

# Fetalt alkoholsyndrom (FAS) och Fetala alkoholspektrum- störningar (FASD)

## Tillstånd och insatser

En systematisk översikt och utvärdering ur ett socialt medicinskt, ekonomiskt och etiskt perspektiv

**Rapportserie** Denna rapport ingår i serien SBU Utvärderar. En allsidig vetenskaplig utvärdering som innefattar systematisk översikt, ekonomiska/hälsoekonomiska analyser samt genomgång av sociala och etiska aspekter. Ämnessakkunniga deltar i arbetet med stöd av medarbetare på SBU, patienter/brukare. Rapporten granskas av oberoende experter. Graden av vetenskaplig tillförlitlighet i de sammanvägda resultaten bedöms på ett systematiskt sätt och rapportens slutsatser godkänns av SBU:s nämnd.

**ISSN** 1400-1403

<b>Innehållsdeklaration</b>	✓ Utvärdering av ny/etablerad metod	✓ Framtagen i samarbete med sakkunniga
	✓ Systematisk litteratursökning	✓ Patienter/brukare medverkat
	✓ Relevansgranskning	✓ Etiska aspekter
	✓ Kvalitetsgranskning	✓ Ekonomiska aspekter
	✓ Sammanvägning av resultat	✓ Sociala aspekter
	✓ Evidensgradering gjord av SBU	✓ Godkänd av SBU:s prioriterings- och kvalitetsgrupp
	✓ Evidensgradering gjord externt	✓ Godkänd av SBU:s nämnd
	✓ Baseras på en systematisk litteraturoversikt	
	✓ Konsensusprocess	

**Nyckelord** Fetala alkoholspektrumstörningar, Fetalt alkoholsyndrom, Alkoholrelaterade fosterskador, FASD

**Utgiven** December 2016

**Giltighetstid** Resultat som bygger på ett starkt vetenskapligt underlag fortsätter vanligen att gälla under en lång tid framåt. Andra resultat kan ha hunnit bli inaktuella. Det gäller främst områden där det vetenskapliga underlaget är otillräckligt eller begränsat

**Beställ** Denna rapport (nr 258) kan beställas från Strömberg distribution. Telefon: 08-779 96 85 • Fax: 08-779 96 10 • E-post: sbu@strd.se

**Produktion** Grafisk produktion av Åsa Isaksson, SBU. Tryckt av Elanders Sverige AB, Mölnlycke, 2016. Omslagsfoto: Shutterstock

**Diarienummer** UTV2015/256

**Citera denna rapport** SBU. Fetalt alkoholsyndrom (FAS) och Fetala alkoholspektrumstörningar (FASD) – Tillstånd och insatser: en systematisk översikt och utvärdering ur ett socialt medicinskt, ekonomiskt och etiskt perspektiv. Stockholm: Statens beredning för medicinsk och social utvärdering (SBU); 2016. SBU-rapport nr 258. ISBN 978-91-88437-00-6.

# Innehåll

<b>Sammanfattning och slutsatser</b>	<b>7</b>
<b>1 Syfte</b>	<b>11</b>
Introduktion	11
Uppdraget	12
Avgränsningar	12
Syfte	13
<b>2 Bakgrund</b>	<b>15</b>
Fetala alkoholspektrumstörningar (FASD) – en paraplyterm för flera tillstånd	15
Diagnos och tillståndskriterier	18
— Svårigheter hos individer med FASD	18
— Omfattning av svårigheter	20
Samhällets stöd till barn och föräldrar	20
— Hälso- och sjukvård	21
— Insatser från socialtjänst	22
— Särskilt stöd i förskola och skola samt olika skolformer	23
— Habilitering	24
Juridiska utgångspunkter för stöd i olika former	25
<b>3 Metod för utvärderingen</b>	<b>27</b>
Samråd mellan myndigheter	27
Litteratursökning och inklusionskriterier	27
— Populationer	28
— Interventioner	28
— Utfallsmått	29
Metodik för bedömning av risk för systematiska fel (bias)	30
Metoder för sammanvägning av resultat	31
— Sammanvägning av kvantitativa resultat	31
— Dataanalys kvalitativ syntes	31
Det vetenskapliga underlagets styrka	32
Ekonomiska aspekter	33
Etik	33
Referensgrupp	34
Brukarsamverkan med FAS-föreningen	34
<b>4 Resultat – Beskrivning av tillstånden</b>	<b>35</b>
En systematisk översikt – Prevalens av funktionsnedsättningar och social situation hos personer som uppfyller kriterierna för FAS, pFAS, ARND eller ARBD	36
— FAS	37
— pFAS	40
— ND-PAE/ARND	40
— ARBD	41
— Betydelsen av ålder vid diagnossättande	44
— Evidensgraderade resultat	45

— Sammanfattning av resultat och kunskapsluckor	47
Uppgifter från nationella register – en registerstudie	50
— Inledning	50
— Metod	50
— Studiepopulationer	51
— Diagnosdefinitioner	51
— Psykofarmaka	51
— Jämförelser med ADHD och autism	51
— Resultat	52
— Diskussion	57
En systematisk översikt – Upplevelser och erfarenheter hos personer eller anhöriga till någon som uppfyller kriterierna för FASD	58
— Upplevelser och erfarenheter hos personer med FASD	59
— Upplevelser och erfarenheter hos föräldrar till personer som uppfyllde kriterier för FASD	62
— Sammanfattning av resultat och kunskapsluckor	73
Samhällskostnader som förknippas med FAS och FASD	75
<b>5 Resultat – Utvärdering av insatser till barn och familjer</b>	<b>77</b>
En systematisk översikt – insatser till barn och familjer	78
— Frågeställningar	78
— Resultat	78
— Vetenskapligt underlag för effekter av insatser till barn och familjer	83
— Utvärderade insatser	84
— Sammanfattning av resultat och kunskapsluckor	92
En systematisk översikt –	
Upplevelser och erfarenheter av insatser till barn och familjer	94
— Erfarenheter och upplevelser av avlösarservice	94
Samhällsekonomiska aspekter av insatser till barn och familjer	95
<b>6 Upplevelser och erfarenheter ur ett svenskt perspektiv – svar från FAS-föreningen</b>	<b>97</b>
Individens och föräldrars upplevelser och erfarenheter av tillstånden	98
Upplevelser av värdet av att få diagnos	98
Föräldrars upplevelser och erfarenheter av föräldraskapet	98
Individens och föräldrars upplevelser och erfarenheter i relation till samhället	99
<b>7 Etiska aspekter kring diagnos och insatser</b>	<b>101</b>
Möjliga fördelar med diagnos ur ett vårdperspektiv	101
Möjliga fördelar med diagnos för individen och familjen	102
Diagnosens betydelse för att få insatser	103
Populationsbaserad screening	104
Diagnos utan speciell symtomuppsättning	105
Skuldbeläggande till följd av etiologisk diagnos	105
Individfokusering på ett socialt problem?	106
Potentiell undanträngningseffekt	107
Diagnos, habilitering och autonomi	108
Etiska aspekter på habilitering	109
Etiska aspekter på familjestöd	110
Sammanfattning av etiska aspekter på diagnos och insatser	111

<b>8</b>	<b>Diskussion</b>	<b>113</b>
	Syfte och metodologiska aspekter	113
	Vad visar utvärderingen?	114
	— Förekomst av funktionsnedsättningar vid specifika FASD-tillstånd, livssituation och samhällsekonomi	114
	— Effekten av insatser till barn och familjer	115
	Etiologi – en svårighet vid tillstånd som FASD	116
	Kunskapsluckor	117
	Framtida forskning och praxis	118
<b>9</b>	<b>Projektgrupp, externa granskare, referensgrupper, råd och nämnd</b>	<b>121</b>
	Sakkunniga	121
	SBU	122
	Myndighetsgrupp/styrgrupp	122
	Externa granskare	122
	Referensgrupp	123
	Referensgrupp – Etik	123
	Bindningar och jäv	124
	SBU:s vetenskapliga råd – Eira	124
	SBU:s nämnd	125
<b>10</b>	<b>Ordförklaringar och förkortningar</b>	<b>127</b>
<b>11</b>	<b>Referenser</b>	<b>129</b>
<b>Bilaga 1</b>	<b>Beskrivning av inkluderade studier/ Characteristics of included studies</b>	<b>139</b>
<b>Bilaga 2</b>	<b>Upplevelser och erfarenheter bland individer med FASD och deras föräldrar/Experiences among individuals with FASD and their parents</b>	<b>201</b>
<b>Bilaga 3</b>	<b>Sökstrategier</b>	tillgänglig på <a href="http://www.sbu.se/258">www.sbu.se/258</a>
<b>Bilaga 4</b>	<b>Granskningsmallar</b>	tillgänglig på <a href="http://www.sbu.se/258">www.sbu.se/258</a>
<b>Bilaga 5a</b>	<b>Exkluderade studier</b>	tillgänglig på <a href="http://www.sbu.se/258">www.sbu.se/258</a>
<b>Bilaga 5b</b>	<b>Studier med hög risk för systematiska fel</b>	tillgänglig på <a href="http://www.sbu.se/258">www.sbu.se/258</a>
<b>Bilaga 6</b>	<b>Sammanfattning tabell av GRADE-bedömning familjestöd och habilitering</b>	tillgänglig på <a href="http://www.sbu.se/258">www.sbu.se/258</a>
<b>Bilaga 7</b>	<b>Tabell över olika typer av frågeformulär till föräldrar och/eller lärare</b>	tillgänglig på <a href="http://www.sbu.se/258">www.sbu.se/258</a>

**Bilaga 8 FAS-föreningens  
enkätsammanställning**

tillgänglig på [www.sbu.se/258](http://www.sbu.se/258)

**Bilaga 9 Juridiska aspekter**

tillgänglig på [www.sbu.se/258](http://www.sbu.se/258)

**Bilaga 10 Statistik och forskning**

tillgänglig på [www.sbu.se/258](http://www.sbu.se/258)

**Bilaga 11 Socialstyrelsens  
praxisbeskrivning**

tillgänglig på [www.sbu.se/258](http://www.sbu.se/258)

# Sammanfattning och slutsatser

## Syfte

Rapportens övergripande fråga är om identifiering av tillstånd inom FASD (fetala alkoholspektrumstörningar) leder till att barn som uppfyller kriterier för dessa tillstånd och deras närstående får en bättre social situation och ökat välbefinnande. Frågan har brutits ner i två större delfrågor:

1. Vad innebär olika tillstånd inom FASD för barnet, de närstående och samhället?
2. Vilka effekter har olika insatser för barn som uppfyller kriterier för dessa tillstånd ur ett socialt, medicinskt, ekonomiskt och etiskt perspektiv?

Utvärderingen omfattar inte frågan om det finns någon säker nedre gräns för alkoholkonsumtion under graviditeten. Likaså behandlar vi inte sambandet mellan moderns alkoholkonsumtion och de olika tillstånden under FASD-paraplyet eller frågan om förekomsten av alkoholrelaterade skador. Uppdraget har inte heller varit att ta upp faktorer som är viktiga för det preventiva arbetet.

## Slutsatser

Fetala alkoholspektrumstörningar (FASD) är ett omdiskuterat begrepp som innefattar det spektrum av fosterskador som skulle kunna vara orsakade av mammans alkoholkonsumtion under graviditeten. I Sverige betecknas inte FASD som en diagnos medan däremot fetalt alkoholsyndrom (FAS), som är ett

av flera tillstånd inom FASD, är en medicinsk diagnos. Diagnosen FAS innefattar en komplicerad bild av såväl fysiska som beteendemässiga och kognitiva avvikelser.

- Med undantag för diagnosen FAS är tillståndsbeskrivningarna inom FASD på forskningsstadiet och följderna av att tillämpa dem i vård och omsorg oklara. Oavsett hur individernas tillstånd beskrivs är det angeläget att hjälpa barn och familjer utifrån förekommande problem och individuella behov. Det är viktigt att följa kunskapsutvecklingen om insatser vid andra tillstånd som delvis överlappar FASD (som ADHD, autism och intellektuell funktionsnedsättning).
- Personer som uppfyller kriterier för FASD och deras föräldrar upplever att det finns förbättringsmöjligheter i fråga om kunskap om tillstånden samt förståelse och stöd inom hälso- och sjukvården, socialtjänsten och skolan.
- Ny forskning bör inriktas på att undersöka nyttan för de enskilda individerna, samt vilka risker och kostnader som identifiering av olika tillstånd inom FASD innebär. Befintliga studier ger ingen vägledning för om det finns en specifik typ av stöd och behandling som ska erbjudas barn som uppfyller kriterier för dessa tillstånd.

## Vad tillför denna utvärdering?

Utvärderingen visar vilken vetenskaplig kunskap som finns om förekomsten av funktionsnedsättningar hos individer som uppfyller kriterierna för olika tillstånd inom FASD. Den tillför också samlad kunskap om individers upplevelser av tillstånden samt ger en bild av kunskapsläget rörande effekter av insatser.

## Bakgrund

Diagnosen FAS beskriver fysiska avvikelser i form av tillväxtstörning och speciella ansiktsdrag samt tecken på avvikande funktion i centrala nervsystemet. Under FASD ingår även pFAS (partiell FAS) där bilden av avvikelser är densamma som hos FAS, men där kriterierna för en fullständig FAS-diagnos bara delvis är uppfyllda. Ytterligare ett tillstånd kallas ARBD (Alcohol-Related Birth Defects). Det beskriver små eller stora fysiska avvikelser hos individer, men inte beteendemässiga eller kognitiva. ARND (Alcohol-Related Neurodevelopmental Disorder) beskriver istället olika mönster av atypisk kognitiv utveckling och beteendemässiga avvikelser hos personer med normal fysisk utveckling.

Denna utvärdering fokuserar på individer som uppfyller kriterier för tillstånd inom FASD. SBU tar dock inte ställning till om de funktionsnedsättningar som beskrivs är orsakade av alkoholexponering eller av andra eller samverkande faktorer.



Det är oklart hur många individer som uppfyller kriterier för olika FASD-tillstånd i Sverige. Vad gäller diagnosen FAS registreras i Patientregistret i genomsnitt ett tiotal nya fall per år bland barn som är födda i Sverige. Hur stor andel av faktiska fall detta representerar är oklart. Dessutom finns en grupp adoptivbarn och inflyttade från andra länder med diagnosen FAS. Flertalet av alla barn med FAS växer upp i familjehem eller med adoptivföräldrar.

## Metod

Projektet genomfördes i samråd med Socialstyrelsen och Folkhälsomyndigheten inom ramen för ett regeringsuppdrag till SBU (Diarienummer STY2015/59).

Utvärderingen innefattar systematiska litteraturöversikter, med evidensgradering enligt GRADE och CERQual, avseende förekomsten av funktionsnedsättningar, social situation, upplevelser av tillstånd och insatser, samhällskostnader samt effekter och kostnadseffektiviteten av insatser. Vad gäller funktionsnedsättningar och social situation har vi kompletterat den systematiska översikten med en egen registerstudie på barn i Sverige som fått diagnosen FAS.

Vi har även samverkat med en brukarförening, FAS-föreningen, för att lyfta anhörig- och brukarperspektivet.

Samhällsekonomiska och etiska aspekter har diskuterats med utgångspunkt från publicerad litteratur och diskussioner med sakkunniga i projektgruppen och referensgrupper.

## Huvudresultat

- ▶ **Beskrivna upplevelser av att leva med FASD.** Individer som uppfyller kriterierna för olika tillstånd inom FASD upplever en rad olika kognitiva, fysiska eller sociala problem som begränsar i vardagslivet. Föräldrar till barn med FASD känner sig tyngda av stress och social isolering, upplever en brist på kunskap och förståelse från professionella samt känner en oro för framtiden. Föräldrar till barn med FASD önskar bli mötta med mer kunskap, förståelse och stöd inom hälso- och sjukvården, socialtjänsten och skolan.
- ▶ **Värdet av begrepp inom FASD som utgångspunkt för att identifiera behov och välja insatser.** Med undantag av de medicinska tillstånd som är förknippade med diagnosen FAS går det inte att vetenskapligt avgöra nytta och risker med att identifiera olika tillstånd inom FASD. Det finns alltför få välgjorda studier som undersöker hur vanligt det är med olika funktionsnedsättningar hos dessa grupper och som prövar om det finns insatser som förbättrar deras situation. I en familj där ett barn uppfyller kriterierna kan identifiering av FASD väcka blandade känslor hos föräldrar, såsom både skuld och lättnad.

- ▶ **Effekter av insatser.** Det går inte att utifrån FASD eller FAS bedöma nytta och risker av insatser specifikt riktade till barn med dessa tillstånd då det saknas tillräckligt många välgjorda studier. En rad insatser som skulle kunna vara aktuella vid FASD har utvärderats vid andra tillstånd men sällan specifikt för individer som uppfyller FASD-kriterier. Studier av enstaka insatser tyder på att det är möjligt att på olika sätt hjälpa barn med FASD, till exempel i skolarbetet. Det vetenskapliga underlaget är dock svagt och utfallen är inte direkt kopplade till barnens sociala situation eller välbefinnande.
- ▶ **Forskningsbehov.** För att kunna avgöra omfattningen av olika fysiska och psykiska ohälsotillstånd samt individernas sociala situation i dessa grupper, behövs fler studier med representativa urval av personer med definierade tillstånd inom FASD. Det behövs även forskning som specifikt lyfter biologiska föräldrars perspektiv. Sådana studier kan utgöra en grund för vidare forskning om hur insatser påverkar individers upplevelser, sociala situation och välbefinnande på både kort och lång sikt. Det krävs ytterligare studier för att avgöra hur insatser som har utarbetats för individer med avvikelser i utveckling och beteende, som till exempel ADHD, ska anpassas på bästa sätt för personer som också uppfyller kriterier för tillstånd inom FASD. Detta gäller både insatser direkt riktade till barnet och insatser till barnets omgivning som till exempel familjestöd.

## Diskussion

Barn som uppfyller kriterier för FASD kan ha svårigheter på en rad olika områden men trots det inte nå upp till kraven för en diagnos inom något av områdena som till exempel ADHD, autism eller intellektuell funktionsnedsättning. Det är viktigt att detta inte medför att barnen och deras familjer hamnar mellan stolarna vad gäller professionellt bemötande och insatser inom hälso- och sjukvården, socialtjänsten och skolan.

Trots att man i dagsläget inte vet omfattningen av olika funktionsnedsättningar eller hur den sociala situationen ser ut för barn som uppfyller kriterier för FASD, finns det en kunskap om vilka uttryck tillstånden kan ta. Denna kunskap är viktigt att beakta i utredningen av den enskilda individens behov.

# 1 Syfte

## Introduktion

Alkoholkonsumtion under graviditet kan störa utvecklingen av ett fosters hjärna under de kritiska perioderna av differentiering och tillväxt. Detta kan ske under alla de tre trimestrarna [3]. Typen och graden av effekter på barnet beror på ett komplext samspel mellan faktorer som dos, tidpunkt för alkohol-exponeringen och varaktighet. Även mammans och barnets genetiska uppsättning tillsammans med andra faktorer såsom barnets kön, mammans kost och eventuell undernäring, har betydelse för eventuella skador på fostret.

Fetala alkoholspektrumstörningar (FASD) är en paraplyterm som innefattar kognitiva, beteendemässiga och fysiska effekter som skulle kunna vara orsakade av alkoholexponering under fostertiden. I Sverige betecknas inte FASD som en diagnos medan däremot fetalt alkoholsyndrom (FAS), som är ett av flera tillstånd inom FASD, är en medicinsk diagnos. Den har koden Q86.0 i den internationella klassificeringen av sjukdomar, ICD-10, från 2011 som används inom den somatiska vården i Sverige [4]. Utöver FAS beskrivs i litteraturen andra tillstånd inom FASD, till exempel Partial FAS (pFAS), Alcohol-Related Birth Defects (ARBD) och Alcohol-Related Neurodevelopmental Disorder (ARND)<sup>1</sup>.

---

<sup>1</sup> Ett snarlikt tillstånd beskrivs i DSM-V (American Psychiatric Association, 2013) och benämns där ND-PAE (Neurobehavioral Disorder associated with Prenatal Alcohol Exposure) [5].

Det är oklart hur många individer som uppfyller kriterier för FASD, men det finns prevalensstudier och olika uppskattningar av förekomsten, vilka finns beskrivna i bilagan från Socialstyrelsen (Bilaga 11). De tillstånd som det handlar om skulle dock kunna uppstå av många olika och samverkande skäl.

## Uppdraget

I augusti 2015 gav regeringen SBU i uppdrag att, i samråd med Socialstyrelsen och Folkhälsomyndigheten, genomföra en granskning av metoder för diagnostik, föräldra- eller familjestöd samt barnhabilitering avseende alkohol- och drogskadade barn, inklusive fetala alkoholspektrumstörningar (FASD) [6].

Uppdraget ska ses mot bakgrund av ett nationellt utvecklingsarbete om stöd till barn i familjer med missbruk, psykisk sjukdom, psykisk funktionsnedsättning eller där våld förekommer [7]. När det gäller FASD har diskussionerna rört hur barn som exponerats för alkohol under fosterstadiet, och deras familjer, kan stödjas på olika sätt av kommuner och landsting.

## Avgränsningar

Utvärderingen har begränsats till tillstånd inom FASD. Effekter av droger under fosterstadiet utreds parallellt, bland annat genom en registerstudie om opioidläkemedel som Socialstyrelsen genomför tillsammans med Läkemedelsverket.

