og kunnskap*, Forlaget Aldring og helse, Tønsberg.
- Janicki, M. P., Dalton, A. J., Henderson, C. M. & Davidson, P. W. (1999). "Mortality and morbidity among older adults with intellectual disability: health services considerations", *Disabil Rehabil*, 21(5-6), 284-294.
- Kvikstad, T. M. (1990). *Statistikk*, NKI forlaget, Bekkestua.

- Larsen, F. K. (2009). Aldring hos personer med Downs syndrom. In: F. K. Larsen & E. Wigaard (Eds.), *Utviklingshemning og aldring: en lærebok* (pp. 412), Forlaget Aldring og helse, Tønsberg.
- Leonard, S., Bower, C., Petterson, B. & Leonard, H. (2000). "Survival of infants born with Down's syndrome: 1980-96", *Paediatr.Perinat.Epidemiol.*, 14(2), 163-171.
- Levitas, A. S. & Reid, C. S. (2003). "An angel with Down syndrome in a sixteenth century Flemish Nativity painting", *Am.J.Med.Genet.A*, 116(4), 399-405.
- Lie, R. T., Heuch, I. & Irgens, L. M. (1994). "Maximum likelihood estimation of the proportion of congenital malformations using double registration systems", *Biometrics*, 50(2), 433-444.
- Maaskant, M. A., Gevers, J. P. & Wierda, H. (2002). "Mortality and life expectancy in dutch residential centres for individuals with intellectual disability, 1991 – 1995", *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 15, 200-212.
- Malt, E. A., Dahl, R. C., Haugsand, T. M., Ulvestad, I. H., Emilsen, N. M. & Hansen, B. (2013). "Helse og sykdom hos voksne med Downs syndrom 290", *Tidsskr Nor Legeforen* (3), 133.
- Mann, D. M. (1988). "The pathological association between Down syndrome and Alzheimer disease", *Mech Ageing Dev*, 43(2), 99-136.
- Mantry, D., Cooper, S. A., Smiley, E., Morrison, J., Allan, L. & Williamson, A. (2008). "The prevalence and incidence of mental ill-health in adults with Down syndrome", *J Intellect Disabil Res*, 52(Pt 2), 141-155.
- Martinez-Frias, M. L. (2005). "The real earliest historical evidence of Down syndrome", *Am.J.Med.Genet.A*, 132(2), 231.
- Melve, K. K., Lie, R. T., Skjaerven, R., Van Der Hagen, C. B., Gradek, G. A. & Jonsrud, C. (2008). "Registration of Down syndrome in the Medical Birth Registry of Norway: validity and time trends", *Acta Obstet Gynecol Scand*, 87(8), 824-830.
- Nordrum, I. S. (2004). "Hva var dødsårsaken? En pålitelig statistikk over dødsårsaker & en adekvat obduksjonsfrekvens er viktige indikatorer på et godt helsevesen", *Tidsskr Nor Legeforen*(12), 124.
- Nrugham, L. og Mehlum, L. (2010). "Det norske dødsårsaksregisteret: En kommentar til datakvaliteten", *Suicidologi*, 15(2), 8 - 11.
- Patja, K., Livanainen, M., Vesala, H., Oksanen, H. & Ruoppila, I. (2000). "Life expectancy of people with intellectual disability: a 35-year follow-up study", *J Intellect Disabil Res*, 44 (Pt 5), 591-599.
- Patja, K., Molsa, P. & Livanainen, M. (2001). "Cause-specific mortality of people with intellectual disability in a population-based, 35-year follow-up study", *J Intellect Disabil Res*, 45(Pt 1), 30-40.
- Patterson, D. & Costa, A. C. (2005). "Down syndrome and genetics - a case of linked histories", *Nat Rev Genet*, 6(2), 137-147.
- Penrose, L. S. (1949). "The incidence of mongolism in the general population", *J Ment Sci*, 95(400), 685-688.