Denna utvärdering fokuserar på barn som uppfyller kriterier för tillstånd inom FASD, men detta bör inte ses som ett ställningstagande kring användningen av dessa tillståndsbeskrivningar, utan snarare som en utgångspunkt för att kunna diskutera ett potentiellt värde av dem. SBU har inte granskat det vetenskapliga underlaget för orsakssambandet mellan alkohol och de funktionsnedsättningar som karakteriseras av FASD-tillstånden. Vi har inte heller tagit ställning till om de funktionsnedsättningar som beskrivs i studierna är orsakade av alkohol eller andra faktorer. Det går därför inte att använda resultaten från utvärderingen för att bedöma förekomsten av alkoholskador i samhället, då de utfall på fysisk och psykisk hälsa, funktionsförmåga och social situation som utvärderas även kan bero på en rad andra och samverkande faktorer. På grund av ovanstående avgränsningar har vi inte heller granskat eller diskuterat preventionsinsatser.

Eftersom inte alla tillstånd inom FASD utgör medicinska diagnoser har vi valt att genomgående benämna dem tillstånd. Av samma skäl använder vi inte termen diagnostik utan benämner processen som identifiering av tillstånd. När detta är möjligt, skiljer vi på resultaten för individer med den medicinska diagnosen FAS från resultaten för övriga grupper.

Övriga avgränsningar för de enskilda delarna i rapporten beskrivs i Kapitel 3.

# Syfte

Rapportens övergripande fråga är om identifiering av tillstånd inom FASD (fetal alkoholspektrumstörningar) leder till att barn som uppfyller kriterier för dessa tillstånd och deras närstående får en bättre social situation och ökat välbefinnande. Syftet med projektet är att belysa denna övergripande fråga genom att vetenskapligt utvärdera en rad delfrågor:

1. Vad innebär olika tillstånd inom FASD för barnet, de närstående och samhället?
  - Vilken är omfattningen av funktionshindren, den fysiska och psykiska ohälsan och hur ser den sociala situationen ut hos de grupper som uppfyller kriterierna för FAS, pFAS, ARND eller ARBD?
  - Påverkas prognosen för funktionshindren, den fysiska och psykiska ohälsan och den sociala situationen av individens ålder vid diagnos/tillståndsbeskrivning?
  - Vilka upplevelser och erfarenheter har personer som uppfyller kriterier för FASD och deras familjer av att leva med dessa tillstånd, i deras vardag?
  - Vilka samhällskostnader förknippas med FAS och FASD i Sverige?
  - Vilka etiska aspekter aktualiseras vid identifiering av FAS och FASD?
2. Vilka effekter har olika insatser för barn som uppfyller kriterier för dessa tillstånd ur ett socialt, medicinskt, ekonomiskt och etiskt perspektiv?
  - Vilka effekter har olika insatser för barn som uppfyller kriterier för FASD-tillstånd och deras föräldrar?
  - Vilka upplevelser och erfarenheter av insatser har individer som uppfyller kriterierna för dessa tillstånd och deras närstående?
  - Vilka är de relevanta samhällsekonomiska aspekterna av insatser till individer som uppfyller kriterierna för dessa tillstånd?
  - Vilka etiska aspekter aktualiseras vid stödinsatser?

Värdet av att identifiera individer med FASD beror till stor del på vilka specifika insatser som kan erbjudas samt hur individer och familjer upplever beskrivningen av individens tillstånd som alkoholrelaterat. Vi har utgått från föreslagna kriterier för tillstånd och genom systematiska litteraturöversikter utvärderat vilken magnitud av funktionsnedsättningar de olika grupperna har, oavsett orsak till funktionsnedsättningar, samt vad de själva har för erfarenheter och upplevelser av att leva med dessa tillstånd – med målet att kunna koppla ihop beskrivningen av de olika tillstånden med de insatser vilkas effekter har

undersökts för dessa grupper. De systematiska översikterna har kompletterats med hälsoekonomiska och etiska analyser, en egen svensk registerstudie samt inhämtning av uppgifter kring upplevelser och erfarenheter från en brukarförening, FAS-föreningen.

# 2 Bakgrund

## Fetala alkoholspektrumstörningar (FASD) – en paraplyterm för flera tillstånd

FASD är en omdiskuterad paraplyterm för det spektrum av fosterskador som skulle kunna vara orsakade av mammans alkoholkonsumtion under graviditeten och är ingen medicinsk diagnos. Däremot är fetalt alkoholsyndrom (FAS) som hör hemma under FASD-paraplyet, en medicinsk diagnos [3]. Termen FAS introducerades 1973 och fastställdes om följande kriterier uppfylldes [8]:

1. modern hade ett bekräftat alkoholmissbruk under graviditeten,
2. karakteristiska avvikelser i barnets ansikte, till exempel korta ögonspringor, ett utslätat filtrum (det vertikala spåret mellan överläpp och näsa) och en tunn överläpp,
3. tillväxthämning,
4. tecken på dysfunktion i barnets centrala nervsystem (CNS).

Då senare forskning pekar på att alkohol kan orsaka ett brett spektrum av fosterskador, utöver de som ringas in av FAS-diagnosen, skapades FASD-termen. Detta har även lett till förslag på modifieringar av kriterierna. Det finns idag dock ingen internationell konsensus på synsätt eller diagnossystem för FASD. Flera länder använder termen och identifierar individer med hjälp

av olika kriterier. De fyra mest använda uppsättningarna för FASD och FAS är upprättade av olika forskningsinstitutioner i USA och Kanada:

1. *The 4-digit diagnostic code* [9],
2. The National Task Force on Fetal Alcohol Syndrome and Fetal Alcohol Effects [10,11],
3. *The Canadian Diagnostic Guidelines* [12],
4. *The Revised IOM Diagnostic Classification System* [13].

Det som skiljer uppsättningarna åt är att de föreslår olika tröskelvärden för några av kriterierna, som till exempel hur många millimeter som anses som avvikelser på längden på ögonspringorna och hur tunn överläppen ska vara [14]. De har även olika definitioner av vad som menas med prenatal alkoholexponering:

The 4-digit diagnostic code definierar inte ett specifikt mönster eller mängd alkohol som kvinnan ska ha konsumerat under graviditeten [9]. Alkohol-exponering anges endast om den förekommit eller inte.

The National Task Force on Fetal Alcohol Syndrome and Fetal Alcohol Effects definierar inte heller någon specifik mängd alkohol som kvinnan ska ha konsumerat under graviditeten, endast att det finns bevis för prenatal alkoholexponering, såsom självrapportering från mamman eller uppgifter från journaler [10,11].

The Canadian Diagnostic Guidelines [12] och the Revised IOM Diagnostic Classification System [13] definierar alkoholexponering som att kvinnan vanligtvis samt utspritt över tid eller i perioder, har konsumerat stora mängder alkohol under graviditeten.

Alla fyra uppsättningarna föreslår dock att FAS-diagnosen ska kunna ställas vid misstanke om att individen har exponerats för alkohol som foster, men att det inte måste kunna bekräftas. Det vanligaste är att den biologiska mamman kan berätta att hon har druckit alkohol under graviditeten, eller att detta finns dokumenterat i exempelvis journaler. Anledningen till den här förändringen av de ursprungliga FAS-diagnoskriterierna är att man ibland ska kunna använda diagnosen även i de fall den biologiska mamman är okänd eller avliden.

Mot bakgrund av de fyra amerikanska och kanadensiska diagnoskriterierna kan FAS-diagnosen idag ställas om följande kriterier är uppfyllda:

1. karakteristiska ansiktsavvikelser, exempelvis korta ögonspringor, utslätat filtrum och en tunn överläpp,
2. prenatal och eller postnatal vikt eller längd under 10:e percentilen och
3. tecken på dysfunktion i centrala nervsystemet, strukturell hjärnanomali eller ett huvudomfång under den 10:e percentilen.

Dessa tre kriterier är man inom de fyra amerikanska och kanadensiska diagnoskriterierna överens om [15].



Förutom FAS definierar även de fyra uppsättningarna andra tillstånd under FASD paraplyet där individerna inte uppfyller kriterierna för fullt utvecklad FAS: *Partial FAS (pFAS)*, *Alcohol-Related Birth Defects (ARBD)*, samt *Alcohol-Related Neurodevelopmental Disorder (ARND)*<sup>1</sup>. Kriterierna för dessa tillstånd beskrivs nedan och illustreras sammanfattande i Tabell 2.1. Som framgår i Tabell 2.1 definieras tillstånden något olika.

*Partial fetal alcohol syndrome (pFAS)* beskriver ett tillstånd med några, men inte alla, av de kriterier som krävs för en FAS-diagnos. Avvikelser i ansiktets uppbyggnad beskrivs i kriterierna för FAS och pFAS. Tillväxthämning noteras ibland vid pFAS och alltid vid FAS. Såväl i FAS som i pFAS ingår, utöver de fysiska avvikelserna, beteendeproblematik och nedsatt kognitiv utveckling. Båda tillstånden kan konstateras om man säkert vet att mamman har druckit alkohol under graviditeten, men även om detta inte kan bekräftas [13].

*Alcohol related birth defects (ARBD)* kan användas när barn är födda med olika typer av missbildning, och där det finns en bekräftad alkoholexponering under fostertiden. Kriterier för FAS/pFAS behöver inte vara uppfyllda men vissa avvikelser i ansiktsdragen kan finnas [13].

*Alcohol related neurodevelopmental disorder (ARND)* beskriver tillståndet hos barn med bekräftad alkoholexponering under fostertiden och som har beteendeproblematik och avvikande kognitiv utveckling. Dessa barn har normal tillväxt och saknar de karaktäristiska ansiktsdragen som krävs för en FAS-diagnos [15]. Inom psykiatri i Sverige används the Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders femte upplaga (DSM-5) [5]. Ett avsnitt i DSM-5 innehåller förslag på diagnoser i kommande versioner av DSM. Där föreslås diagnosen *Neurobehavioral Disorder associated with Prenatal Alcohol Exposure (ND-PAE)* som kan komma att ersätta termen ARND. Följande kriterier ska då uppfyllas för att en ND-PAE-diagnos ska kunna ställas:

1. bekräftad prenatal alkoholexponering (definieras då kvinnan under graviditeten har konsumerat minst 1–13 standardglas alkohol per månad och/eller då minst 2 av standardglasen är konsumerade vid samma tillfälle),
2. nedsatt kognitiv funktion, till exempel nedsatta exekutiva funktioner,
3. nedsatt förmåga till självreglering, såsom uppmärksamhetsstörning och impulskontroll,
4. nedsatta adaptiva funktioner, såsom social kommunikation och interaktion [16].

Diagnosen ND-PAE är en psykiatrisk diagnos som ringar in beteendeproblematiken och den nedsatta kognitiva utvecklingen som kan bli följden av alkoholexponering under fostertiden. Det medför att en individ som har de fysiologiska avvikelserna och kan få en FAS-diagnos, även kan få en ND-PAE-diagnos [17].

---

<sup>1</sup> I DSM-5 (American Psychiatric Association, 2013) benämnt som ND-PAE (*Neurobehavioral Disorder associated with Prenatal Alcohol Exposure*) [5].

**Tabell 2.1**  
Sammanfattning av faktorer utmärkande för de olika tillstånden under FASD.

	ND-PAE/ARND	ARBD	pFAS	FAS
Dokumenterad alkoholexponering	Ja, måste finnas*	Ja, måste finnas*	Nej, måste inte finnas	Nej, måste inte finnas
Ansiktsavvikelser	Nej	Otydliga till tydliga*	Tydliga*	Tydliga*
Tillväxthämning	Nej	Nej, men andra strukturella avvikelser*	Ibland*	Ja*
Kognitiva och beteendeproblem	Milda till allvarliga*	Inga	Milda till allvarliga*	Allvarliga

\* Diagnos- eller tillståndskriterier.

**ARBD** = Alcohol-related birth defects; **ARND** = Alcohol-related neurodevelopmental disorder; **FAS** = Fetal alcohol syndrome; **ND-PAE** = Neurobehavioural disorder associated with prenatal alcohol exposure; **pFAS** = Partial fetal alcohol syndrome

## Diagnos och tillståndskriterier

Alla de fyra vanligen använda uppsättningarna med diagnoskriterier [9,10,12,13] använder termerna *FASD*, *pFAS*, *ARBD* och *ND-PAE/ARND*. I nuläget råder ingen enighet om vilken av de fyra uppsättningarna med diagnoskriterier som bör användas internationellt. I en artikel publicerad 2016 görs ett försök att åtgärda det problemet [18]. I artikeln revideras bland annat definitionen av dokumenterad prenatal alkoholexponering; de neuropsykologiska kriterierna för diagnostisering av FAS, pFAS och ARND och de diagnostiska kriterierna för ARBD. Den uppdatering som presenteras av tillstånden och tillhörande diagnoskriterier har generellt gått från att som tidigare definiera och kategorisera strukturella avvikelser till att beskriva avvikelser i funktion.

### Svårigheter hos individer med FASD

#### Tillväxt, ansiktsdrag, missbildningar

När FAS först beskrevs kom intresset att riktas mot tydliga förändringar i uppbyggnaden av ansiktet, tillväxtstörning samt ett litet huvudomfång. Bland fynden i djurmodeller och kliniskt vid FAS finns korta ögonspringor, utslätat filtrum, smal överläpp, ofta epikantus (veck i inre ögonvrån), ibland ptos (hängande ögonlock). Till missbildningar vid FAS hör ofta underutveckling av mellanansiktet, den delen av ansiktsskelettet som kallas maxilla. Barn med FAS är små vid födseln och fortsätter att vara kortare än jämnåriga under uppväxten och som vuxna. Ett litet huvudomfång (mikrocefali) är tecken på bristande tillväxt av hjärnan. Olika former av avvikelser i hur hjärnan är uppbyggd kan upptäckas vid till exempel magnetkameraundersökning.

Missbildningar eller underutveckling under fosterstadiet kan också drabba ögonbulber, ögonnerver samt nervförsörjning till och funktion i de muskler som styr ögonrörelserna. Individen kan ha mer eller mindre nedsatt synförmåga och det är stor variation i de fynd som en ögonundersökning visar, till exempel underutveckling av synnerverna, mikroftalmus (onormalt litet öga), skelning

och brytningsfel [19,20]. På motsvarande sätt som för ögon och syn kan också alla delar av öron och hörselbanor drabbas av missbildning och underutveckling. Detta kan leda till hörselnedsättning, vilket också kan uppkomma som restillstånd efter öroninflammationer [21].

Barn som stämmer in på kriterierna för FAS och pFAS (Tabell 2.1) kan också ha andra former av missbildningar. Termen ARBD är tillämplig på barn som föds med missbildningar där det finns klara belägg för att de varit exponerade för alkohol, men de har inte fått någon tillväxtstörning och har oftast inte de för FAS specifika ansiktsdragen. Bakgrunden kan vara komplex med även andra möjliga orsaksfaktorer.

## Funktionsnedsättningar

De avvikelser i kroppens uppbyggnad som beskrivs ovan kan leda till varierande funktionsnedsättning och de strukturella avvikelserna i hjärnan kan visa sig i form av svårigheter med motorik, syn och hörsel med mera. Medfödda neuropsykologiska funktionsnedsättningar och beteendestörningar är vanligt förekommande och hör till de kriterier som ska vara uppfyllda vid FASD-tillstånd (med undantag för ARBD) [22,23]. Exempel på sådana funktionsnedsättningar är nedsatta kognitiva funktioner, till exempel nedsatt intellektuell förmåga, minnesnedsättningar och inlärningssvårigheter [16]. En individ som har dessa funktionsnedsättningar kan ha svårt med abstrakt tänkande, att föra teoretiska resonemang och svårt att lära sig av tidigare erfarenheter och generalisera kunskaper.

Nedsättning av exekutiva funktioner brukar lyftas fram i samband med FASD [16]. Exekutiva funktioner är en sammanfattande benämning på de förmågor som en person behöver för att kunna reglera sitt beteende och för att kunna använda sin kapacitet för till exempel inlärning och socialt samspel – hit hör förmågorna att kunna fokusera och upprätthålla uppmärksamheten, ha kontroll över impulser och aktivitetsnivå, kunna planera och samtidigt vara flexibel och kunna anpassa sig efter en situation. Svårigheter med exekutiva funktioner kan yttra sig som hyperaktivitet, det vill säga svårigheter att sitta stilla och en känsla av rastlöshet, men också som låg aktivitetsnivå. Det kan vara impulser i stunden som styr beteendet och personen kan vara lätt distraherad med ett oorganiserat, oplanerat beteende.

## Funktionshinder

De tidigare beskrivna funktionsnedsättningarna kan göra flera vardagliga situationer svåra att hantera, eftersom funktionerna behövs för att kunna fungera i samhället och i relation till andra människor. Individer som lever med dessa funktionsnedsättningar riskerar därför att utveckla problem i familj, förskola, skola och i andra sammanhang. De blir begränsade av sina svårigheter både inlärningsmässigt och socialt [24]. De kan även ha svårt att klara sig själva i det dagliga livet, ha svårt med sociala relationer, bristande delaktighet i fritids- och kulturaktiviteter och demokratiska processer.

Personer med kognitiva svårigheter och bristfällig utbildning kan ha svårt att både få ett arbete samt att kunna behålla det. Därmed riskerar dessa personer

att inte kunna vara självförsörjande utan istället bli beroende av ekonomiskt bistånd och sjuk- eller aktivitetsersättning. De kan också ha problem med dålig psykisk hälsa, såsom psykotiska symtom, depression och ångest eller bipolär sjukdom [25], samt med nyttjande av alkohol eller narkotika [26].

De beteendeproblem som ibland förekommer hos individer som uppfyller kriterierna för FASD, har även föreslagits kunna leda till en ökad risk för att hamna i kriminalitet [27,28]. I en brasiliansk studie fann man till exempel att ungdomar som exponerats för alkohol under graviditet hade utvecklat ett kriminellt beteende [29] och bland kanadensiska ungdomar uppskattas risken att hamna i fängelse för dessa individer vara 19 gånger större än för de som inte uppfyller kriterierna för FASD. I Kanada har det även visat sig vid gjorda uppskattningar att det kan finnas ett högt antal odiagnostiserade personer med FASD inom kriminalvården [30].

## Omfattning av svårigheter

Förekomsten av FASD i Sverige är oklar. Trots att FAS har status som diagnos i ICD-10 och relativt tydliga internationella diagnoskriterier anser forskare, kliniker och brukarorganisationer att diagnosen ställs alltför sällan i relation till hur vanligt man tror att tillstånden är [31,32]. Dessutom kan tillstånd som relateras till alkoholexponering under fostertiden och som inte uppfyller kriterierna för FAS, vara okända inom sjukvården [33,34] eftersom det saknas konsensus kring FASD och dess existens. Detta kan innebära att individer med FASD kan vara oidentifierade och att förekomsten därför kan vara högre än vad studier och register visar.

För att kunna värdera betydelsen av denna typ av diagnostik är det viktigt att veta magnituden av olika funktionsnedsättningar och funktionshinder i de definierade grupperna under FASD-paraplyet (FAS, pFAS, ARND, ARBD) och detta är huvudfokus i avsnittet om prevalens av funktionsnedsättningar och livssituation i Kapitel 4.

## Samhällets stöd till barn och föräldrar

Barn som uppfyller kriterier för FASD har en varierande och komplex problematik och ett behov av extra insatser jämfört med jämnåriga. Dessutom påverkas familjernas och andra närståendes livssituation av barnens funktionsnedsättningar. Dessa familjer kan dessutom ha ett särskilt behov av samhällsstöd, som till exempel vid familjehemsplaceringar, adoption eller då föräldrarna har en beroendesjukdom eller andra svårigheter. Samhällets insatser behöver därför anpassas. Extra resurser krävs och styrs dock i många avseenden av lagar och andra författningar. Det finns dessutom lokala överenskommelser som avgör hur arbetsuppgifter och ansvar fördelas. I följande avsnitt beskrivs de aktörer som ska bidra med insatser till dessa barn och deras familjer, vilka insatser som de har att tillgå och organisationen av dessa insatser, samt aktörernas skyldigheter och individerna och deras familjers rättigheter. I Kapitel 5 utvärderas det vetenskapliga underlaget för insatser till individer med FASD och deras familjer.

## Hälso- och sjukvård

Barnhälsovården och barnmedicinska kliniker och mottagningar är vanligen inkopplade vid identifiering av FASD (Tabell 2.2 och 2.3). Misstankar om FASD kan finnas redan från nyföddhetsperioden när en föräldrar har en känd beroendeproblematik. I vissa fall finns tillväxtstörning och/eller missbildningar eller yttre kännetecken i barnets utseende som gör att misstanke om FASD kommer upp tidigt vid rutinmässiga hälsokontroller; detta gäller barn födda i Sverige liksom barn som adopterats från andra länder. Frågeställningen FASD kan också väckas senare, till exempel i samband med utredning av avvikelser i utvecklingen. Sådana utredningar kan göras både inom barnmedicin och barnpsykiatri och på barn i alla åldrar. Till barnpsykiatrisk mottagning kommer också barn med beteendeproblem och/eller misstanke på psykiatrisk sjukdom. Kunskap om och uppmärksamhet på tecken på FASD måste således finnas också vid utredningar på barnpsykiatrisk mottagning. Barn med FASD och deras vårdnadshavare behöver sedan uppföljning på barnmedicinsk eller barnpsykiatrisk mottagning för kompletterande utredning vid behov och för att kunna ta upp hälsoproblem (sömn, nutrition, beteende m.m.). Elevvården har också en viktig funktion. För vissa barn krävs extra medicinska kontroller och åtgärder, exempelvis för barn med avvikelser i syn och ögonstatus och/eller med hörselproblem. I Figur 2.1 beskrivs två patientfall.