- Prasher, V. P. (2005). *Alzheimer's disease and dementia in Down syndrome and intellectual disabilities*, Radcliffe publishing, Oxford.
- Prasher, V. P. & Janicki, M. P. (2002). *Physical health of adults with intellectual disabilities*, Blackwell, Oxford.
- Prasher, V. P. & Lawrence, D. (2006). "Psychiatric morbidity in adults with Down syndrome", *Psychiatry*, 5(9), 316-319.
- Reseland, S. (2009). "Dødsårsaksregisteret har for dårlig kvalitet", *Tidsskr Nor Legeforen* 9(129), 894.
- Rogde, S. (2009). "Hvor pålitelig er dødsårsaksstatistikken? ", *Tidsskr Nor Legeforen*, 129(10), 980.
- Roizen, N. J. & Patterson, D. (2003). "Down's syndrome", *Lancet*, 361(9365), 1281-1289.
- Sherman, S. L., Allen, E. G., Bean, L. H. & Freeman, S. B. (2007). "Epidemiology of Down syndrome", *Ment Retard Dev Disabil Res Rev*, 13(3), 221-227.
- Singer, R. B. & Strauss, D. (1997). "Comparative mortality in mentally retarded patients in California, with and without Down's syndrome, 1986-1991", *J Insur Med*, 29(3), 172-184.
- Sosialdepartementet. (1982). *Rettledning ved utfylling av dødsmelding*. Oslo: Sosialdepartementet
- Starbuck, J. M. (2011). "On the Antiquity of Trisomy 21: Moving Towards a Quantitative Diagnosis of Down Syndrome in Historic Material Culture", *Journal of Contemporary Anthropology*, 2(1), Article 2.
- Statistisk sentralbyrå. (2011). *Befolkningsstatistikk. Forventet gjenstående levetid for menn og kvinner på utvalgte alderstrinn. 1866-2010*. Available at: <http://www.ssb.no/dode/tab-2011-04-14-03.html>. (accessed Desember 2011).
- Strauss, D., & Eyman, R. K. (1996). "Mortality of people with mental retardation in California with and without Down syndrome, 1986-1991", *Am J Ment Retard*, 100(6), 643-653.
- Torr, J., Strydom, A., Patti, P. & Jokinen, N. (2010). "Aging in Down Syndrome: Morbidity and Mortality", *Journal of Policy and Practice in Intellectual Disabilities*, 7(1), 70-81.
- Tyrer, F. & McGrother, C. (2009). "Cause-specific mortality and death certificate reporting in adults with moderate to profound intellectual disability", *J Intellect Disabil Res*, 53(11), 898-904.
- Vik, T., Borthne, K. & Johansen, O. J. (1999). "Down's syndrome in Sør-Trøndelag County, Norway", *Tidsskr Nor Legeforen*, 119(25), 3743 - 3746.
- Walker, P. L., Cook, D. C., Ward, R., Braunstein, E. & Davee, M. (1991). "A Down's Syndrome-like congenital Disorder in a Prehistoric California Indian", *American Journal of Physical Anthropology*, 34, 12.

- Ward, O. C. (2004). "Further early historical evidence of Down syndrome", *Am.J.Med.Genet.A*, 126(2), 220.
- Westerberg, T. H. (2012). *Eldre personer med utviklingshemning. En nasjonal kartlegging av botilbud og forekomsten av demens- og kreftsykdommer*, Forlaget Aldring og helse, Tønsberg.
- WHO. (2012). *Dementia: A Public Health Priority*, World Health Organization.
- Wilmoth, J. R. (2000). "Demography of longevity: past, present, and future trends", *Exp Gerontol*, 35(9-10), 1111-1129.
- Wium, P., Lund, E. & Reitan, J. B. (2007). "Medical consequences following the Chernobyl nuclear accident", *Tidsskr Nor Laegeforen*, 127(19), 2564-2566.
- World Health Organization. (2006). *Highlights on health in Norway 2005*, WHO Regional Office for Europe, København.
- Yang, Q., Rasmussen, S. A. & Friedman, J. M. (2002). "Mortality associated with Down's syndrome in the USA from 1983 to 1997: a population-based study", *Lancet*, 359(9311), 1019-1025.

VEDLEGG

Vedlegg 1. ANOVA og Post hoc test mellom andelen fødte i fødselsårsgrupper

Gruppeinndeling

Fødsels gruppe	Fødselsår	Gjennomsnitt	Std. Deviation
1	1969 - 1970	10,1050	,51619
2	1971 - 1975	9,8320	,90715
3	1976 - 1980	8,9100	1,68278
4	1981 - 1985	10,0860	1,71598
5	1986 - 1990	10,3640	1,26848
6	1991 - 1995	8,8860	1,74761
7	1996 - 2000	11,0060	1,91930
8	2001 - 2005	12,8440	1,95547
9	2006 - 2009	12,3575	1,22747

ANOVA

Andel fødte

	Sum of Squares	df	Mean Square	F	Sig.
Between Groups	71,675	8	8,959	3,590	,004
Within Groups	79,867	32	2,496		
Total	151,541	40			

Post hoc test – Tukey HSD

(I) Fødsels gruppe	(J) Fødsels gruppe	Mean Difference (I-J)	Std. Error	Sig.	95% Confidence Interval	
					Lower Bound	Upper Bound
3	8	-3,93400*	,99917	,011	-7,2535	-,6145
6	8	-3,95800*	,99917	,010	-7,2775	-,6385

Vedlegg 2. Independent samples T-test mellom kjønn før og etter 1991

		Kjønn	Mean age at death	t	df	Mean diff	P-verdi T-test
1969-1991	Alder ved død	Mann	28,82	,890	847	1,623	,373
		Kvinne	27,20				
1992-2009	Alder ved død	Mann	48,37	-,973	808	1,446	,331
		Kvinne	49,78				

Vedlegg 3. ANOVA og Post hoc test for gjennomsnittlig alder ved død for alle som dør etter fylte 40 år

ANOVA

Alder ved død

	Sum of Squares	df	Mean Square	F	Sig.
Between Groups	2056,053	7	293,722	4,612	,000
Within Groups	57128,161	897	63,688		
Total	59184,214	904			

Multiple Comparisons

Alder ved død

Tukey HSD

(I) Gruppertaargang	(J) Gruppertaargang	Mean Difference (I-J)	Std. Error	Sig.	95% Confidence Interval	
					Lower Bound	Upper Bound
1969-1974	1975-1979	-1,940	1,503	,902	-6,51	2,63
	1980-1984	-2,320	1,377	,697	-6,50	1,86
	1985-1989	-3,926*	1,284	,047	-7,83	-,03
	1990-1994	-6,095*	1,244	,000	-9,87	-2,32
	1995-1999	-4,551*	1,226	,005	-8,28	-,82
	2000-2004	-3,437	1,194	,078	-7,06	,19
	2005-2009	-4,187*	1,250	,019	-7,98	-,39
1975-1979	1969-1974	1,940	1,503	,902	-2,63	6,51
	1980-1984	-,380	1,413	1,000	-4,67	3,91
	1985-1989	-1,986	1,322	,806	-6,00	2,03
	1990-1994	-4,155*	1,284	,027	-8,05	-,26
	1995-1999	-2,611	1,266	,441	-6,46	1,24
	2000-2004	-1,497	1,235	,928	-5,25	2,26
	2005-2009	-2,247	1,289	,659	-6,16	1,67
1980-1984	1969-1974	2,320	1,377	,697	-1,86	6,50
	1975-1979	,380	1,413	1,000	-3,91	4,67
	1985-1989	-1,606	1,177	,873	-5,18	1,97
	1990-1994	-3,775*	1,133	,020	-7,22	-,33
	1995-1999	-2,231	1,114	,481	-5,62	1,15
	2000-2004	-1,117	1,078	,969	-4,39	2,16
	2005-2009	-1,867	1,140	,727	-5,33	1,60