	Nivå I	Nivå II	Nivå III
Intention	<b>Diagnos = benämning</b> enligt internationellt klassifikationssystem*	<b>Kartläggning av funktionsnivå</b> inom olika områden	<b>Sökande efter bakgrund/orsak/en medicinsk diagnos</b> samt efter andra samtidiga hälsoproblem
Metodik	Genom intervjuer, observationer (samt testningar efter behov), bedöms om kriterierna är uppfyllda för en viss diagnos (eventuellt för mer än en)	Bedömningar med olika instrument och av olika yrkeskategorier kan ingå; omfattningen varierar. Kartläggning utförs också i vardagen i förskola/skola utan att det behöver vara kopplat till att man söker efter en diagnos	Medicinska undersökningar/bedömningar för att finna tecken på genetisk faktor och/eller skadefaktor i omgivningen, som kan förklara symtombilden. Förutom ovanstående faktorer inverkar också sociala förhållanden till hur symtombilden ter sig
Betydelse	Ger individ/familj möjlighet att söka information, få kontakt med brukargrupp m.m. Kan i vissa fall innebära att barn och familj får specifika resurser i samhället (t.ex. via LSS)	Nödvändigt för att kunna ge rätt form av insatser, t.ex. i habiliteringen. Kartläggning kan behöva upprepas under barnets uppväxt	Kunskap kan minska komplikationer till ett tillstånd/förbättra hälsoläget För familjer kan kunskapen minska oro och behov att söka ytterligare utredningar. Vid vissa tillstånd kan familjer erbjudas genetisk vägledning
Speciellt vid FASD	Stor variation inom gruppen med FASD; barn kan också ha betydande svårigheter utan att någon diagnos stämmer in vad gäller deras avvikelser i utveckling och beteende	Stor variation; vissa mönster av svårigheter beskrivs i studier men inte så att detta stämmer in på alla barn som uppfyller kriterier för FASD	En tydlig medicinsk diagnos som FASD kan ha positiva effekter enligt ovan men risker kan också finnas för att individer känner sig utpekade. För övriga diagnoser inom FASD, där orsaksförhållanden kan vara mer komplexa, ökar den etiska problematiken

**Tabell 2.2**  
Diagnostik vid avvikelser i utveckling och beteende hos barn.

\* De vanligaste diagnoserna är ADHD, autism, intellektuell funktionsnedsättning (tidigare benämnt utvecklingsstörning), språkstörning, dyslexi och andra specifika inlärningssvårigheter.

**Tabell 2.3**  
Två exempel på hur  
diagnostik av misstänkt  
FAS kan se ut.

Kön, ålder och bakgrund	Diagnostisering
<p><i>Flicka, 7 år</i> Adopterad från Östeuropa vid 9 månaders ålder</p>	<p>Bedömning på barnmedicinsk klinik då flickan är 18 månader gammal visar klar bild av <b>FAS</b> (diagnostik nivå III i tabellen ovan).</p> <p>I förskoleåldern noteras sen språkutveckling samt koncentrationsproblem; utredning inför skolstarten (diagnostik nivå I) leder till diagnosen <b>ADHD</b>.</p> <p>Flickan uppvisar också svårigheter med socialt samspel och kommunikation men inte så att kriterierna för autism är uppfyllda. Hon har kognitiva svårigheter med begåvningsnivå som ligger lågt inom det så kallade normalområdet på gränsen till intellektuell funktionsnedsättning.</p> <p>Kartläggning av neuropsykologiska/kognitiva bakgrundsfaktorer visar <b>svårigheter med språkförståelse och påtagliga brister i arbetsminne</b> (nivå II).</p> <p><b>Planerade insatser och uppföljning:</b> Vid skolstarten kommer flickan att få extra vuxenstöd i inlärningsituationer och för att underlätta samspelet med jämnåriga. Familjen har kontakt med en barnmedicinsk mottagning för medicinska frågor och för att efter behov få hjälp med intyg, remisser till andra instanser och dylikt; diskussion pågår om möjligheten att få insatser från ett habiliteringsteam.</p>
<p><i>Pojke, 10 år</i> Enligt journalanteckningar har pojken haft en normal nyföddhetsperiod. Han blev tidigt remitterad till ögonläkare på grund av skelning och han hade täta öroninflammationer som liten. Hörselundersökning vid skolstarten visar hörselnedsättning, som troligen funnits en tid.</p> <p>Pojken är kortvuxen jämfört med föräldrar och syskon. Han har också ett relativt litet huvudomfång (på gränsen till det som enligt kriterierna anses tyda på FAS). Han har inte några speciellt avvikande ansiktsdrag.</p> <p>I skolan uppvisar pojken inlärnings svårigheter och har problem med kamratkontakter.</p>	<p>En allsidig utvecklingsbedömning visar att pojken har <b>intellektuell funktionsnedsättning</b> (med IQ &lt;70 i kombination med tydliga svårigheter med aktiviteterna i vardagen). Kartläggning av övriga förmågor visar uttalade <b>svårigheter med arbetsminne och vissa perceptionsproblem</b> (diagnostik nivåerna I och II).</p> <p>Vid samtal med pojkens föräldrar (vid försök att diagnostisera på nivå III) framkommer att fadern visat drag av ADHD. Graviditeten upptäcktes relativt sent, runt vecka 10–12. Modern använde alkohol i vad hon själv bedömer vara normal omfattning för svenska kvinnor. Hon minns att hon var på fest ett par gånger under de första månaderna av graviditeten.</p> <p>Enligt bedömning på barnneurologisk mottagning har pojken inte några symtom som ger anledning att göra en magnetkameraundersökning av hjärnan. Utredning med tanke på ärftliga faktorer visar inget avvikande (med reservation för att det finns gränser för vad som kan upptäckas med nuvarande metodik).</p> <p><b>Planerade insatser och uppföljning:</b> Det bedöms inte vara aktuellt att använda någon term inom FASD för att beskriva pojkens svårigheter. Föräldrarna uppfattar att det varit till hjälp att få diskutera möjliga orsaker; de är införstådda med att det inte går att utesluta inverkan av alkohol bland komplexa och samverkande faktorer.</p> <p>Pojken får insatser från ett habiliteringsteam vilket inkluderar läkare.</p>

## Insatser från socialtjänst

Socialtjänsten kan vara inkopplad från det att barnet är litet som vid tidig placering i familjehem, men ibland blir behoven tillräckligt tydliga först senare. I mindre lyckosamma fall krävs intensiva insatser under barnets uppväxt med exempelvis omplaceringar, boendestöd och annat. Vissa barn som uppfyller kriterier för FASD har diagnoser som gör att de har rätt till stöd och service

enligt Lagen om stöd och service till vissa funktionshindrade (LSS), som till exempel vid psykisk utvecklingsstörning eller autism. I många kommuner eller stadsdelar kan familjer som har barn med ADHD och liknande svårigheter till exempel få föräldrastöd och träning där olika metoder används. Ofta ges information och träning i grupp, men det varierar beroende på om detta sker helt i socialtjänstens regi eller i samverkan med barnpsykiatrisk mottagning.

## **Särskilt stöd i förskola och skola samt olika skolformer**

En betydande andel av alla barn i en årskull har svårigheter och behöver särskilt stöd i förskola och skola. Till denna grupp hör även barn som uppfyller kriterier för FASD. Om barnet har en diagnos eller inte ska enligt Skollagen (2010:800) inte ha någon betydelse för om barnet ska få tillgång till extra stöd, utan det är barnets behov och förskolans eller skolans bedömning som ska vara avgörande. Parallellt kan det också vara nödvändigt med en utredning (en diagnostisk process) för att få fram tillräckligt god beskrivning av barnets förmågor och problem, för att den rätta miljön ska skapas och adekvat stöd ska sättas in. För de barn som uppfyller kriterierna för FASD kan det handla om varierat behov av hjälp – till exempel med inlärning och socialt samspel samt för att utveckla leken och hitta sätt att motverka problem med koncentration, planering och impulsivt beteende.

I en etnografisk avhandling om skolsituationen för barn med syndromdiagnoser (bland annat barn med FAS) från Göteborgs universitet, framkom att det som är specifikt för denna diagnos i skolsituationen, inte är så unikt [35]. Elevers individuella förutsättningar samt andra faktorer inverkar på hur skolsituationen gestaltar sig. Kommunikationen, relationen och samverkan mellan olika aktörer i och utanför skolan är avgörande för möjligheter till delaktighet och lärande bland elever med behov av särskilt stöd. Lärare fann att en diagnos kan underlätta ett professionellt förhållningssätt, ge förklaringar och förståelse samt vara ett påtryckningsmedel. Enligt avhandlingen är en diagnos trots allt inte någon betydelsefull förklaring till vad som händer i skolsituationen och den ger begränsad vägledning för hur det pedagogiska arbetet ska bedrivas.

Extra anpassningar inom ramen för ordinarie undervisning kan ges till elever där det finns risk för att kunskapsmålen inte nås. Om det inte räcker med extra anpassningar kan särskilt stöd ges i form av insatser utanför ordinarie undervisning. Eleven kan ha så omfattande behov av struktur att specialpedagogiska insatser kan behövas under en längre tid. Ett individuellt åtgärdsprogram utarbetas för varje elev och skolan kan även ansöka om specialpedagogiskt stöd för insatser till ett barn vid Specialpedagogiska skolmyndigheten.

Barn som inte bedöms kunna nå upp till grundskolans kunskapskrav på grund av en intellektuell funktionsnedsättning, ska tas emot i grundsärskolan (Skollagen 7 kap. 5 §). Detta prövas av barnets hemkommun. Beslut om mottagande i grundsärskolan ska föregås av en utredning som omfattar en pedagogisk, psykologisk, medicinsk och social bedömning. Samråd ska ske med barnets vårdnadshavare när utredningen genomförs.



Gymnasiesärskolan ska ge elever med intellektuell funktionsnedsättning en för dem anpassad utbildning som ska ge en god grund för utveckling och ett aktivt deltagande i samhällslivet (18 kap. 2 §).

## Habilitering

Begreppet habilitering betyder att ge stöd och behandling till personer som har medfödda eller tidigt förvärvade livslånga funktionshinder. Detta skiljer sig från rehabilitering som ges till skadade personer som tidigare varit friska. Habilitering bedrivs i Sverige inom landstingen vid habiliteringscenter för vuxna eller barn och vissa speciella enheter som habiliteringsenheter på skolor för barn med rörelsehinder; inom en del landsting finns också särskilda centra för barn och vuxna med tillstånd inom autismspektrum. Multiprofessionella team ger insatser efter individuellt behov; i teamen ingår oftast, men inte alltid, arbetsterapeuter, kuratorer, logoped, läkare, psykologer, specialpedagoger, sjukgymnaster och sjuksköterskor. Det finns undantag i hur teamen är sammansatta, till exempel kan läkare och sjuksköterskor saknas i teamen, vilket då innebär att personal på barnmedicinska och barnpsykiatriska mottagningar bör samverka med habiliteringsteam kring medicinska frågor. Även familjemedlemmar till barn med funktionshinder kan behöva insatser i form av råd, stöd och behandling. Genom ett kvalificerat stöd med insatser till både barnet, familjen och dess nätverk vill man påverka såväl barnets möjligheter till en god uppväxt som föräldrarnas välbefinnande. För att barn ska vara aktuella för insatser från barnhabiliterings team krävs (som regel) att de genomgått en utredning som lett fram till en diagnos.

Vilka grupper som får insatser från habiliteringsorganisationen varierar inom landet. Ansvarsområden kan vara uppdelade på olika sätt mellan habilitering och barn- och ungdomspsykiatriska mottagningar, till exempel för barn med avvikelser i utvecklingen som ADHD och autismspektrumtillstånd. Många personer med betydande funktionsnedsättningar får inte tillgång till habilitering. För dessa personer är det inte heller självklart att de får något stadigvarande stöd från psykiatri eller kommunala instanser. Detta gäller exempelvis personer med tydliga kognitiva svårigheter men med testresultat som ligger över den nivå som motsvarar intellektuell funktionsnedsättning (Faktaruta 4.1). Barn med svår språkstörning hör också hit. Det finns också barn med komplexa svårigheter som innefattar flera områden men där inte någon enskild diagnos kan ställas. Barn som uppfyller kriterier för FASD hör till gruppen med sammansatt eller komplex problematik där det inte alltid går att fastställa ett väl beskrivet funktionshinder som idag leder till insatser från landstingens habiliteringsteam. Litteraturen om habilitering vid FASD bygger på förutsättningen att tidig intervention kan vara av värde för att minska de funktionsnedsättningar som följer av det medicinska tillståndet [23]. I en översikt beskriver Bertrand och medarbetare att insatser som utarbetats för andra grupper används utan anpassningar till FASD med underförstådd åsikt att en sådan anpassning är värdefull [36]. I Kapitel 5 utvärderas stöd till barn, föräldrar och familjer.



# Juridiska utgångspunkter för stöd i olika former

För barn som uppfyller kriterier för FASD och deras vårdnadshavare kan stödet från samhället ha en avgörande betydelse. En viktig utgångspunkt är att möjligheterna att få stöd från skolan, sjukvården och socialtjänsten inte ska vara beroende av någon diagnos, utan av den enskildes behov av stöd och oavsett vad som har orsakat behovet.

Det är barnets bästa som ska prioriteras vid alla åtgärder som rör ett barn. Begreppet ”barnets bästa” är grundpelare i Barnkonventionen och i Konventionen om rättigheter för personer med funktionsnedsättning. Vad som är barnets bästa måste avgöras i varje enskilt fall. Däremot kan en gravid kvinna i Sverige inte tvångsvårdas för sitt missbruk i syfte att förhindra fosterskador till följd av missbruket. Det ofödda barnet saknar därför rättsligt skydd.

Möjligheterna att få stöd inom hälso- och sjukvården, skolan och socialtjänsten regleras framför allt genom bestämmelser i hälso- och sjukvårdslagen (HSL), skollagen (Skoll) och socialtjänstlagen (SoL), som gäller alla barn och föräldrar (Bilaga 9). Lagen om stöd och service till vissa funktionshindrade (LSS) syftar till att garantera personer med omfattande och varaktiga funktionsnedsättningar stöd som kan undanröja svårigheter i den dagliga livsföringen (Bilaga 9). Det finns både likheter och skillnader i lagstiftningen på detta område. De aktuella lagarna innehåller exempelvis likartade bestämmelser om barnets bästa och rätt att vara delaktig, om individuella planer och samverkan. Skillnaderna märks tydligast när det gäller LSS, som inte gäller alla utan bara vissa kategorier av personer och vissa i lagen angivna insatser. Vilka grupper som omfattas av lagens personkrets framgår av 1 § (bland annat personer ”med intellektuell funktionsnedsättning, autism eller autismliknande tillstånd” (grupp 1).

För insatser inom hälso- och sjukvården, skolan och socialtjänsten finns det en gemensam nämnare då möjligheterna att få stöd inte är beroende av någon diagnos utan av den enskildes behov. Villkoren för rätt till insatser enligt LSS skiljer sig således. Barn som uppfyller kriterier för FASD, men som inte tillhör grupp 1 i LSS, kan efter bedömning istället komma att tillhöra grupp 3 i LSS, det vill säga personer ”med andra varaktiga fysiska eller psykiska funktionshinder som uppenbart inte beror på normalt åldrande, om de är stora och förorsakar betydande svårigheter i den dagliga livsföringen och därmed ett omfattande behov av stöd eller service”.

Vårdnadshavare till barn med funktionsnedsättning kan också ansöka om vårdbidrag hos Försäkringskassan. Förutsättningarna för vårdbidrag regleras genom bestämmelser i 22 kap. socialförsäkringsbalken. Vårdbidrag kan beviljas om barnet behöver särskild tillsyn och vård under minst sex månader. Vårdnadshavarna kan också ha rätt till vårdbidrag om det på grund av barnets sjukdom eller funktionshinder uppkommer merkostnader, det vill säga kostnader som en vårdnadshavare har utöver de som är normalt för ett barn utan funktionsnedsättning.

En laglig möjlighet till hjälp med att navigera i vårdsystemet finns genom så kallad fast vårdkontakt (HSL 29a). Vad som gäller ifråga om hälso- och sjukvårdens ansvar och uppgifter, skolans ansvar för stöd till barn och elever, rätten till bistånd enligt SoL och rätten till insatser enligt LSS redovisas mer detaljerat i Bilaga 9.

# 3 Metod för utvärderingen

## Samråd mellan myndigheter

Under projektets gång har en myndighetsgrupp med representanter från SBU, Socialstyrelsen och Folkhälsomyndigheten (Kapitel 9) träffats vid flera tillfällen för att precisera projektets frågor och inklusionskriterier, samt för att diskutera tolkning och presentation av resultaten.

## Litteratursökning och inklusionskriterier

Med utgångspunkt från projektets frågeställningar har systematiska sökningar i bibliografiska databaser gjorts av informationsspecialist i nära samarbete med sakkunniga och projektgrupp. Sökningarna är gjorda i databaserna Cinahl, Cochrane, Embase, ERIC, PsycInfo, PubMed, SocIndex, Sociological Abstracts & Social Services Abstracts och Scopus. Syftet med sökningen var att fånga alla vetenskapliga artiklar om FAS/FASD, utan några begränsningar till typ av insats, studiedesign eller var studien gjorts. Sökningen begränsades till vetenskapliga artiklar på engelska eller skandinaviska språk. Ingen avgränsning till publiceringsår gjordes i själva sökningen, men projektgruppen valde att införa en tidsbegränsning i granskningen av artikelsammanfattningar. Man valde då att endast granska de artiklar som publicerades från år 2000 och framåt angående tillståndsbeskrivning av FASD, eftersom tillstånden pFAS, ARND

och ARBD definierades först under senare år, och från år 1990 och framåt för artiklar angående insatser riktade till barn och familj samt kvalitativa studier.

För studier om prevalens av funktionsnedsättningar hos personer med diagnosen FAS, kompletterades sökningen med studier publicerade före 2000 utifrån referenserna i en publicerad systematisk översikt publicerad 2016 om samsjuklighet och FASD [37].

Artiklarnas referenslistor har granskats och handsökning har också gjorts. Sökningarna i databaserna gjordes i september 2015, med en uppdatering i juni och en i september 2016. Sökstrategierna redovisas i detalj i Bilaga 3.

För sökning efter kvalitativa studier kompletterades de mer omfattande sökningarna, vars syfte var att identifiera publicerade vetenskapliga artiklar, med enklare och något mindre omfattande sökningar efter svenska avhandlingar och uppsatser (så kallad grå litteratur). Dessa sökningar gjordes i september 2016 i databaserna DIVA och SwePub. Sökstrategierna redovisas i detalj i Bilaga 3. Grå litteratur söktes även på universitet och organisationers webbplatser samt genom kontakt med FAS-föreningen.

## Populationer

I den systematiska översikten på prevalens av funktionsnedsättningar och social situation inkluderades endast studier av populationer som uppfyllde kriterierna för något av följande tillstånd [9,10,12,13,18]:

- Fetal alcohol syndrome (FAS, diagnoskod Q86.0; ICD-10) [4]
- Partial FAS (pFAS)
- Alcohol-Related Birth Defects (ARBD)
- Neurobehavioral Disorder associated with Prenatal Alcohol Exposure (ND-PAE)/Alcohol-Related Neurodevelopmental Disorder (ARND).

De systematiska översikterna av upplevelser och erfarenheter samt nytta och risk av insatser till barn och familjer inkluderar även grupper av individer som uppfyller kriterier för två eller flera av ovanstående tillstånd, eller individer som uppfyller kriterier för paraplytermen FASD utan att preciseras närmare. Dessa utvärderingar inkluderar även studier på föräldrars upplevelser och erfarenheter samt effekter av interventioner riktade till föräldrarna.

## Interventioner

Studier av insatser för barn som uppfyller kriterier för FASD och deras familjer har inkluderats endast om effekten av den riktade interventionen kan jämföras med tillståndet i en kontrollgrupp där barnen eller föräldrarna får en annan intervention eller en sedvanlig insats i vården, skolan eller socialtjänsten.

*Interventioner för barn* kan till exempel vara:

- neurokognitiva
- pedagogiska
- träning i social färdighet

*Interventioner för föräldrar/familj* kan till exempel vara:

- avlastning
- utbildning
- socialarbetarkontakt

## Utfallsmått

### För barn och ungdomar

Utvärderingen inkluderar studier med utfallsmått på individers fysiska och psykiska hälsa, funktionsförmåga och sociala situation.

*Utfallsområden för barn* kan vara effekter på och upplevelser av

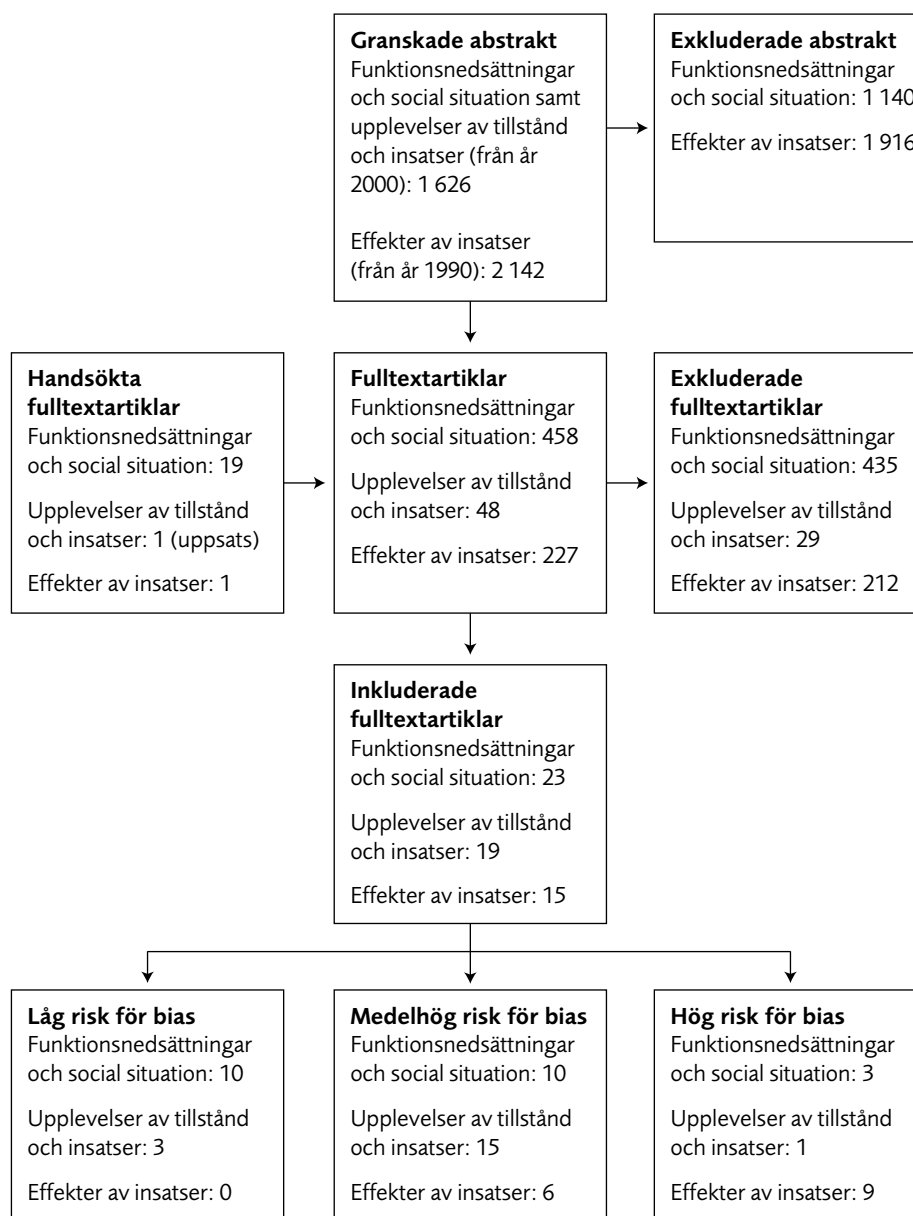
- fysisk och psykisk hälsa
- förmåga avseende kognition, social interaktion/kommunikation, impuls kontroll
- färdigheter avseende språk och tal, läsning, skrivning, matematik, hantera information, säkerhet
- social situation (utbildningsnivå, försörjning, kriminalitet, eget boende, daglig livsföring, familjeförhållanden såsom placering utanför egen familj).

*Utfallsområden för föräldrar* kan vara effekter på och upplevelser av

- förmåga att hjälpa och hantera barnet och familjelivet
- fysisk och psykisk hälsa, stress
- och social situation (ekonomi, arbete, boende och familjesituation).

En första gallring av de artikelsammanfattningar som genererades vid databas-sökningen gjordes vid SBU:s kansli av fyra personer som två och två gjorde bedömningarna oberoende av varandra. De sakkunniga i projektet gjorde sedan ytterligare en granskning av abstrakten. De studier som minst en av de sakkunniga bedömde vara relevanta för frågeställningen beställdes i fulltext. De studier som vid granskningen av den fullständiga texten inte visade sig uppfylla inklusionskriterierna exkluderades efter konsensusbeslut (Bilaga 5).

**Figur 3.1**  
Flödesschema över  
ingående studier och  
exkluderade studier.



## Metodik för bedömning av risk för systematiska fel (bias)

Bedömningen av risken för systematiska fel i studierna gjordes av två granskare oberoende av varandra med stöd av granskningsmallar (Bilaga 4). Vid olika bedömningar togs konsensusbeslut efter diskussion med ytterligare projektmedlemmar. I de fall granskningen gällde en studie där någon av medlemmarna i projektgruppen varit medförfattare eller haft någon annan form av bindning till studiens innehåll, granskades och värderades studien av någon annan medlem i projektgruppen. Studier av låg eller måttlig risk för systematiska fel är inkluderade i samtliga analyser och finns beskrivna i Bilaga 1. För studier som utvärderade insatser till barn och familjer är även de med hög risk för systematiska fel inkluderade.

För kvalitativa studier användes en lätt modifierad version av CASP (Critical Appraisal Skills Programme) för granskning som är en granskningsmall som fokuserar på metodiken och rapporteringen i en studie [38]. Samtliga studier som berörde personer med FASD eller föräldrar till dessa och bedömdes ha data genererade av en kvalitativ forskningsansats inkluderades i analysen.

## Metoder för sammanvägning av resultat

### Sammanvägning av kvantitativa resultat

Sammanvägningar över prevalens av funktionsnedsättningar i översikten gjordes i Comprehensive Meta Analysis (CMA), Version 3.3070. Random-effects model användes vid sammanvägningen.

Endast narrativa sammanvägningar gjordes för effekterna av olika insatser då populationerna i de olika studierna bedömdes vara för olika för en metaanalys.

### Dataanalys kvalitativ syntes

Data analyserades primärt av en grupp om fem personer som läste varje artikel som ingick i materialet och inledningsvis gjorde en självständig preliminär analys. Förförståelsen hos dessa personer bygger på erfarenheter från preklinisk och klinisk medicinsk forskning, medicinsk etik, socialmedicin och socialt arbete samt arbete med systematiska litteraturöversikter.

Vi använde deskriptiv kvalitativ innehållsanalys med fokus på det manifesta innehållet i upplevelsorna oavsett vilka analysmetoder som hade använts i de ingående studierna [39,40]. Till skillnad mot enskilda studier med denna metod, där förstanivåteman (subkategorier) extraheras induktivt ur insamlade rådata och därefter kondenseras/reduceras till mer övergripande andra- och tredjenivåteman (kategorier och teman), utgick detta syntesarbete från de resultat som presenterades i respektive text för att generera förstanivåteman. Kondensering och reduktion gick till på samma sätt som vid enskilda originalstudier, även om befintliga andra- och tredjenivåteman kunde beaktas.

Initialt *identifierades* angivna förstanivåteman, *tolkades* (om oklart formulerade men där det gick att enas om en bästa tolkning), *preciserades* samt *verifierades* mot bakgrund av de belägg som författarna i respektive artikel presenterat. Då samma förstanivåtema ansågs föreligga i fler än en artikel placerades dessa förekomster under ett och samma tema. Om ett angivet förstanivåtema ansågs innehålla fler än ett tema delades det upp i relevant antal. I något fall nämndes att ett antal förstanivåteman erhållits medan endast andranivåteman presenterades. Dessa andranivåteman hanterades då som förstanivåteman. Vissa förstanivåteman kom i den fortsatta tolkningsprocessen att betraktas som andranivåteman och tvärtom.

Därefter följde ett gemensamt tolkningsarbete utifrån tillgången till hela materialet, där enskilda teman kunde ifrågasättas och ytterligare preciseras. Flera verifierade teman rubricerades om för att tydligare svara mot innehållet. När konsensus uppnåtts om de olika temana gjordes en bedömning av vår tilltro till om de var en rimlig representation av det aktuella fenomenet, baserat på CERQual (Faktaruta 3.2) [1]. De erhållna första-, andra- och tredjenivåtemana, inklusive belägg för dessa, diskuterades slutligen gemensamt i hela projektgruppen för att ytterligare kritiskt bedöma den framtagna analysen.

## Det vetenskapliga underlagets styrka

SBU använder det internationellt utarbetade systemet Grading of Recommendations Assessment Development and Evaluation (GRADE) för att bedöma hur tillförlitliga de kvantitativa resultaten är (Faktaruta 3.1) [41]. I denna utvärdering har vi använt GRADE-CERQual för att bedöma tillförlitligheten av sammanvägda teman för de kvalitativa studierna, Faktaruta 3.2 [1].

**Faktaruta 3.1**  
Bedömning av  
resultatens tillförlitlighet  
med GRADE  
(kvantitativa data).

**Studiekvalitet** avser den vetenskapliga kvaliteten hos en enskild studie och dess förmåga att besvara en viss fråga på ett tillförlitligt sätt.

**Evidensstyrkan** är ett mått på hur tillförlitligt resultatet är. SBU tillämpar det internationellt utarbetade evidensgraderingssystemet GRADE. För varje effektmått utgår man i den sammanlagda bedömningen från studiernas design. Därefter kan evidensstyrkan påverkas av förekomsten av försvagande faktorer som studiekvalitet, samstämmighet, överförbarhet, precision i data och risk för publikationsbias.

Evidensstyrka graderas i fyra nivåer:

**Starkt vetenskapligt underlag (⊕⊕⊕⊕).** Bygger på studier med hög eller medelhög kvalitet utan försvagande faktorer vid en samlad bedömning.

**Måttligt starkt vetenskapligt underlag (⊕⊕⊕○).** Bygger på studier med hög eller medelhög kvalitet med förekomst av försvagande faktorer vid en samlad bedömning.

**Begränsat vetenskapligt underlag (⊕⊕○○).** Bygger på studier med hög eller medelhög kvalitet med kraftigt försvagande faktorer vid en samlad bedömning.

**Otillräckligt vetenskapligt underlag (⊕○○○).** När studier saknas, tillgängliga studier har låg kvalitet eller där studier av likartad kvalitet visar motsägande resultat, anges det vetenskapliga underlaget som otillräckligt.

Ju starkare evidens desto mindre sannolikt är det att redovisade resultat kommer att påverkas av nya forskningsrön inom överblickbar framtid.

### Slutsatser

I SBU:s slutsatser görs en sammanfattande bedömning av nytta, risker och kostnadseffektivitet.



**CERQual** är utvecklat inom GRADE för att bedöma tillförlitligheten (evidensstyrkan) hos det sammanvägda resultatet av kvalitativ forskning [1]. Tillförlitligheten påverkas av faktorer som metodbrister i de ingående studierna, i vilken utsträckning underliggande data är entydiga (koherens) och relevanta för frågan samt om underliggande data är tillräckligt rikt.

Tillförlitligheten graderas i fyra nivåer:

**Hög tillförlitlighet (⊕⊕⊕⊕).** Det är mycket troligt att fyndet i översikten är en rimlig representation av fenomenet av intresse.

**Måttlig tillförlitlighet (⊕⊕⊕○).** Det är troligt att fyndet i översikten är en rimlig representation av fenomenet av intresse.

**Låg tillförlitlighet (⊕⊕○○).** Det är möjligt att fyndet i översikten är en rimlig representation av fenomenet av intresse.

**Mycket låg tillförlitlighet (⊕○○○).** Det är oklart om fyndet i översikten är en rimlig representation av fenomenet av intresse.

## Ekonomiska aspekter

En övergripande granskning av litteraturen kring ekonomiska aspekter av FASD gjordes utifrån litteratursökningen till projektets övriga frågor, beskrivet ovan. Även en sökning efter relevanta myndighetsrapporter i Sverige gjordes. Syftet var att identifiera faktorer som påverkar samhällskostnader i en relevant svensk kontext.

## Etik

Ett viktigt inslag i utvärderingen har varit att belysa etiska och sociala aspekter av diagnostisering, insatser i form av habilitering och familjestöd för barn som uppfyller kriterier för FASD. Frågor som ställts har varit av typen: Finns det något i sig etiskt problematiskt med diagnostisering av FASD? Med habilitering och familjestöd utifrån sådan diagnos? Vilka är de direkta och indirekta konsekvenserna på hälsa och välbefinnande av en på detta sätt inriktad diagnostisering, habilitering och familjestöd? Frågorna har i möjligaste mån besvarats i diskussioner inom projektgruppen, utifrån relevant litteratur samt med stöd av diskussioner i en expertreferensgrupp, SBU:s vetenskapliga råd, en representant för en patientorganisation för FASD och en referensgrupp av medicinetiker (Kapitel 9). Reflektionerna kring etiska och sociala aspekter har också berikats av den syntes som gjorts av kvalitativa studier. Avstämning har vid flera tillfällen gjorts mot SBU:s vägledning för identifiering av relevanta etiska frågor för att minimera risken att viktiga aspekter försummas [42]. Detta var också huvudskälet till att skapa en särskild referensgrupp av medicinetiker.

Vissa aspekter har inte närmare tagits upp i reflektionen kring etiska och sociala aspekter av diagnostik, habilitering och familjestöd för barn som uppfyller kriterier för FASD. Detta rör bland annat preventionsinsatser för att minska alkoholkonsumtionen bland gravida mödrar – denna diskussion hanteras av andra myndigheter.

Etik omfattar i princip samtliga aspekter av det som är värdefullt och viktigt, till exempel välbefinnande, lidande, rättvisa och respekt för autonomi och personlig integritet. Tillämpad normativ etik handlar om att identifiera de värden och principer som är relevanta i ett enskilt fall och analysera hur de ska vägas samman i ett beslut om vad som bör respektive inte bör göras, och vem som har ansvar för vad. FASD väcker många etiska frågor, till exempel om rättvisa för den enskilde, svårigheter i vardagen för berörda individer och familjer, och samhällets ansvar för att bidra med hjälp och stöd. Fokus för denna utredning om FASD ligger på identifiering av tillstånd samt stödinsatser till barn som uppfyller kriterier för dessa tillstånd och deras familjer.

## Referensgrupp

SBU har tagit hjälp av en referensgrupp bestående av representanter från verksamhetsområden som barn- och mödrahälsovård, missbruksvård, förskola och skola samt från FAS-föreningen [43] (Kapitel 9). Denna grupp har bland annat belyst området ur en svensk kontext med utgångspunkt i tre övergripande teman vid en workshop på SBU i december 2015: Möter ni individer med misstänkt FASD i er verksamhet? Finns det kunskap om FASD på er arbetsplats och vilka är era handlingsalternativ? Vad anser ni om värdet av att diagnostisera FAS och definiera andra FASD tillstånd? Gruppen har i övrigt inte deltagit i arbetet med eller granskning av rapporten.

## Brukarsamverkan med FAS-föreningen

I syfte att få ett svenskt brukar- och anhörigperspektiv i utvärderingen har vi haft en fortlöpande kontakt med FAS-föreningen [43]. SBU:s kansli har också översatt och anpassat formuläret ”The HTAi Patient Group Submission Template”, utarbetat av arbetsgruppen (PCIG, Interest Group on Patient and Citizen Involvement) inom den internationella organisationen för utvärdering av medicinska metoder, Health Technology Assessment International (HTAi) [44]. Enkätens syfte är att samla in viktig information från patient-, brukar- och anhörig-/närståendeorganisationer inom det område som utvärderas. Den översatta versionen av formuläret har sedan anpassats till detta projekt. FAS-föreningen fick själva besluta hur de ville besvara enkäten, vilket gjordes genom diskussioner på ett medlemsmöte samt ett elektroniskt frågeformulär som riktade sig till personer med FASD och deras närstående. Svaren från FAS-föreningen presenteras i helhet i Bilaga 8 och diskuteras i Kapitel 6.

# 4 Resultat – Beskrivning av tillstånden

I detta kapitel presenteras resultaten från följande:

- En systematisk översikt på prevalens av funktionsnedsättningar och social situation hos personer som uppfyller kriterierna för FAS, pFAS, ARND eller ARBD.
- En registerstudie med data för personer med FAS i Sverige.
- En systematisk översikt på upplevelser och erfarenheter hos personer eller anhöriga till någon som uppfyller kriterierna för FASD.
- En granskning av samhällskostnader förknippade med FAS och FASD.

# En systematisk översikt – Prevalens av funktionsnedsättningar och social situation hos personer som uppfyller kriterierna för FAS, pFAS, ARND eller ARBD

Den här översikten ämnar att belysa två frågor:

- Vilken är omfattningen av funktionshindren, den fysiska och psykiska ohälsan och hur ser den sociala situationen ut hos de grupper som uppfyller kriterierna för FAS, pFAS, ND-PAE/ARND eller ARBD?
- Påverkas prognosen för funktionshindren, den fysiska och psykiska ohälsan och den sociala situationen av individens ålder vid diagnos/tillståndsbeskrivning?

Efter granskningen av de artikelsammanfattningar (abstrakts) som fångats upp i den systematiska litteratursökningen av studier publicerade år 2000 och framåt, identifierades totalt 458 artiklar som granskades i fulltext. Utav dessa uppfyllde 20 artiklar urvalskriterierna (Figur 3.1).

För diagnosen FAS granskades även den vetenskapliga litteraturen som publicerats före år 2000. För detta ändamål användes en systematisk översikt från 2016 där man har inkluderat studier som undersökt prevalensen av samsjuklighet hos individer med FASD [37]. Vid en genomgång av referenserna i denna översikt fann vi 19 studier av intresse om FAS. Dessa studier hade publicerats mellan åren 1976 och 1998. Vid en granskning av studierna i fulltext bedömdes tre studier uppfylla våra inklusionskriterier [25,45,46].

Orsaken till att majoriteten av de granskade studierna exkluderades vid fulltextgranskningen var att de inte fokuserade på faktiska uttryck av funktionsförmåga eller livssituation utan istället på grundforskning. En annan orsak till exklusion var att studierna inte innehöll grupper av personer med endera FAS, pFAS, ND-PAE/ARND eller ARBD.

Efter kvalitetsgranskning (bedömning av risk för systematiska fel, bias) av de totalt 23 inkluderade studierna, uppfyllde 20 studier kraven för medelhög eller låg risk för bias för något eller några av studiens utfallsmått (Bilaga 1). Dessa studier var genomförda i Sverige, Tyskland, Schweiz, USA, Kanada, Sydafrika, Finland, Italien, Sydkorea och Norge. Studierna undersökte en eller flera av grupperna FAS, pFAS, ARND och ARBD. I arton av dessa studier inkluderades individer med FAS [25,45–61], i sju individer med pFAS [1,9–10,16–17,24], i fem individer med ND-PAE/ARND [47,50,51,59–63] och i en undersöktes individer med ARBD [51].

I fyra av studierna deltog vuxna individer med FAS, i en studie deltog barn och vuxna med FAS, pFAS eller ARND och i de övriga 15 deltog barn och ungdomar med FAS, pFAS, ARND eller ARBD. Utfallsmåtten i studierna var bland annat fysisk hälsa, samtidig förekomst av diagnoser som ADHD och autism, kognitiva funktioner och IQ, utbildning, psykiatriska problem, mått på sociala färdigheter, förekomst av alkoholproblem, narkotikamissbruk och kriminalitet samt försörjningsförmåga. Samtliga studier beskrivs i Tabell 1.1–1.4 i Bilaga 1. Nedan redovisas kortfattat resultaten separat för varje grupp, FAS, pFAS, ARND respektive ARBD. Prevalensen av olika funktioner i de enskilda studierna presenteras i Tabell 4.1.

## FAS

Arton studier undersökte fysisk och psykisk hälsa, funktionsförmåga och social situation hos personer med FAS. I fjorton av studierna undersöktes barn med FAS [45–47,49–51,54–61]. I fem studier undersöktes vuxna med FAS [25,47,48,52,53].

### Barn

I flera av de inkluderade studierna noterades avvikande kroppslig utveckling hos barnen med FAS. I en svensk studie där 21 barn med FAS undersöktes hade 9 av 21 medfödda missbildningar eller avvikande kroppslig utveckling, utöver det som ingår i diagnoskriterierna för FAS. Ögonsymtom fanns hos många, till exempel hade nio barn skelning och fyra barn hade underutveckling av synnerverna [51]. I en studie från Alaska, som omfattade 145 barn med FAS, noterades mindre förändringar i uppbyggnaden av extremiteterna hos 30 procent (exempelvis korta, böjda fingrar), skelning i 23 procent och ett medfött hjärtfel i 18 procent; krampanfall beskrevs hos 20 procent [46]. En grupp på 22 barn och ungdomar med FAS hade med enstaka undantag någon form av hörselnedsättning. Denna grupp var selekterad genom att 12 av patienterna var födda med gomspalt. Författarna beskriver hög risk för återkommande serösa öroninflammationer (vätska bakom trumhinnorna) som orsak till hörselproblem vilket även förekom i gruppen som inte hade gomspalt. Dessutom var det vanligt med brister i tolkningen av ljudstimuli (Central Auditory Processing Deficits) [45]. Vid diagnosen FAS kan således hörselproblem utvecklas av olika skäl – dels på grund av annorlunda uppbyggnad av mjukdelar och skelett i ansiktet, dels på grund av dysfunktion i hjärnan; 21 av 22 personer i denna studie hade också avvikelser i språk- och eller talutvecklingen [45].