1985-1989	1969-1974	3,926*	1,284	,047	,03	7,83
	1975-1979	1,986	1,322	,806	-2,03	6,00
	1980-1984	1,606	1,177	,873	-1,97	5,18
	1990-1994	-2,169	1,018	,396	-5,26	,92
	1995-1999	-,625	,997	,999	-3,65	2,40
	2000-2004	,489	,956	1,000	-2,42	3,39
	2005-2009	-,261	1,025	1,000	-3,38	2,85
1990-1994	1969-1974	6,095*	1,244	,000	2,32	9,87
	1975-1979	4,155*	1,284	,027	,26	8,05
	1980-1984	3,775*	1,133	,020	,33	7,22
	1985-1989	2,169	1,018	,396	-,92	5,26
	1995-1999	1,544	,945	,729	-1,33	4,41
	2000-2004	2,658	,902	,065	-,08	5,40
	2005-2009	1,908	,975	,512	-1,05	4,87
1995-1999	1969-1974	4,551*	1,226	,005	,82	8,28
	1975-1979	2,611	1,266	,441	-1,24	6,46
	1980-1984	2,231	1,114	,481	-1,15	5,62
	1985-1989	,625	,997	,999	-2,40	3,65
	1990-1994	-1,544	,945	,729	-4,41	1,33
	2000-2004	1,114	,878	,910	-1,55	3,78
	2005-2009	,364	,952	1,000	-2,53	3,26
2000-2004	1969-1974	3,437	1,194	,078	-,19	7,06
	1975-1979	1,497	1,235	,928	-2,26	5,25
	1980-1984	1,117	1,078	,969	-2,16	4,39
	1985-1989	-,489	,956	1,000	-3,39	2,42
	1990-1994	-2,658	,902	,065	-5,40	,08
	1995-1999	-1,114	,878	,910	-3,78	1,55
	2005-2009	-,750	,910	,992	-3,52	2,02
2005-2009	1969-1974	4,187*	1,250	,019	,39	7,98
	1975-1979	2,247	1,289	,659	-1,67	6,16
	1980-1984	1,867	1,140	,727	-1,60	5,33
	1985-1989	,261	1,025	1,000	-2,85	3,38
	1990-1994	-1,908	,975	,512	-4,87	1,05
	1995-1999	-,364	,952	1,000	-3,26	2,53
	2000-2004	,750	,910	,992	-2,02	3,52

*. The mean difference is significant at the 0.05 level.

Vedlegg 4. ANOVA og Post hoc test for forventet utvikling frem til 2050

ANOVA

Manipulert alder ved død

	Sum of Squares	df	Mean Square	F	Sig.
Between Groups	62344,732	8	7793,091	36,802	,000
Within Groups	547185,888	2584	211,759		
Total	609530,620	2592			

Post Hoc Tests

Multiple Comparisons

Manipulert alder ved død

Tukey HSD

(I) Fødsels- gruppe	(J) Fødsels- gruppe	Mean Difference (I-J)	Std. Error	Sig.	95% Confidence Interval	
					Lower Bound	Upper Bound
1967- 1970	1971-1975	-7,921*	1,239	,000	-11,77	-4,08
	1976-1980	-9,237*	1,323	,000	-13,34	-5,13
	1981-1985	-11,259*	1,289	,000	-15,26	-7,26
	1986-1990	-10,493*	1,245	,000	-14,36	-6,63
	1991-1995	-14,017*	1,274	,000	-17,97	-10,06
	1996-2000	-15,319*	1,216	,000	-19,09	-11,54
	2001-2005	-16,455*	1,187	,000	-20,14	-12,77
	2006-2009	-16,644*	1,241	,000	-20,50	-12,79
1971- 1975	1967-1970	7,921*	1,239	,000	4,08	11,77
	1976-1980	-1,315	1,274	,983	-5,27	2,64
	1981-1985	-3,338	1,239	,150	-7,18	,51
	1986-1990	-2,572	1,193	,435	-6,28	1,13
	1991-1995	-6,096*	1,223	,000	-9,89	-2,30
	1996-2000	-7,398*	1,162	,000	-11,01	-3,79
	2001-2005	-8,533*	1,132	,000	-12,05	-5,02
	2006-2009	-8,723*	1,189	,000	-12,41	-5,03