Sammantaget ger dessa studier en prevalens av hjärtfel på 14 % konfidensintervall (7,3 till 24,7) (Figur 4.2), skelning på 14 % konfidensintervall (6,4 till 28,7) (Figur 4.3), och hängande ögonlock på 6,1 % konfidensintervall (3,4 till 10,7) (Figur 4.4).

Utvecklingsförsening, exempelvis försening av tal- och språkutvecklingen och/eller sen grov- och finmotorisk utveckling, beskrevs hos 76 procent i en studie från Alaska (n=145) [46]. I sex studier rapporterades intellektuell funktion [46,49,51,54,56,57]. Intellektuell funktionsnedsättning fanns i en betydande andel, men inte hos en majoritet av barn och ungdomar i studierna nämligen

hos 6 av 24 [54], 8 av 21 [51], 29 av 145 [46], 6 av 43 [57], 11 av 13 [56] och hos 13 av 23 [49]. Sammantaget ger dessa studier en prevalens av intellektuell funktionsnedsättning på 36 % konfidensintervall (20 till 55) (Figur 4.1). I tre studier anges medelvärdet på fullskalig IQ (Faktaruta 4.1) till 92 [58], 87 [61] respektive 74 [51].

#### Faktaruta 4.1 IQ.

IQ eller intelligenskvot (IK) beräknas efter ett allsidigt sammansatt test som administreras och tolkas av psykologer. Ofta anges ett sammantaget värde, "fullskale-IQ". För att det ska vara adekvat att presentera ett sammantaget resultat på IQ får det inte vara signifikanta skillnader mellan de huvudsakligen verbala och icke-verbala/perceptuella deltesterna.

Traditionellt anges IQ 100 som medelvärdet för intellektuell funktion. Resultat mellan 85 och 115 anges ligga inom genomsnittet (detta motsvarar nivåer mellan  $-1$  SD och  $+1$  SD i normalfördelningen).

IQ 70 till 85 (nivå mellan  $-1$  SD och  $-2$  SD) beskrivs ligga klart under genomsnittet.

IQ under 70 innebär resultat betydligt under genomsnittet. IQ  $<70$  i kombination med svårigheter i vardagen/nedsatt adaptiv förmåga kan ge diagnosen intellektuell funktionsnedsättning; tidigare användes termen utvecklingsstörning alternativt mental retardation [2].

Intellektuell funktionsnedsättning kan indelas efter IQ-nivå i: Grav: IQ = 0–20, Svår: IQ = 21–35, Måttlig: IQ = 36–50, och Mild: IQ = 50–70

Ett flertal verktyg kan användas vid bedömning av IQ, bland annat Wechsler Intelligence Scale for Children (WISC-III-V) för barn och the Wechsler Adult Intelligence Scale-Revised (WAIS-R) för vuxna.

Förekomsten av andra avvikelser i utveckling och beteende (så kallade neuropsykiatriska diagnoser) undersöktes hos 21 barn med FAS i en svensk studie av Landgren och medarbetare [51]. De fann att ADHD förekom hos 13 barn och autism hos 2 barn. Ett barn hade dessutom tvångssyndrom och tre barn tics. I samma studie fann man också att 2 av de 21 barnen hade en uppförandestörning, 9 svårigheter att koordinera sina muskelrörelser och 8 trotssyndrom. I den norska studien gjord av Elgen och medarbetare förekom ADHD hos 22 av de 23 undersökta barnen [49].

Steinhausen och medarbetare undersökte beteende och sociala färdigheter hos barn med FAS i åldrarna 4 till 12 år genom att be föräldrarna fylla i frågeformulär (n=38) [54]. Denna studie visade att 79 procent av barnen med FAS var rastlösa, 97 procent var lättstörda och 82 procent uppvisade uppmärksamhetsstörningar.

Fuglestad och medarbetare undersökte om det fanns viktproblem hos individer i åldern 2–19 år med FAS (n=64) [50]. Denna studie rapporterade att 17 procent av individerna var underviktiga, 6 procent var överviktiga, 8 procent var kraftigt överviktiga och 69 procent ansågs ha en vikt inom normalområdet.

## Vuxna

I en studie bedömdes den intellektuella funktionen i form av IQ hos 15 vuxna män med FAS, varav 10 var yngre än 25 år och fem var i åldrarna 25 till 39 år [48]. Det rapporterade medelvärdet på fullskalig IQ var 84 (standarddeviation, SD 12,9).

En svensk registerstudie på vuxna med FAS (n=79) mellan 18 och 47 år var inriktad på psykosociala faktorer. Det framkom att 81 procent hade vuxit upp i samhällsvård såsom i till exempel familjehem; motsvarande siffra var 3,9 procent i en väl matchad jämförelsegrupp på över 3 000 individer [52]. Andelen i gruppen med FAS som hade en två- eller treårig gymnasieutbildning som högsta avslutade utbildning var 46 procent och andelen som hade gått i särskola var 25 procent. Bland de vuxna med FAS hade 32 procent egna barn, 4 procent var ensamstående föräldrar och 16 procent samboende med barn. Trettiotre procent hade vårdats på sjukhus för psykiatriska problem, 6 procent hade vårdats på sjukhus för självmordsförsök och 57 procent hade blivit ordinerad någon form av psykofarmaka. Vidare hade 9 procent vårdats på sjukhus för alkoholproblem och 6 procent för narkotikamissbruk.

En studie från USA visade att alkohol- och annat drogberoende förekom hos sex av elva vuxna, depression förekom hos fyra av de elva och psykotiska tillstånd förekom hos fem av elva vuxna med FAS [25]. Resultaten måste dock tolkas med försiktighet, eftersom det är en selekterad och liten grupp som studerats; enligt författarna ingår de här personerna i en uppföljningsstudie som är knuten till en universitetsklinik, och personerna hade ofta blivit remitterade till kliniken på grund av svårigheter. Den här typen av selektion ger risk för underrepresentation av personer som inte har så uttalade symtom.

Av den svenska studien (n=79) framgår att 28 procent av de vuxna med FAS hade dömts för någon typ av brott och av dessa hade 6 procent dömts för ett allvarligt brott (som kunde ge fängelse) [52]. Siffrorna är något högre än motsvarande resultat i den stora jämförelsegruppen på över 3 000 personer, men skillnaden är inte signifikant. I jämförelsegruppen finns en subgrupp på cirka 200 personer som varit placerade i samhällsvård. I denna grupp var kriminalitet vanligare förekommande än bland individerna med FAS. I gruppen med FAS var 49 procent sysselsatta med ett arbete. Andelen som erhöll försörjningsstöd i form av förtidspension var 31 procent och andelen som erhöll försörjningsstöd i form av socialbidrag var 28 procent. I studien rapporterades även att ingen av de vuxna med FAS erhöll studiestöd [52].

I ytterligare en svensk studie där 20 vuxna med FAS deltog, undersöktes Känsla av Sammanhang (KASAM), som är ett mått på hur meningsfullt, begripligt och hanterbart någon upplever sitt liv [53]. Medelpoängen i gruppen med vuxna

med FAS var 112, som enligt normvärdena definieras som svag KASAM (maximal poäng är 2013 och svag KASAM under 120 poäng) [53].

## Barn och vuxna

I en av de inkluderade studierna undersöktes förekomsten av epileptiska anfall hos 15 individer med FAS mellan 2 och 49 år [47]. Ingen av dem var diagnostiserad med epilepsi, men tre av dem hade haft minst ett krampanfall utan att ha fått diagnosen epilepsi.

## pFAS

Sju av de inkluderade studierna undersökte fysisk och psykisk hälsa och funktionsförmåga hos individer med pFAS [47,51,59–62,64]. Sex av de inkluderade studierna undersökte barn med pFAS, en studie undersökte barn och vuxna med pFAS.

## Barn

I tre av de inkluderade studierna bedömdes intellektuell funktion i form av IQ. De rapporterade medelvärdena på fullskalig IQ hos barn och ungdomar med pFAS var 97 i en studie med 10 barn [51], 88 i en studie med 19 barn [61] och 71 i studie med 14 barn [62]. Ingen av de sex barnen i den svenska studien hade utvecklingsstörning (IQ mindre än 70) [51], motsvarande data saknas i de övriga studierna.

Andra avvikelser i utveckling och beteende (neuropsykiatriska diagnoser) kunde noteras i form av ADHD hos sex barn och trotssyndrom hos tre barn i gruppen om tio barn [51]. Inget barn uppvisade någon avvikelse i form av autism, tvångssyndrom eller tics. I samma studie fann man att 3 av 10 hade svårigheter att koordinera sina rörelser.

I en studie undersöktes eventuella viktproblem hos 165 individer med pFAS i ålder 2 till 19 år [50]. Sju procent av individerna var underviktiga, 22 procent var överviktiga, 18 procent var kraftigt överviktiga och 53 procent hade en vikt inom normalområdet.

## Barn och vuxna

I en av de inkluderade studierna undersöktes förekomsten av epileptiska anfall hos 71 individer med pFAS mellan 2 och 49 år [47]. Epilepsi var diagnostiserat hos 4 procent och ytterligare 10 procent av dem hade haft minst ett krampanfall utan att ha fått diagnosen epilepsi.

## ND-PAE/ARND

Fem av de inkluderade studierna undersökte fysisk och psykisk hälsa och funktionsförmåga hos individer med ARND [47,51,62,64,65]. I fyra av de fem inkluderade studierna undersöktes barn med ARND [51,62,64,65] och i en undersöktes barn och vuxna med ARND [47].



## Barn

I en svensk studie där sex barn med ARND undersöktes hade inget barn någon missbildning eller avvikande kroppslig utveckling [51]. I två av de inkluderade studierna bedömdes intellektuell funktion i form av IQ och förekomst av intellektuell funktionsnedsättning. De rapporterade medelvärdena på fullskalig IQ hos barn och ungdomar med ARND var 82 [51], respektive 87 [62]. Inget av de sex barnen i den svenska studien hade utvecklingsstörning [51], data anges inte i den kanadensiska studien [62]. Undersökningen av förekomsten av andra avvikelser i utvecklingen och psykiatrisk sjukdom visade att ADHD förekom hos 2 av 6 och att 4 av 6 hade trotsyndrom [51].

I en annan studie där 17 barn med ARND undersöktes hade 11 av 17 affektiva syndrom, av dessa 5 med depressivt tillstånd och 6 med bipolär sjukdom; en hade reaktiv kontaktstörning och en individ var diagnostiserad med ADHD [65].

En studie undersökte eventuell viktproblematik hos 216 individer med ARND i åldern 2 till 19 år [50]. Denna studie rapporterade att 5 procent av individerna var underviktiga, 19 procent var överviktiga, 17 procent var kraftigt överviktiga och 59 procent ansågs ha en vikt inom normalområdet.

## Barn och vuxna

I en av de inkluderade studierna undersöktes förekomsten av epileptiska anfall hos 339 individer med ARND mellan 2 och 49 år [47]. Epilepsi var diagnostiserat hos 7 procent och ytterligare 12 procent av dem hade haft minst ett krampanfall utan att ha fått diagnosen epilepsi.

## ARBD

I en svensk studie bedömdes intellektuell funktion i form av IQ hos åtta barn och ungdomar med ARBD [51]. Det rapporterade medelvärdet på fullskalig IQ hos dessa barn och ungdomar var 82.

Utfall	FASD	pFAS	ARND	ARBD
<b>Barn</b>				
<b>Kognitiv funktion</b>				
Intellektuell funktionsnedsättning (definierad som IQ <70) (Figur 4.1)	Sammanvägt: 35,5 % KI (19,7 till 55,1) n=6, N=24 [54] n=8, N=21 [51] n=29, N=145 [46] n=13, N=23 [49] n=11, N=13 [56] n=6, N=43 [57]	n=0, N=10 [51]	n=0, N=6 [51]	

Tabellen fortsätter på nästa sida

Tabell 4.1

Prevalens av utfallen i de inkluderade studierna, för barn och vuxna med endera FAS, pFAS, ARND eller ARBD.

Observera att endast estimat för intellektuell funktionsnedsättning, hjärtfel, skelning och ptos representerar sammanvägda resultat från flera studier. För prevalensen av övriga utfallsmått är tillförlitligheten mycket låg.

Tabell 4.1  
fortsättning

Utfall	FASD	pFAS	ARND	ARBD
<b>Andra syndrom/symtom</b>				
ADHD	n=13, N=21 [51] n=22, N=23 [49]	n=6, N=10 [51]	n=2, N=6 [51] n=1, N=17 [63]	
Autism	n=2, N=21 [51]	n=0, N=10 [51]	n=0, N=6 [51]	
Tvångssyndrom	n=1, N=21 [51]	n=0, N=10 [51]	n=0, N=6 [51]	
Trotssyndrom	n=8, N=21 [51]	n=3, N=10 [51]	n=4, N=6 [51]	
Tics	n=3, N=21 [51]	n=0, N=10 [51]	n=0, N=6 [51]	
<b>Beteende</b>				
Uppförandestörning	n=2, N=21 [51]	n=0, N=10 [51]	n=0, N=6 [51]	
Rastlöshet	n=30, N=38 [54]			
Lättstörda	n=37, N=38 [54]			
Uppmärksamhetsstörningar	n=31, N=38 [54]			
Reaktiv kontaktstörning			n=1, N=17 [63]	
<b>Motorik, språk, hörsel, syn</b>				
Koordinationsproblem	n=9, N=21 [51]	n=3, N=10 [51]	n=0, N=6 [51]	
Sen finmotorisk utveckling	n=30, N=145 [46] n=0, N=64 [55] n=20, N=43 [57]			
Språk och/eller talstörning	n=59, N=145 [46] n=18, N=22 [45]			
Hörselnedsättning orsakad av återkommande öroninfektioner	n=17, N=22 [45]			
Hörselnedsättning	n=6, N=22 [45] n=9, N=43 [57]			
Skelning (Figur 4.3)	Sammanvägt 14,3 % KI (6,4 till 28,7) n=9, N=21 [51] n=2, N=13 [56] n=33, N=145 [46] n=3, N=55 [59] n=2, N=64 [55] n=1, N=8 [60]	n=0, N=18 [59] n=2, N=36 [60]		
Ptos (hängande ögonlock (Figur 4.4)	Sammanvägt 6,1 % KI (3,4 till 10,7) n=1, N=55 [59] n=4, N=64 [55] n=4, N=43 [57] n=0, N=8 [60] n=0, N=13 [56] n=1, N=21 [51]	n=1, N=18 [59] n=3, N=36 [60]		
<b>Missbildning/avvikelse i kroppslig utveckling</b>				
Underutveckling av synnerv	n=4, N=21 [51]			

Tabellen fortsätter på nästa sida

Utfall	FASD	pFAS	ARND	ARBD
Medfött hjärtfel	Sammanvägt 13,8 % KI (7,3 till 24,7) n=2, N=21 [51] n=26, N=145 [46] n=1, N=55 [59] n=9, N=43 [57]	n=1, N=18 [59]		
Gomspalt	n=12, N=22 [45] n=3, N=43 [57]			
Mindre avvikelser i armar och ben	n=43, N=145 [46]			
Krampanfall	n=29, N=145 n=13, N=43 [57]			
<b>Mental hälsa</b>				
Depressiva tillstånd			n=5, N=17 [63]	
Bipolär sjukdom			n=6, N=17 [63]	
Överdriven rädsla	n=24, N=38 [54]			
<b>Vikt/tillväxt</b>				
Undervikt	n=11, N=64 [50]	n=12, N=165 [50]	n=11, N=216 [50]	
Övervikt	n=4, N=64 [50]	n=36, N=165 [50]	n=41, N=216 [50]	
Kraftig övervikt	n=5, N=64 [50]	n=30, N=165 [50]	n=37, N=216 [50]	
Normal vikt	n=44, N=64 [50]	n=87, N=165 [50]	n=127, N=216 [50]	
<b>Vuxna</b>				
Vuxit upp i sambandsvård	n=64, N=79 [52]			
<b>Utbildning</b>				
Särskola	n=19, N=75 [52]			
Gymnasium som högst avslutade utbildning	n=32, N=75 [52]			
<b>Arbete/försörjning</b>				
Erhöll försörjningsstöd i form av socialbidrag	n=17, N=75 [52]			
Erhöll försörjningsstöd i form av förtidspension	n=19, N=75 [52]			
Erhöll studiestöd	n=0, N=75 [52]			
<b>Familjesituation</b>				
Egna barn	n=25, N=75 [52]			
<b>Mental hälsa</b>				
Alkohol och drogproblem	n=6, N=11 [25]			
Depression	n=4, N=11 [25]			
Psykotiska tillstånd	n=5, N=11 [25]			

Tabell 4.1  
fortsättning

Tabellen fortsätter på nästa sida

Tabell 4.1  
fortsättning

Utfall	FASD	pFAS	ARND	ARBD
<b>Psykiatrisk vård</b>				
Vårdats på sjukhus för psykiatriska problem	n=26, N=79 [52]			
Vårdats på sjukhus för självmordsförsök	n=5, N=79 [52]			
Ordinerats psykofarmaka	n=43, N=79 [52]			
<b>Missbruksvård</b>				
Vårdats på sjukhus för alkoholproblem	n=7, N=79 [52]			
Vårdats på sjukhus för narkotikamissbruk	n=5, N=79 [52]			
<b>Kriminalitet</b>				
Dömts för någon typ av brott (som kunde ge högst böter)	n=22, N=75 [52]			
Dömts för ett allvarligt brott (som kunde ge fängelse)	n=5, N=75 [52]			
<b>Andra syndrom/symtom hos vuxna och barn</b>				
Epilepsi	n=0, N=15 [47]	n=3, N=71 [47]	n=24, N=339 [47]	
Epileptiska anfall (men inte diagnosen epilepsi)	n=3, N=15 [47]	n=7, N=71 [47]	n=41, N=339 [47]	

N = Antal studerade, n = Antal med utfallet

## Betydelsen av ålder vid diagnossättande

För att kunna besvara frågan om huruvida prognosen för fysisk och psykisk ohälsa, nedsatt funktionsförmåga och negativ social situation påverkas av individens ålder vid diagnos eller tillståndsbeskrivning, behövs fler studier där utfall jämförs mellan grupper av individer som har diagnostiserats med FAS eller de andra FASD-tillstånden, vid olika ålder. Samtidigt bör man då också ha kontrollerat för en rad andra faktorer som skulle kunna vara orsaken till en tidig eller sen diagnos och kunna påverka utfallen. Några sådana studier har inte identifierats.

Däremot finns en amerikansk studie från 2004 som ofta refereras till i detta sammanhang. I studien, är populationen en blandning av individer med FAS och fetala alkoholeffekter (FAE; en term som användes då och som nu motsvarar FASD-tillstånd). I denna studie undersöktes 415 individer och det visade sig att ju yngre individerna var när FAS/FAE-diagnosen ställdes, desto mindre var risken att de senare fick problem i skolan, med kriminalitet eller med alkohol- och narkotikamissbruk [28]. En tänkbar förklaring, enligt författarna, är att ju tidigare individer får en FASD-diagnos, desto tidigare kan de placeras i stabil uppväxtmiljö och ges möjlighet att utveckla varaktiga relationer till vårdnadshavare [28]. Resultaten bör dock tolkas med försiktighet då tvärsnittsstudier som denna enbart kan visa på en association och inte bevisa ett orsakssam-

band. Värdet av att få en diagnos tidigt eller sent beror naturligtvis även på en rad kontextuella faktorer och studien skulle därför behöva upprepas i andra kontext.

## Evidensgraderade resultat

För majoriteten av relevanta utfall avseende fysisk och psykisk ohälsa samt funktionshinder och social situation finns inga eller endast enstaka små studier vilkas resultat presenteras i Tabell 4.1. För dessa utfall har vi otillräckligt vetenskapligt underlag för att estimerar prevalensen av utfallen i grupperna med de definierade tillstånden.

Några utfall hos barn med FAS är beskrivna i fler studier och det går därför att få fram något säkrare prevalenssiffror på dessa utfall. Detta gäller omfattningen av intellektuell funktionsnedsättning (Figur 4.1) samt tre utfall av fysiska avvikelser – hjärtfel (Figur 4.2), skelning (Figur 4.3) och hängande ögonlock, så kallad ptos (Figur 4.4). För dessa utfall har vi begränsat vetenskapligt underlag och de listas nedan och i Tabell 4.2. Osäkerheten i de estimerade prevalenserna beror på att studierna inkluderar selekterade populationer, vilket speglas i de heterogena resultaten (Figur 4.1–4.4), samt bristfällig beskrivning av hur utfallen definierats och mätts vilket leder till en risk för bias.

### Intellektuell funktionsförmåga hos barn med FAS

- Det finns ett begränsat vetenskapligt stöd för att 20–55 procent av barn med FAS har en intellektuell funktionsnedsättning (definierat som IQ under 70).

### Fysiska avvikelser hos barn med FAS

- Det finns ett begränsat vetenskapligt stöd för att 7–25 procent av barn med FAS har ett hjärtfel.
- Det finns ett begränsat vetenskapligt stöd för att 6–29 procent av barn med FAS skelar.
- Det finns ett begränsat vetenskapligt stöd för att 3–11 procent av barn med FAS har hängande ögonlock (Ptos).

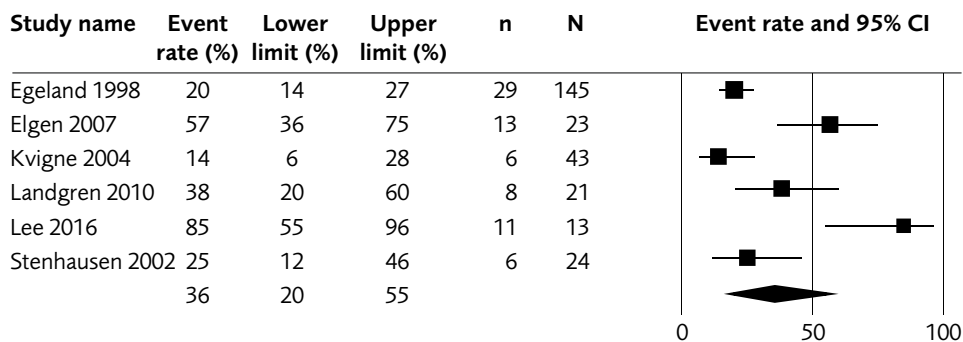
### Övriga utfall och betydelse av ålder vid diagnos eller tillståndsbeskrivning

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag för att bedöma omfattningen av övrig fysisk och psykisk ohälsa, funktionshinder samt social situation för individer som uppfyller kriterier för FAS, pFAS, ND-PAE/ARND eller ARBD.
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag för att bedöma om prognosen för fysisk och psykisk ohälsa, funktionshinder och en social situation påverkas av individens ålder vid FAS diagnos eller identifiering av pFAS, ND-PAE/ARND eller ARBD.

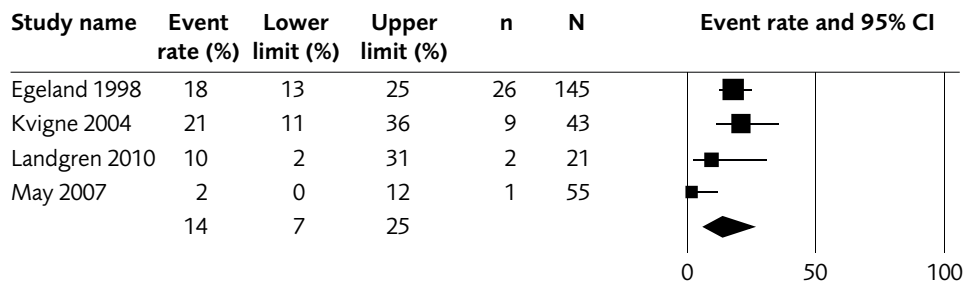
**Tabell 4.2**  
Sammanfattande  
resultattabell för  
sammanvägda resultat.

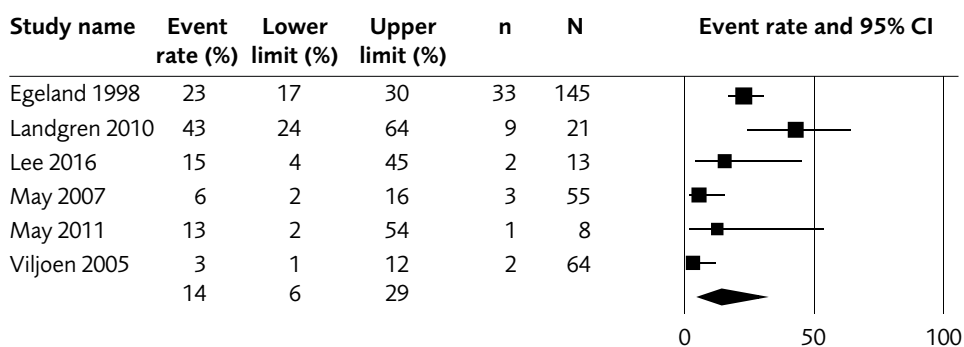
Number of participants (studies)	Outcome	Prevalence	Certainty that the prevalence among children with FAS is within the range set by the estimated 95 % CI	Plain language
269 participants, 6 studies [46,49,51,54,56,57]	Intellectual disability (defined as an IQ <70)	35.5% (19.7 to 55.1)	Low ⊕⊕○○ -1 inconsistency -1 risk of bias	The prevalence of intellectual disability in children with FAS may be somewhere between 20 and 55%
264 participants, 4 studies [46,51,57,59]	Congenital heart disease	13.8% (7.3 to 24.7)	Low ⊕⊕○○ -1 inconsistency -1 risk of bias	The prevalence of congenital heart disease in children with FAS may be somewhere between 7 and 25%
306 participants, 6 studies [46,51,55,56,59,60]	Strabismus	14.3% (6.4 to 28.7)	Low ⊕⊕○○ -1 inconsistency -1 risk of bias	The prevalence of strabismus in children with FAS may be somewhere between 6 and 29%
204 participants, 6 studies [51,55-57,59,60]	Ptosis	6.1% (3.4 to 10.7)	Low ⊕⊕○○ -1 inconsistency -1 risk of bias	The prevalence of ptosis in children with FAS may be somewhere between 3 and 11%

**Figur 4.1**  
Prevalens av intellektuell  
funktionsnedsättning  
(definierad som IQ <70)  
hos barn med FAS.

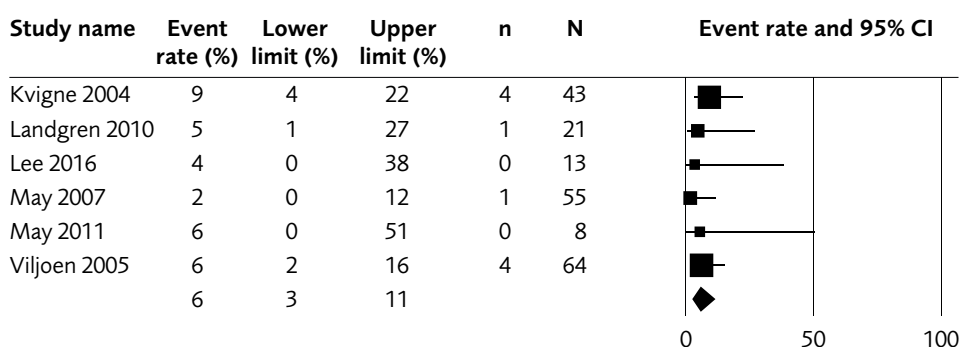


**Figur 4.2**  
Prevalens av hjärtfel  
hos barn med FAS.





**Figur 4.3**  
Prevalens av skelning hos barn med FAS.



**Figur 4.4**  
Prevalens av hängande ögonlock (ptos) hos barn med FAS.

## Sammanfattning av resultat och kunskapsluckor

Bland de inkluderade studierna var det största antalet gjorda på individer med FAS. Det kan förklaras av att FAS, till skillnad från de andra tillstånden under FASD, är en diagnos med ett diagnosnummer, som går att finna i WHO:s klassificering av sjukdomstillstånd, ICD-10. FAS-diagnosen har även funnits sedan 1973 medan begreppet FASD och de definierade tillstånden utöver FAS endast har funnits sedan 2000–2005.

Mängden relevanta studier för våra frågeställningar är dock liten, totalt 23 studier inkluderades, varav 3 hade hög risk för bias. Det låga antalet i kombination med att studierna ibland är små försvårar möjligheten att dra generella slutsatser. En anledning till det låga antalet inkluderade studier är att många studier inte undersökt faktiska uttryck av funktionsförmåga eller livssituation och/eller inte definierat om det rör sig om individer som uppfyllt kriterierna för FAS, pFAS, ND-PAE/ARND eller ARBD. Många av de exkluderade studierna analyserade istället prevalens för hela FASD-gruppen, utan att definiera specifika tillstånd inom gruppen. Bedömningen har varit att det blir missvisande att referera resultat från studier av denna blandade grupp, där gränstragningen är oklar mot normalområdet och mot andra tillstånd med utvecklingsavvikelser.

Tolkningen av resultaten försvåras även av att det varit selekterade populationer i studierna, där individerna exempelvis varit kända på en medicinsk klinik på grund av tydliga symtom. Det saknas studier i en totalpopulation i ett visst geografiskt område, där även lindriga tillstånd kan bli upptäckta. Detta förhindrar inte att en studie kan ge god bild av en viss population, exempelvis den

svenska genomgången av en population av barn som adopterats från Östeuropa [51]. En annan orsak till att resultat kan bli missvisande är om den studerade populationen hör till en samhällsgrupp med ovanliga sociala och hälsomässiga faktorer; då tillkommer speciella orsaksfaktorer (genetiskt och miljömässigt) och uppväxtvillkor som påverkar utvecklingen hos ett barn med medfödd skada, exempel är studier från ursprungsbefolkningen i Kanada och Sydafrika.

På grund av ovanstående går det inte att ge något säkert svar på frågan om omfattningen av olika fysiska och psykiska ohälsotillstånd, vilka funktionsförmågor individerna har, eller hur deras sociala situation ser ut. Vi kan därför inte heller uttala oss om hur prognosen ser ut för att utveckla de vanligast förekommande funktionsnedsättningarna i dessa grupper. Vissa trender kan ses. Individer i den bäst studerade gruppen, FAS, har ofta nedsatt intellektuell förmåga; sammanvägning av resultaten ger ett begränsat underlag för att prevalensen av IQ-nivå <70 (intellektuell funktionsnedsättning) är 20–55 procent. Problem med fysisk hälsa, motorik, syn och hörsel förekommer liksom strukturella missbildningar utöver de som fångas av diagnosen. Till exempel visar resultaten i denna översikt att det är möjligt att omkring 7–25 procent av barnen med FAS har medfödda hjärtfel, 6–29 procent skelar och 3–11 procent har hängande ögonlock.

Nedsatta exekutiva funktioner som till exempel koncentrationssvårigheter beskrivs, liksom också dålig psykisk hälsa med ångest och depression. Studierna av grupper med FAS visar även att problem med social interaktion och beteende kan förekomma, en orsaksfaktor kan vara svårigheter med impuls kontroll. Däremot ser man inte att kriminalitet skulle vara vanligt förekommande i den gruppen. Individer med FAS har ofta gått i särskola och senare i livet är den egna försörjningsförmågan varierande; de kan behöva ekonomiskt stöd från samhället. Bland individer med FAS indikerar studierna att ADHD är den vanligast förekommande symtomdiagnosen. För övriga tillstånd inom FASD finns få studier. ADHD förekommer även i gruppen med pFAS. Studier på individer med ARND visar att de kan ha problem med psykisk ohälsa. En studie som undersökte vikt visade att övervikt och fetma förekom lika ofta hos individer från hela spektrumet FASD som generellt i hela befolkningen i USA. Studien visade också att individer med FAS kan vara underviktiga medan det inte är vanligt att de är överviktiga; bland individer med pFAS kan däremot övervikt och fetma förekomma.

För att förstå värdet av att använda tillståndsbeskrivningarna under FASD (de utöver FAS) hade vi behövt veta mer om prognosen för de specifika utfallen utifrån varje tillstånd och huruvida ålder och tidpunkt för specifika insatser för respektive grupp har betydelse. Alkohol exponering under fostertiden kan störa utvecklingen av barnets hjärna. För den drabbade individen kan detta i sin tur leda till svårigheter av olika slag. Det innebär däremot inte att alla rapporterade resultat ska uppfattas som att de är helt synonyma med alkohol exponeringens effekter på foster. Det kan finnas flera förklaringar och orsaker till utfallen. Individer med FASD är en heterogen grupp och förekomsten av funktionsnedsättningar och fysiska och psykiska ohälsotillstånd kan i det enskilda fallet vara en direkt följd av fosterskada och/eller bero på andra faktorer.



För att kunna besvara frågorna som ställs i projektet behövs således fler studier som definierar och särskiljer de olika tillstånden inom FASD. Detta är nödvändigt för att sedan kunna undersöka förekomsten av svårigheter och positiva förmågor samt för att kunna beskriva prognosen för individers fysiska och psykiska hälsa, funktionsförmåga och sociala situation.

# Uppgifter från nationella register – en registerstudie

## Inledning

Socialstyrelsen har genomfört en översiktlig beskrivning av individer med FAS-diagnos i Patientregistret 2006–2012, vilken presenteras i Socialstyrelsens bilaga (Bilaga 11).

Vi vill i denna rapport fördjupa beskrivningen genom att fokusera på barn med FAS-diagnos samt att länka informationen från Patientregistret till information från andra nationella register. Av denna anledning genomfördes en registerstudie under våren 2016 för att besvara följande frågor:

- Hur stor andel av barn som diagnostiserats med FAS är utlandsfödda? Hur stor andel av dessa är utlandsadopterade? Hur stor andel av svenskfödda barn med FAS diagnos har varit föremål för samhällsvård respektive adoption?
- Finns det regioner eller landsting där diagnosen FAS används oftare eller mer sällan för barn?
- På vilken typ av klinik ställs FAS-diagnosen under barndomen?
- Hur stor andel av de personer som har diagnostiserats med FAS har föräldrar med indikation på alkoholmissbruk i Patientregistret; mor respektive far? Hur många har mödrar som också vårdats för narkotikamissbruk?
- Hur stor andel av de personer som har diagnostiserats med FAS har också diagnostiserats med ADHD och/eller autism? Vilka andra diagnoser förekommer ofta hos personer med FAS-diagnos? Skiljer sig detta från barn med autism respektive ADHD-diagnos?
- Vilken typ av psykofarmaka förskrivs till personer med FAS-diagnos i Sverige? Skiljer sig detta från barn med autism respektive ADHD-diagnos?

## Metod

Studien baseras på anonymiserade analyser av registerdata där information från flera olika nationella register har länkats till varandra. Framför allt har data från Socialstyrelsens hälsodataregister; Patientregistret och Läkemedelsregistret använts. Information från dessa register har kompletterats med uppgifter om födelseland från Statistiska centralbyråns Register över Totalbefolkningen (RTB), adoption från Flergenerationsregistret och samhällsvård från Socialstyrelsens ”Register över barn och unga.”

Studien är godkänd av Regionala Etikprövningsnämnden i Stockholm inom ramen för ett projekt kring barn till föräldrar med missbruksproblem, 2009/2027-31/5.

## Studiepopulationer

Rapporten baseras på två studiepopulationer. Den första studiepopulationen består av alla personer som fötts levande i Sverige under 1987–2012 enligt Medicinska Födelseregistret, och inte utvandrat eller avlidit enligt Registret över Totalbefolkningen. Den andra studiepopulationen består av alla födda 1987–2008 som befann sig i Sverige den 31 december 2008, således inkluderande utlandsfödda, enligt Registret över Totalbefolkningen.

## Diagnosdefinitioner

FAS definierades som en huvud- eller bidiagnos av Q86.0 i ICD-10 [4] vid ett registrerat vårdtillfälle i Patientregistret från och med 2001, vilket var det första året som vårdtillfällen i specialiserad öppenvård fördes in i detta register. ADHD definierades under samma år som F90 och autism som F84.0.

Ett grundläggande problem med att använda Patientregistret som datakälla för barn med FAS-diagnos, är att alla sjukvårdsinrättningar som ställer neuropsykiatriska diagnoser inte har rapporterat in till detta register under studietiden, samt att detta förändrats över tid på ett sätt som inte är väldokumenterat. Diagnoser som enbart ställs inom primärvården registreras aldrig i Patientregistret. Fram till de senaste åren var rapporteringen från barn- och ungdomspsykiatriska kliniker i flera stora landsting bristfällig, liksom från specialkliniker för neuropsykiatrisk diagnostik. Rapporteringen från specialiserad vård har blivit bättre med tiden, men sammantaget gör dessa brister i rapporteringen att alla resultat i denna rapport bör tolkas i förhållande till den osäkra inrapporteringen.

En analys av andra diagnoser hos individer som diagnostiserats med FAS, ledde fram till fyra ofta förekommande kategorier av somatiska diagnoser: kortvuxenhet/tillväxtrubbning, ögonmissbildningar, hjärtmissbildningar och epilepsi. Dessa diagnoser söktes i Patientregistret för perioden 1987 till 2012 och för individer födda i Sverige under dessa år.

## Psykofarmaka

Uthämtade recept under 2013 (för Studiepopulation 1) respektive 2009 (för Studiepopulation 2) identifierades och delades upp i tre kategorier efter ATC-koden; Neuroleptika (N05A), antidepressiva (N06) och ångestdämpande/sömnmedel (N05BC).

## Jämförelser med ADHD och autism

En del av FAS-syndromet är definitionsmässigt beteendeproblem och inlärningssvårigheter. Detta är problem som också är vanliga hos barn med andra neuropsykiatriska diagnoser. För att fokusera på det specifika med FAS i jämförelse med problem som mer generellt är förknippade med neuropsykiatriska symptom, jämförs somatisk samsjuklighet och psykofarmakakonsumtion hos barn med FAS-diagnos, med barn som diagnostiserats med ADHD och autism utan FAS-diagnos.

## Resultat

### Patientregistret

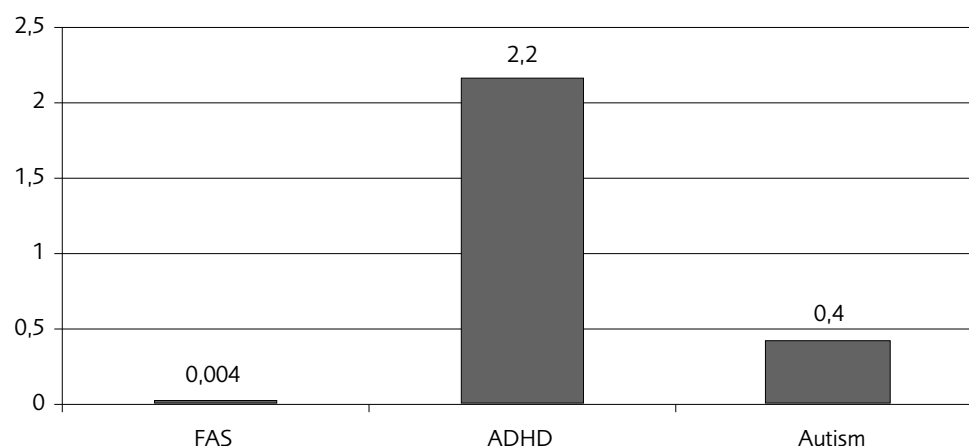
2001–2009

I hela den svenska befolkningen bland personer födda 1987–2008, identifierades 140 individer med diagnos FAS under perioden 2001–2009. Av dessa var 70 födda i Sverige, 70 födda utomlands och 64 personer (46 procent) var utlandsadopterade, samtliga med ursprung i Östeuropa. Bland de svenskfödda fanns en ganska jämn könsfördelning, 52 procent pojkar och 48 procent flickor, medan det bland de utlandsadopterade fanns en övervikt pojkar, 63 procent, jämfört med 37 procent flickor.

2001–2013

I den svenskfödda delen av befolkningen, födda mellan åren 1987 och 2012, identifierades 107 personer under 18 år med diagnosen FAS under perioden 2001–2013. Av dessa hade 91 personer en svenskfödd mor, 11 en mor född i annat nordiskt land och 5 en mor född utanför Norden. Under samma tidsperiod identifierades 11 952 barn med en autismsdiagnos och 60 054 barn med en ADHD-diagnos.

**Figur 4.5**  
Procent av svenskfödda 1987–2012 som diagnostiserades med FAS, autism eller ADHD i Patientregistret före 18 års ålder under åren 2001–2012.



Inga uppenbara geografiska skillnader kunde identifieras vid en analys av födelselän. I samtliga län användes diagnosen FAS minst en gång för barn under 18 år.

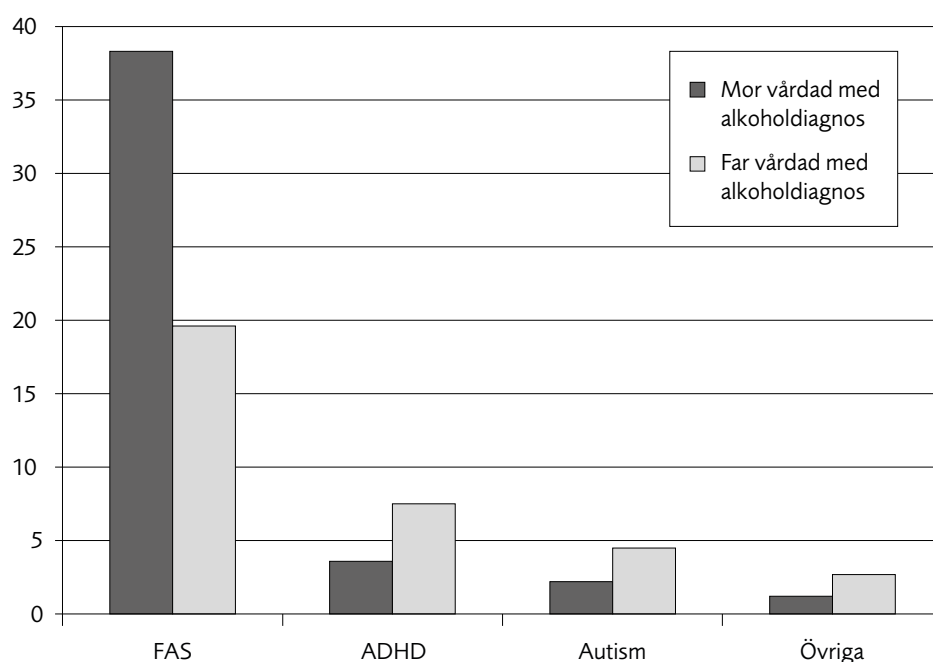
Diagnosen FAS användes i första hand av barnmedicinska kliniker (inklusive neonatala intensivvårdsavdelningar) (Tabell 4.3).