1976-1980	1967-1970	9,237*	1,323	,000	5,13	13,34
	1971-1975	1,315	1,274	,983	-2,64	5,27
	1981-1985	-2,022	1,323	,842	-6,13	2,09
	1986-1990	-1,257	1,281	,988	-5,23	2,72
	1991-1995	-4,780*	1,309	,008	-8,84	-,72
	1996-2000	-6,082*	1,252	,000	-9,97	-2,19
	2001-2005	-7,218*	1,224	,000	-11,02	-3,42
	2006-2009	-7,407*	1,277	,000	-11,37	-3,44
1981-1985	1967-1970	11,259*	1,289	,000	7,26	15,26
	1971-1975	3,338	1,239	,150	-,51	7,18
	1976-1980	2,022	1,323	,842	-2,09	6,13
	1986-1990	,765	1,245	1,000	-3,10	4,63
	1991-1995	-2,758	1,274	,429	-6,71	1,20
	1996-2000	-4,060*	1,216	,024	-7,83	-,29
	2001-2005	-5,196*	1,187	,000	-8,88	-1,51
	2006-2009	-5,385*	1,241	,001	-9,24	-1,53
1986-1990	1967-1970	10,493*	1,245	,000	6,63	14,36
	1971-1975	2,572	1,193	,435	-1,13	6,28
	1976-1980	1,257	1,281	,988	-2,72	5,23
	1981-1985	-,765	1,245	1,000	-4,63	3,10
	1991-1995	-3,524	1,230	,098	-7,34	,30
	1996-2000	-4,826*	1,170	,001	-8,46	-1,19
	2001-2005	-5,961*	1,140	,000	-9,50	-2,42
	2006-2009	-6,151*	1,196	,000	-9,86	-2,44
1991-1995	1967-1970	14,017*	1,274	,000	10,06	17,97
	1971-1975	6,096*	1,223	,000	2,30	9,89
	1976-1980	4,780*	1,309	,008	,72	8,84
	1981-1985	2,758	1,274	,429	-1,20	6,71
	1986-1990	3,524	1,230	,098	-,30	7,34
	1996-2000	-1,302	1,200	,976	-5,03	2,42
	2001-2005	-2,437	1,171	,486	-6,07	1,20
	2006-2009	-2,627	1,226	,445	-6,43	1,18

1996- 2000	1967-1970	15,319*	1,216	,000	11,54	19,09
	1971-1975	7,398*	1,162	,000	3,79	11,01
	1976-1980	6,082*	1,252	,000	2,19	9,97
	1981-1985	4,060*	1,216	,024	,29	7,83
	1986-1990	4,826*	1,170	,001	1,19	8,46
	1991-1995	1,302	1,200	,976	-2,42	5,03
	2001-2005	-1,136	1,107	,983	-4,57	2,30
	2006-2009	-1,325	1,165	,969	-4,94	2,29
2001- 2005	1967-1970	16,455*	1,187	,000	12,77	20,14
	1971-1975	8,533*	1,132	,000	5,02	12,05
	1976-1980	7,218*	1,224	,000	3,42	11,02
	1981-1985	5,196*	1,187	,000	1,51	8,88
	1986-1990	5,961*	1,140	,000	2,42	9,50
	1991-1995	2,437	1,171	,486	-1,20	6,07
	1996-2000	1,136	1,107	,983	-2,30	4,57
	2006-2009	-,189	1,135	1,000	-3,71	3,34
2006- 2009	1967-1970	16,644*	1,241	,000	12,79	20,50
	1971-1975	8,723*	1,189	,000	5,03	12,41
	1976-1980	7,407*	1,277	,000	3,44	11,37
	1981-1985	5,385*	1,241	,001	1,53	9,24
	1986-1990	6,151*	1,196	,000	2,44	9,86
	1991-1995	2,627	1,226	,445	-1,18	6,43
	1996-2000	1,325	1,165	,969	-2,29	4,94
	2001-2005	,189	1,135	1,000	-3,34	3,71

*. The mean difference is significant at the 0.05 level.