Klinik	Andel
Barnmedicin	64 %
Barn och ungdomspsykiatri	9 %
Kirurg	12 %
Habilitering	4 %
Ögon	9 %
Foniatri	1 %
Okänd	2 %

**Tabell 4.3**  
Kliniker som använde diagnosen FAS för svenskfödda barn under 18 år i kohorterna 1987–2012 under 2001–12 (n=107).

## Samhällsvård

Av de 107 (63 %) svenskfödda barnen med FAS-diagnos, hade 67 varit placerade i samhällsvård någon gång under uppföljningstiden; 51 av barnen hade varit placerade mer än fem år. Ett av barnen var adopterat. För barn med ADHD respektive autismdiagnos var andel med erfarenhet av samhällsvård 8 procent respektive 6 procent, och bland övriga barn 1,5 procent (Figur 4.6).

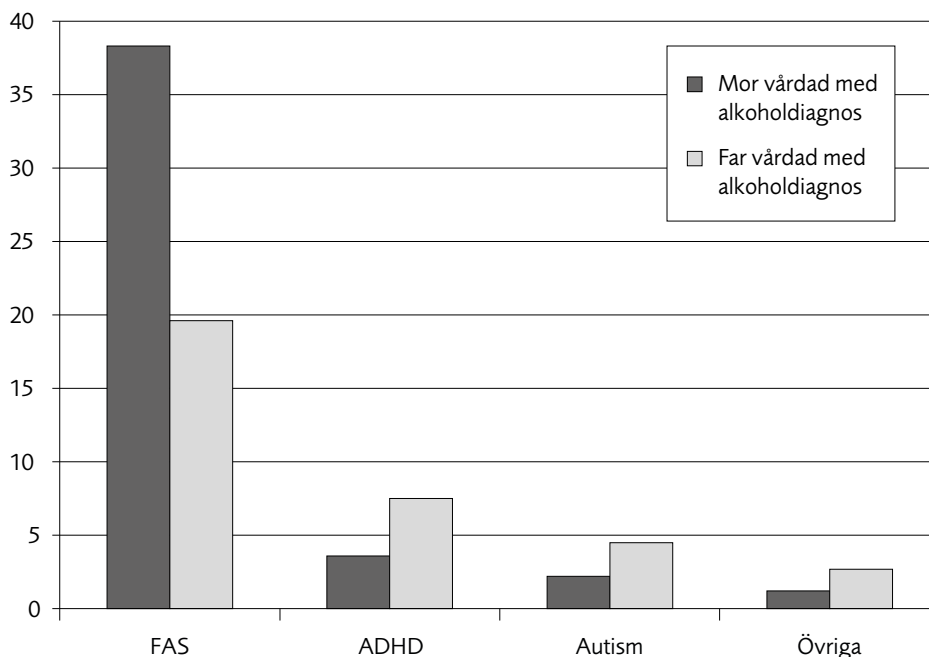


**Figur 4.6**  
Procent av barn i olika neuropsykiatriska kategorier som vårdats i samhällsvård under 1987–2012.

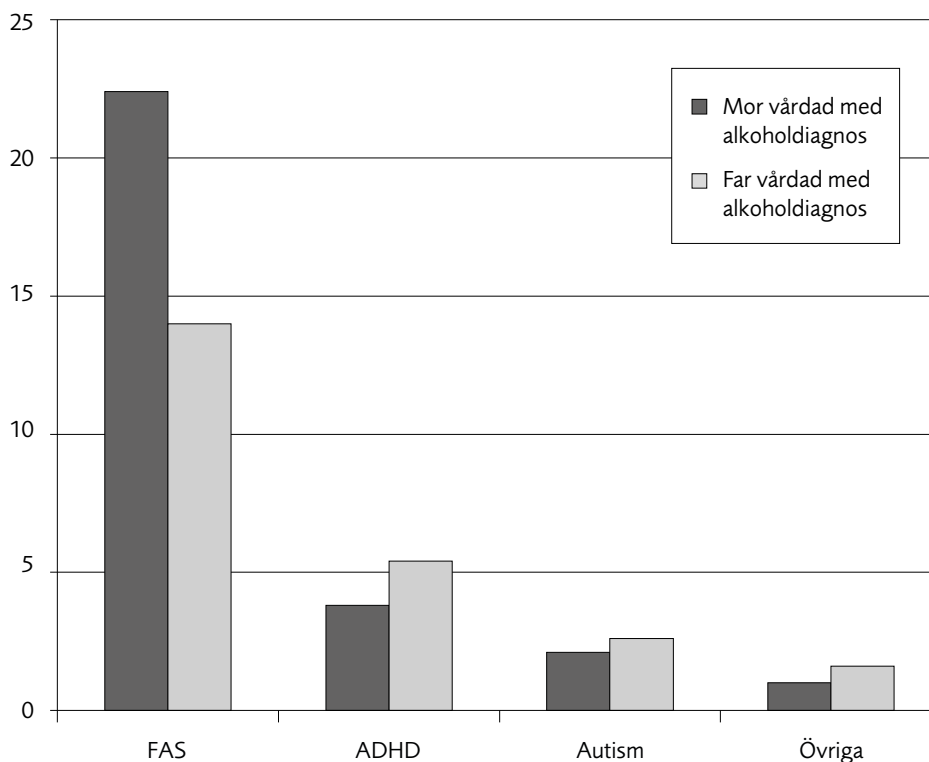
## Föräldrars vård på grund av alkohol eller narkotikamissbruk

Betydligt fler barn med FAS-diagnos hade föräldrar som vårdats inom specialistvård på grund av alkoholrelaterad sjuklighet jämfört med övriga barn i studiepopulationen (Figur 4.7). Även specialistvård på grund av narkotikamissbruk var vanligare hos barn med FAS-diagnos (Figur 4.8).

**Figur 4.7**  
 Procent av föräldrar som vårdats inom specialistvård på grund av alkoholrelaterad sjuklighet hos barn med olika neuropsykiatriska diagnoser.

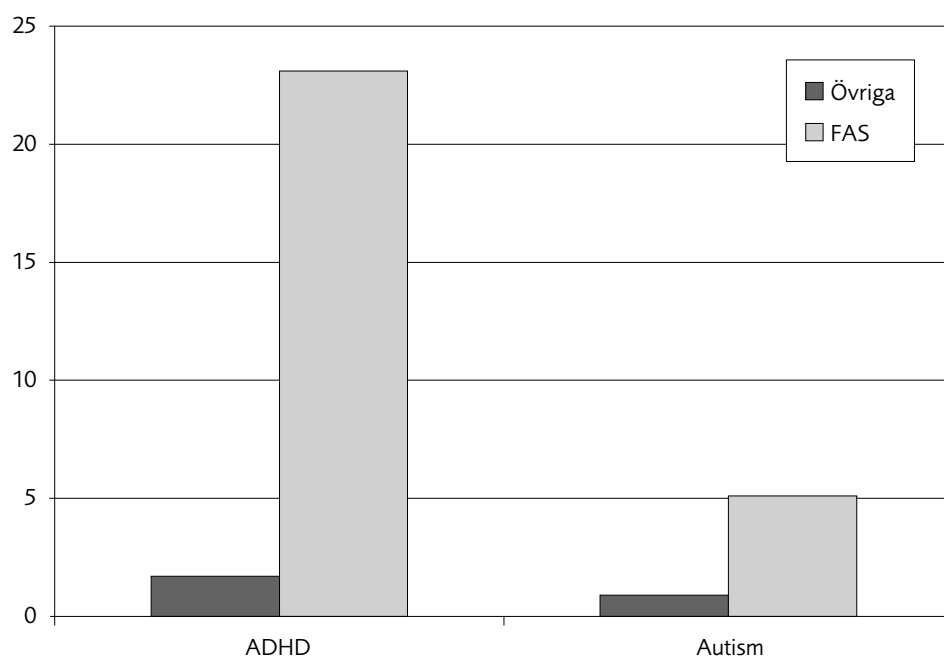


**Figur 4.8**  
 Procent föräldrar som vårdats inom specialistvård på grund av narkotikarelaterad sjuklighet hos barn med olika neuropsykiatriska diagnoser.



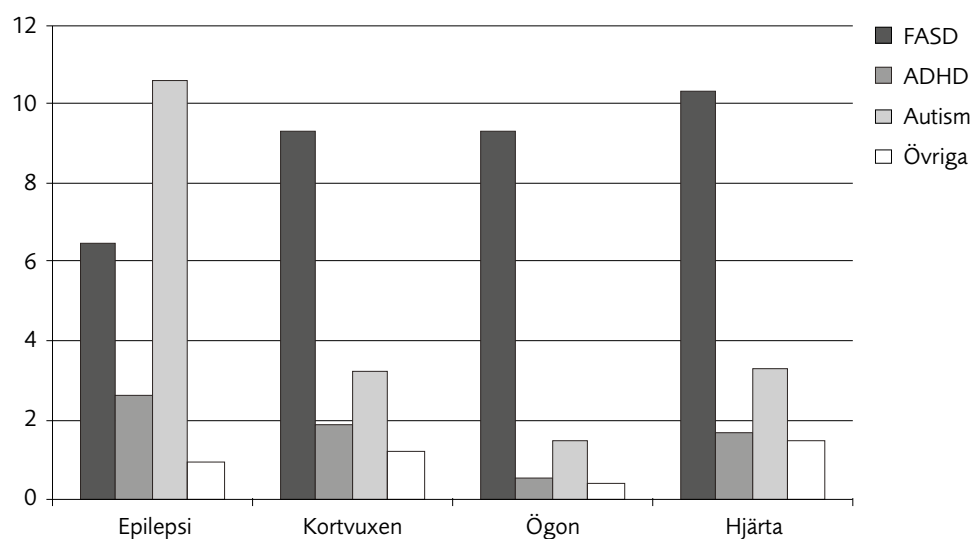
## Samsjuklighet

ADHD förekom hos 23 procent av barnen med FAS-diagnos; 36 procent av pojkarna och 20 procent av flickorna. Även autism var betydligt vanligare bland barnen med FAS (5 %, Figur 4.9), och speciellt bland de utlandsadopterade med FAS; 9 procent. FAS-diagnos i kombination med både ADHD och autism förekom endast hos ett barn.



**Figur 4.9**  
Procent av svenskfödda barn med FAS-diagnos som också har diagnos autism respektive ADHD i Patientregistret.

Diagnosrelaterad kortvuxenhet och missbildning av ögon och/eller hjärta var vanligare hos barnen med FAS-diagnos än hos barnen med ADHD- eller autismsdiagnos. Barnen med FAS hade också vårdats oftare på grund av epilepsi än barn utan neuropsykiatrisk diagnos, men mer sällan än barn med autism.



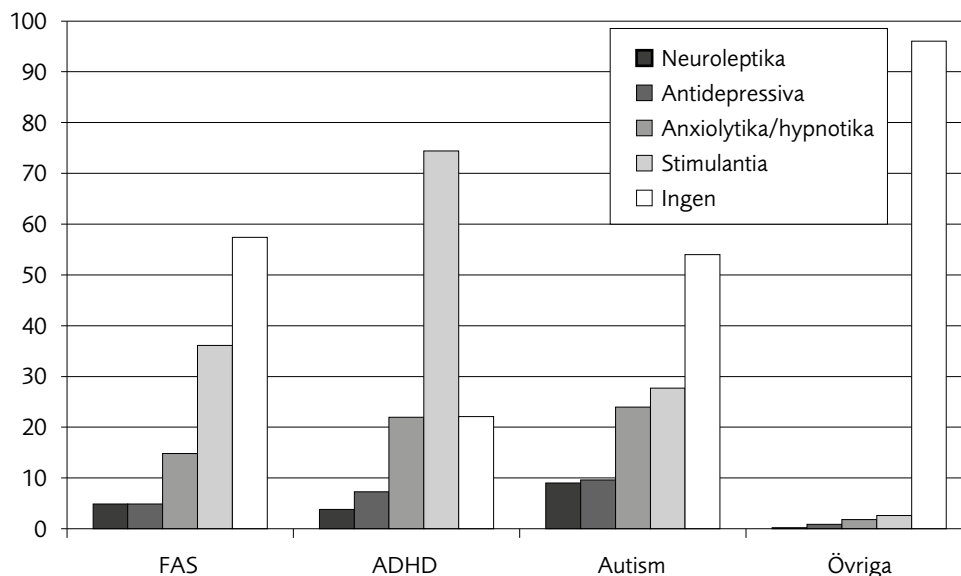
**Figur 4.10**  
Procent med somatisk samsjuklighet i Patientregistret efter neuropsykiatrisk diagnos.

## Psykofarmaka

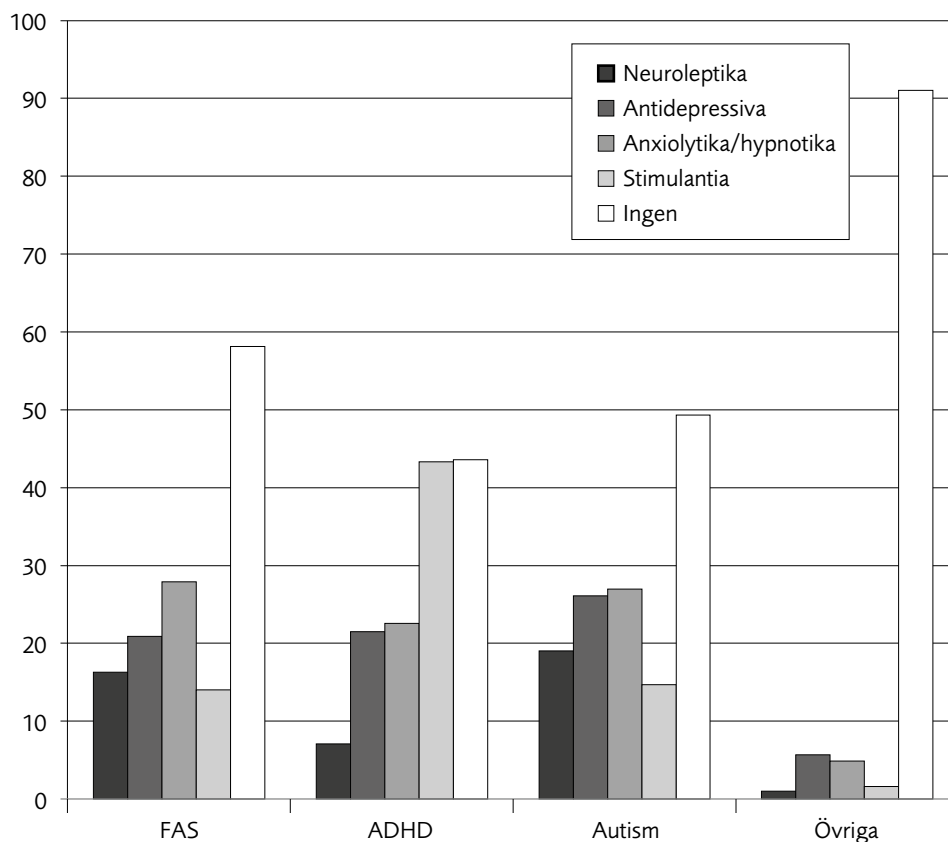
Närmare en tredjedel av barnen i åldern 0–18 år med FAS-diagnos behandlades med stimulantia under 2013 (Figur 4.11), i huvudsak barn som också diagnostiserats med ADHD. Andelen barn med ADHD-diagnos som behandlades med stimulantia var ungefär lika stor i gruppen med eller utan FAS; 58 respektive

60 procent. I åldersgruppen 18–25 år var spridningen större för typ av psyko-farmaka, men andelen som behandlades med någon typ av psykofarmaka under 2013 var ungefär lika stor som i den yngre åldersgruppen, 42 respektive 43 procent (Figur 4.12). Utlandsadopterade med FAS använde psykofarmaka på ett liknande sätt som andra barn med FAS.

**Figur 4.11**  
Procent av barn i åldern 0–18 år som hämtat ut minst ett recept med psykofarmaka under 2013.



**Figur 4.12**  
Procent av ungdomar i åldern 18–25 år som hämtat ut minst ett recept med psykofarmaka under 2013.





## Diskussion

Denna studie beskriver barn (under 18 år) med FAS sedan 2001. Analysen visar att diagnosen används sparsamt i svensk praxis; i registret identifierades i genomsnitt endast nio nya svenskfödda barn per år. Diagnosen används framför allt på barnmedicinska kliniker med en jämn spridning över landet.

Flertalet barn med FAS fostras av andra än sina biologiska föräldrar. Fyrtiosex procent är utlandsadopterade från Östeuropa. Två tredjedelar av de svenskfödda barnen hade erfarenhet av samhällsvård och majoriteten under lång tid.

Även om närmare en tredjedel av mödrarna till de svenskfödda barnen med FAS, har vårdats inom specialistvården på grund av alkoholrelaterad sjukdom, så har flertalet inte någon sådan vårderfarenhet. Att identifiera barn med FAS genom att följa upp mödrar där beroendevården redan känner till kvinnornas alkoholproblem, är således inte tillräckligt. Närmare en fjärdedel av dessa mödrar har vårdats inom specialistvård på grund av narkotikamissbruk. Det är därför troligt att barnen i Sverige ofta har exponerats för andra droger än alkohol under fostertiden.

I litteraturen beskrivs barn med FAS oftare än andra barn, ha missbildningar av hjärta och sinnesorgan, ha epilepsi och oftare bli kortvuxna [66]. Denna bild bekräftades i stort av registerstudien som visar att dessa missbildningar och kortvuxenhet oftare förekommer hos barn med FAS-diagnos än hos barn med autism och ADHD-diagnoser. Epilepsi är dock vanligare hos barn med autism än hos barn med FAS.

En fjärdedel av barnen med FAS har också diagnostiserats med ADHD. Dessa barn har i lika hög grad (cirka 60 %) behandlats med stimulantia som andra barn med ADHD. Även mediciner med neuroleptika, bensodiazepiner och antidepressiva är vanligare hos barn med FAS än hos övriga i befolkningen, men drygt hälften av individerna med FAS i studien hade ingen behandling med psykofarmaka under 2013.

Det bör påpekas att denna studie har en viktig begränsning i rapporteringen från vissa vårdenheter som kan tänkas ställa FAS-diagnoser. Det gäller framför allt barn- och ungdomspsykiatriska kliniker samt neuropsykiatriska specialenheter, där rapporteringen var bristfällig under delar av studieperioden samt att det saknades dokumentation om detta. Det är därför troligt att det finns en del patienter med FAS som inte identifierats i studien. Materialet bör därför inte användas för beräkningar av hur ofta FAS-diagnosen ställs i klinisk praxis i Sverige. Det är dock mindre troligt att detta urval påverkat beskrivningarna av barn med FAS när det gäller samhällsvård, föräldrars sjuklighet, psykofarmaka eller annan sjuklighet. Det bör dock påpekas att det inte kan uteslutas att förekomsten av en ovanlig ögonmissbildning kan vara en viktig del i den diagnostiska processen som leder fram till en FAS-diagnos och att förekomsten av ögonmissbildningar hos barn med FAS-diagnos därför är överdrivna i studien. Felkällorna är dock ungefär desamma också för andra neuropsykiatriska diagnoser som ADHD och autism, varför jämförelser mellan dessa diagnoser torde vara rättvisande.

# En systematisk översikt – Upplevelser och erfarenheter hos personer eller anhöriga till någon som uppfyller kriterierna för FASD

Med detta kapitel vill vi ge en röst åt personer som uppfyller kriterier för FASD och deras föräldrar om hur det är att leva med FASD. Teoriutveckling eller hypotesgenerering är inte fokus för det här arbetet. Frågeställningen är:

- Vilka upplevelser och erfarenheter har personer som uppfyller kriterier för FASD och deras familjer av att leva med dessa tillstånd, i deras vardag?

För att besvara ovanstående fråga gjordes en systematisk granskning av studier med kvalitativ metodik. Totalt identifierades 48 publicerade artiklar som granskades i fulltext. Av dessa beskriver 2 studier barns och vuxnas upplevelser och erfarenheter av att leva med FASD och 16 studier beskriver föräldrars upplevelser och erfarenheter av att leva med barn som har FASD. Övriga studier uppfyllde inte inklusionskriterierna (Bilaga 5a). En ytterligare studie om föräldrars upplevelse av en insats (avlösning) ingår i Kapitel 5.

Studierna som beskriver upplevelser hos individer med FASD är genomförda i Kanada och Nya Zeeland medan studierna som beskriver upplevelser hos föräldrar är till största delen är genomförda i Kanada och USA. Några studier från Storbritannien och Nya Zeeland förekommer samt en studie från Australien. Eftersom inga publicerade studier från Sverige identifierades gjordes en sökning efter grå litteratur från Sverige. En kandidatuppsats från Göteborgs universitet identifierades och inkluderades efter granskning [67]. Samtliga inkluderade studier är beskrivna i Bilaga 1, Tabell 4.

I Kapitel 3 finns en beskrivning av hur vi arbetat med att få fram och bedömt evidensen, det vill säga tilltron till de olika temana enligt CERQual (Faktaruta 3.2) [1]. Definitionerna på de olika nivåerna av tillförlitlighet vid evidensgraderingen finns listade i Faktaruta 3.2 och de specifika bedömningar som gjorts är beskrivna under respektive tema nedan. Generellt bör dock nämnas att studiernas metoddel, framför allt studieförfattarnas förförståelse ("researchers reflexivity") sällan är utförligt beskriven.

Studierna utgörs dessutom av en blandning av individer med olika tillstånd under FASD-paraplyet vilket är problematiskt då upplevelser och erfarenheter naturligtvis kan vara kopplade till svårighetsgrad och karaktär av tillståndet. Trots det har vi valt att göra en syntes av resultaten då vi bedömer att det kan finnas gemensamma upplevelser av att leva med de olika tillstånden som kan vara viktiga att lyfta. En sammanställning av första, andra och tredje nivåns teman presenteras i Bilaga 2 (Tabell 1, 4, 7 och 10). Teman som bedömts ha måttlig tillförlitlighet beskrivs mer detaljerat än teman med låg eller mycket låg tillförlitlighet.

## Upplevelser och erfarenheter hos personer med FASD

De två studierna där personer med FASD intervjuats om sina erfarenheter av att leva med tillstånden inkluderade 14 individer som var 14–37 år respektive 22 individer som var 6–18 år [68,69]. I Bilaga 2 redogörs hur de olika temana från studierna har syntetiserats till andra nivåns teman och hur de sedan är grupperade i två tredje nivåns teman: Erfarenheter av att möta och hantera sina svårigheter (Tabell 4.4 samt Bilaga 2, Tabell 1–3) samt Erfarenheter av hur svårigheterna bemöts av andra (Tabell 4.5).

På grund av de olika åldersspannen beskriver de båda studierna något olika perspektiv. Därför baseras majoriteten av fynden endast på teman från den ena av studierna och underlaget för dessa blir mycket svagt. Ett tema får dock större tyngd (måttlig tillförlitlighet) då det innefattar flera teman från de båda studierna. Detta gäller påståendet att personer med FASD upplever att deras kognitiva, psykiska eller sociala problem begränsar dem i deras vardag och får dem att känna sig annorlunda.

### Erfarenheter av att möta och hantera sina svårigheter

Här beskrivs de fyra andranivåteman som handlar om hur individer med FASD upplever och hanterar sina svårigheter, varav ett har måttlig tillförlitlighet.

Personer med FASD upplever att deras kognitiva problem, psykiska hälsa och sociala svårigheter begränsar deras vardag och får dem att känna sig annorlunda

Detta andranivåtema är baserat på flera teman från de två studierna beskrivna ovan [68,69]. I studien av Stade och medarbetare beskriver barn och ungdomar med FASD sina svårigheter med till exempel inläring, koncentration, motorik samt sina sociala svårigheter. De relaterar till att andra barn inte har dessa problem. En 8-åring säger till exempel *"I think differently from everyone. Everybody makes fun of me."* och en 18-åring berättar *"They (teachers, employers) expected me to do things I couldn't. I have a hard time doing some things. Others (kids his age) do things easier, get through work ..."*.

I studien av Salmon och medarbetare beskriver ungdomar och vuxna sina minnesproblem, emotionella och sociala problem samt de svårigheter de möter i skola och arbetsliv [69]. En 23-åring beskriver minnesproblematiken så här: *"My memory blocks itself out so that everything to me is new. Every day is a new day, everything that I do is a new thing and even though I might have done it a thousand times before, it's still new. My long-term memory is the one that reminds me of the things that I've done before"*. En 24-åring säger om arbetslivet *"Holding down a stable job is difficult; my attention goes very quickly. If I'm interested in something, I can hold my attention"*.

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är metodologiska brister samt att temat endast är baserat på två studier.

## Övriga teman

Tre andranivåsteman identifierades under tredjenivåtemat ”Erfarenheter av att möta och hantera sina svårigheter”:

1. Barnens förståelse för uppkomsten av FASD och orättvisan i detta.
2. Hur barnen upplever att de försöker delta i olika aktiviteter trots sina svårigheter.
3. Vuxnas upplevelser av destruktivt beteende, såsom användning av droger i ett försök att hantera sina svårigheter samt hur detta i många fall innefattar illegala handlingar.

Vi bedömde att det är mycket låg tillförlitlighet till dessa tre teman. Den övergripande orsaken till den stora osäkerheten är att de endast är baserade på ett tema från en studie vardera. Utöver det finns en viss osäkerhet beroende på metodologiska brister i studierna (Bilaga 2, Tabell 1–3).

**Tabell 4.4**  
Difficulties experienced by persons with FASD. GRADE – CERQual summary of qualitative evidence table.

Review finding	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual Assessment	References
<p><b>Persons with FASD experience that their cognitive, mental health, and social difficulties affect their daily life in a limiting way and make them feel different from others</b></p> <p>Persons with FASD experience memory problems, various mental health issues such as anxiety and depression. Furthermore, children with FASD experience daily challenges such as keeping up with school work and paying attention and adults with FASD experience daily challenges in the workplace, such as staying focused on a given task. People with FASD understand the limitations tied to their disabilities and feel different in their comparison of themselves to others</p>	Moderate confidence	Two studies contributed to this finding, one from Canada and one from New Zealand. The reason for rating down are minor to moderate methodological concerns and minor concerns about adequacy	[68,69]
<p><b>Children with FASD experience unfairness relating to the etiology of FASD</b></p> <p>The children understand the cause of FASD and that it is preventable</p>	Very low confidence	One study from Canada contributed to this finding. The reason for rating down are moderate concerns regarding methodological and adequacy as well as minor concerns regarding relevance	[68]

*The table continues on the next page*

Table 4.4  
continued

Review finding	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual Assessment	References
<p><b>Children with FASD try hard to overcome the limitations of the disabilities in daily life activities</b></p> <p>Despite their difficulties, children with FASD try to find ways to participate in activities</p>	Very low confidence	One study from Canada contributed to this finding. The reasons for rating down are moderate concerns regarding methodological limitations and adequacy as well as minor concerns regarding relevance	[68]
<p><b>Persons with FASD exhibit destructive behaviour such as criminal activities and use of alcohol and drugs, as a way of coping with mental and social difficulties</b></p> <p>The use of alcohol and drugs as an attempt to cope with mental health and social issues affected virtually all areas of the participants' lives. Adults with FASD have experiences of various criminal behaviours and involvement with the law and authorities</p>	Very low confidence	One study from New Zealand contributed to this finding. The reasons for rating down are minor concerns regarding methodological limitations and relevance including serious concerns regarding adequacy of data	[69]

FASD = Fetal alcohol spectrum disorder

## Erfarenheter av hur svårigheterna bemöts av andra

Under detta tredjenivåtema finns två andranivåteman för vilka vi har mycket låg tillförlitlighet. Barn med FASD känner att de får stöd av sina föräldrar (*Children with FASD feel supported by their parents*) [68] och Vuxna med FASD känner att det inte får tillräckligt med stöd från socialtjänsten och hälso- och sjukvården (*Adults with FASD feel under-supported in the social and health systems*) [69]. Anledningen till att dessa teman bedömts vara så osäkra är att de endast är baserade på ett tema från en studie vardera i kombination med metodologiska brister och en viss osäkerhet vad gäller relevans. Det föräldrastöd som barnen beskriver att de får i studien av Stade och medarbetare är inte nödvändigtvis representativt för hela gruppen med FASD då familjerna är rekryterade via stödföreningar för FASD [68]. Det finns även en viss osäkerhet kring temat om brist på samhällsstöd hos vuxna på grund av potentiella skillnader mellan Nya Zeeland och Sverige avseende detta.

**Tabell 4.5**  
Experiences by persons with FASD of how their difficulties are met by others. GRADE – CERQual summary of qualitative evidence table.

Review finding	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual Assessment	References
<p><b>Children with FASD experience that they get a lot of support from their parents</b></p> <p>Feeling supported by parents was a central feature of their experience of living with FASD, and they spontaneously reported feeling supported and cared for by the parents</p>	Very low confidence	One study from Canada contributed to this finding. The reasons for rating down are moderate concerns regarding methodological limitations and adequacy as well as minor concerns regarding relevance	[68]
<p><b>Adults with FASD experience lack of support from professionals in the social services and the health care system</b></p> <p>Adults with FASD feel under-supported in many ways by the social and health systems e.g. regarding medication provided and attitudes amongst professionals</p>	Very low confidence	One study from New Zealand contributed to this finding. The reasons for rating down are methodological limitations, serious concerns regarding adequacy as well as minor concerns regarding relevance	[69]

FASD = Fetal alcohol spectrum disorder

## Upplevelser och erfarenheter hos föräldrar till personer som uppfyllde kriterier för FASD

Av de 16 inkluderade studierna var fem utförda i Kanada [70–73,81,83], tre i USA [74,75,82], två i Storbritannien [77,78], en i Sverige [67], en i Nya Zeeland [79] och en i Australien [80]. Antalet deltagande föräldrar per studie var mellan 4 och 84. En studie inkluderade enbart biologiska mammor, medan majoriteten av föräldrarna i övriga studier var familjehems- eller adoptivföräldrar. Bilaga 2 visar hur de 16 temana från studierna har syntetiserats till andranivåteman och hur de sedan är grupperade i tre tredjenivåteman: *Föräldrars erfarenheter och upplevelser av sina barns svårigheter* (Bilaga 2, Tabell 4–6), *Upplevelser av föräldrskapet i relation till FASD* (Bilaga 2, Tabell 7–9) samt *Upplevelser av samhället i relation till sin roll som förälder till en person med FASD* (Bilaga 2, Tabell 10–12).

### Föräldrars erfarenheter och upplevelser av sina barns svårigheter

Här beskrivs de två temana som handlar om hur föräldrar till barn med FAS eller andra tillstånd under FASD-paraplyet upplever sina barns svårigheter. För båda temana bedömdes att vi hade måttlig tillförlitlighet (Bilaga 2, Tabell 4–6).

## **Föräldrar upplever att deras barn uppvisar olika kombinationer av kognitiva och fysiska oförmågor**

Detta tema baseras på data från sju studier. Två studier var genomförda i vardera USA [74,75] respektive Kanada [73,81], en i vardera Storbritannien [78], Nya Zeeland [79] och Australien [80]. Föräldrarna beskriver barnens minnesproblem, deras bristande förståelse för konsekvenser av sina handlingar, aggressivitet, hyperaktivitet, destruktivitet, hög smärttolerans och avsaknad av rädsla men också somatiska problem. I studien av Sanders och Buck förklarar en mamma: *"It's frustrating because you get mad telling your kid the same thing a million and one times but you know he doesn't remember"* [73].

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering beror på metodologiska begränsningar samt små begränsningar när det gäller datas omfattning.

## **Föräldrar upplever att deras barn har olika, men betydande sociala svårigheter på grund av sin FASD**

Detta andranivåtema baseras på data från åtta studier. Fem studier var gjorda i Kanada [71–73,81,147], två i USA [75,82] och en i Nya Zeeland [79]. Föräldrarna beskriver barnens beteendeproblem. Det handlar om svårigheter med att få och behålla vänner, om närvaro i skolan samt om att hitta och behålla ett jobb. Föräldrarna beskriver även att barnet kan vara naivt och därför riskerar att bli utnyttjat eller hamna i olämpligt sammanhang. En biologisk mamma i studien av Salmon beskriver: *"He's been involved in gangs, we know that. But because he doesn't understand things the way other people do, they will give him drugs to sell, and he'll sell the drugs and then spend the money himself. So we've had several instances where there have been gang hits on him, so it's either we pay the debt and free him up, or we risk having him killed"* [79].

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är metodologiska begränsningar samt en viss osäkerhet kring i vilken grad de kontextuella faktorer som kan ha påverkat föräldrarnas upplevelser av sociala nackdelar skiljer sig från Sverige.



**Tabell 4.6**  
Parents' experiences regarding their child's disabilities GRADE – CERQual summary of qualitative evidence table.

Review finding	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual Assessment	Studies contributing to the review finding
<p><b>Parents experience that the children show various combinations of cognitive and physical disabilities</b></p> <p>Adoptive, foster or biological parents describe that their children show diminished memory, diminished comprehension, and various somatic problems, high pain tolerance, destructive behaviour, are hyperactive and aggressive. In addition foster parents also describe that their children lack fear and judgment as well as understanding for the consequences of his/her actions</p>	Moderate confidence	7 studies with moderately rich data contributed to this finding (2 from USA, 1 from UK, 1 from New Zealand, 1 from Australia and 2 from Canada). The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations and minor concerns regarding adequacy of data	[73–75, 78–80,83]
<p><b>Parents experience various social disadvantages associated with the child's characteristic linked to FASD</b></p> <p>Parents describe that their child has behavioural problems, difficulties with forming friendships, school attendance and maintaining employments. Furthermore, the parents describe that their child is naïve, taken advantage of and tend to end up in the wrong social environment</p>	Moderate confidence	8 studies with rich data contributed to this finding (5 from Canada, 2 from USA, and 1 from New Zealand). The reasons for rating down are minor to moderate concerns with regards to methodological limitations as well as relevance	[71–73,75, 79,82,83,147]

**FASD** = Fetal alcohol spectrum disorder

## Upplevelser av föräldraskapet i relation till FASD

Här beskrivs de åtta andranivåtemana som handlar om hur föräldrar till barn med FAS eller andra tillstånd under FASD-paraplyet upplever föräldraskapet i relation till FASD. Vi bedömde att vi hade måttlig tillförlitlighet för samtliga teman (Bilaga 2, Tabell 7–9).

Föräldrar upplever en rad olika känslor när deras barn diagnostiseras med FASD

Detta andranivåtema baseras på data från tre studier. En studie gjordes i Kanada [73], en studie i vardera Storbritannien [78] och Nya Zeeland [79]. I studierna liknar föräldrar att få en diagnos med ett tvåeggat svärd. Biologiska mammor kände sorg och skuld för att ha druckit alkohol under graviditeten. En mamma i studien av Sanders och Buck uttrycker det så här: *”I had a lot of guilt for many years ... very much depressed, knowing that my drinking caused this damage. Like I said, that just threw me over the edge. I cried a lot. I felt bad that I did this damage to Dylan. I thought what kind of a parent am I to do that to my own kid”* [73].



Därutöver uttryckte såväl biologiska som icke biologiska föräldrar ånger för att ha gjort fel i situationer innan de var medvetna om att deras barn påverkats av alkohol som foster. Att få en diagnos innebar samtidigt en lättnad och bekräftelse då föräldrarna kom att förstå deras barns utmaningar. En diagnos kan underlätta förståelse för barnen, men också innebära en etikett som kan uppfattas som fördömande.

Anledningen till att detta tema bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är metodologiska begränsningar samt datas omfattning.

Föräldrar beskriver vikten av en diagnos för att få stöd för sitt barn från samhället

Detta andranivåtema baseras på teman från fem studier varav två var utförda i Kanada [71,83] och en i vardera Nya Zeeland [79], Sverige [67] samt Australien [80].

Föräldrarna beskriver hur diagnosen är viktig för att få adekvat hjälp. En svensk förälder i studien av Hagström och Lindberg säger: *"Då kan vi förhoppningsvis få hjälp på rätt sätt, sätta in rätt åtgärder /.../ bra då kan vi tala om för skolan "det är det här (FAS)" /.../ Det är inget vi har hittat på, det är ingenting som går över, det är ingenting som man kan medicinera bort utan det är det här"* [67].

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är metodologiska begränsningar samt små begränsningar vad gäller datas omfattning.

Föräldrar upplever glädje, stolthet och hängivenhet till sina barn (trots alla svårigheter)

Detta tema baseras på teman från fem studier varav två var utförda i Kanada [72,73] respektive USA [75,82] och en från Australien [80]. Föräldrarna beskriver hur stolta och glada de trots allt är över sina barn och de olika talanger barnen har. En adoptivmamma i studien av Chamberlain och medarbetare säger: *"Without the behaviours, he was a very persevering, clever little boy. I would say 'One day you are going to be an actor', because he just has this canny, canny way with him. He just makes people laugh"* [80].

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är metodologiska begränsningar samt begränsningar vad gäller datas omfattning.

Föräldrar upplever bördor såsom stress och social isolering

Detta andranivåtema baseras på teman från fyra studier varav två studier var utförda Storbritannien [77,78] och två i Kanada [72,147]. I studierna beskriver föräldrarna till barn med FASD att de upplever att de socialt isoleras samt upplever frustration och emotionell konflikt gentemot sitt barn. Ibland upplever föräldrarna utmattning eller utbrändhet. I studien av Mukherjee och medarbetare beskriver en förälder följande: *"We're not doing any of the things that we*

*thought we would be doing now when we adopted. She doesn't get invited anywhere herself and we don't go with her anywhere, do we?" [77].*

Vidare i studien av Michaud och medarbetare beskriver en förälder följande [72]: *"love being a parent, it is beautiful, okay, but I am getting tired and sometimes I wonder if there is an end in sight. Will I have to parent my children with FASD forever and forever and ever. And if so, have I taken on too much? This is so beautiful, but what is at the end? And is there an end, what is that going to mean".*

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är metodologiska begränsningar samt begränsningar vad gäller datas omfattning.

Föräldrar upplever att leva med ett barn med FASD belastar hela familjen

Detta andranivåtema baseras på teman från fyra studier varav två studier var utförda i Storbritannien [77,78], en från USA [82] och en i Kanada [73]. I studierna beskriver föräldrarna hur hela familjen påverkas genom påfrestningar i hemmiljön och social isolering. En förälder i studien av Mukherjee och medarbetare beskriver [77]: *"We divorced five years ago. It was just ... the family just exploded, it was just, it broke down. Totally broke down."*

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är begränsningar avseende metodologi och relevans samt att underlaget är något tunt.

Föräldrar upplever att de måste anpassa strategier i föräldraskapet efter sitt barns specifika behov

Detta andranivåtema baseras på information från åtta studier varav fem studier var utförda i Kanada [70,72,73,81,148], en studie i Storbritannien [77] och två i USA [74,82]. I studierna beskriver föräldrarna till barn med FASD att de upplever att de fått anpassa kunskaper och strategier för sitt barns behov. I studien av Watson och medarbetare (part II) beskriver en förälder behovet av rutiner [83]: *"We stick to the same schedule like get up, you get dressed, you come and eat breakfast, you brush your teeth. We get your lunch in the bag, you get your jacket and that on for school, and catch the bus Off days, by 11 o'clock it's horrible".*

I studien av Coons och medarbetare beskriver en förälder följande om behovet att upprepa information [70]: *"Living with them, it's like, ever see that movie Groundhog Day? Reminds me of that because these children... like normally any kids you have to tell them so many times so it sinks into their head. But these kids here, it's like every day you tell them and like, got erased during the night. Next day start over. Tell him again".*

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är metodologiska begränsningar.

Föräldrar upplever en oro för sitt barns framtid och förväntar sig livslånga aktiva föräldrainsatser

Detta andra nivåtema baseras på data från sju studier varav tre studier var gjorda i Kanada [72,73,81], två i USA [74,75], en i vardera Storbritannien [77] och Australien [80]. I studierna beskriver föräldrarna en oro för framtiden. De förutser att det kommer att vara livslånga utmaningar och att barnen kommer att vara beroende av dem som föräldrar även i vuxen ålder. De oroar sig för att deras barn aldrig kommer att kunna leva ett oberoende liv, att de kommer ha svårigheter med skola och arbete och att det i värsta fall kommer gå riktigt dåligt för dem genom att de till exempel hamnar i eget missbruk, i hemlöshet eller fängelse. I studien av Sanders och Buck beskriver en mamma det livslånga åtagandet som förälder till någon med FASD så här [73]: *"There's no saying you're 18 now they can go, or they can be home and you don't have to worry about them. You always have to worry about them, and it's hard because you never know what they're going to do. They could end up with a gang, they could get hurt easily drinking and being in a crowd. They're so easily led astray ... Yeah, it's a lifetime of worrying about them."*

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är metodologiska begränsningar samt en smärre osäkerhet kring vilken grad de kontextuella faktorer som kan ha påverkat föräldrarnas oro för framtiden skiljer sig i den svenska kontexten. Det skulle till exempel kunna röra sig om omfattning och typ av samhällstöd.

Föräldrar upplever att de måste föra sina barns talan på många olika sätt

Detta tema baseras på fyra studier, två från Kanada [70,81], en från Storbritannien [77] och en från Australien [80]. Föräldrarna upplevde att de ständigt behövde kämpa för att få förståelse och stöd till sina barn, exempelvis i skolan och gentemot socialtjänsten. En adoptivmamma i studien av Chamberlain och medarbetare säger [80]: *"It was my lack of qualifications. Yeah I am an annoying parent I guess because I would advocate. Even before we started at the school I was giving them the information (. . .) but it's kind of like [school saying] 'this is how we've done it for the last however many years at the school so this is how we will continue to do it'."*

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är metodologiska begränsningar samt små begränsningar vad gäller datas omfattning och eventuella kontextuella skillnader mellan Sverige och dessa länder.

**Tabell 4.7**  
 Parents' experiences  
 of parenthood in  
 relation to FASD.  
 GRADE – CERQual  
 summary of qualitative  
 evidence table.

Review finding	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual Assessment	Studies contributing to the review finding
<p><b>Parents experience a variation of feelings when their child is diagnosed with FASD</b></p> <p>Adoptive, foster och biological parents describe they feel grief, regret and guilt as well as much relief following their child's FASD diagnosis. In addition, parents feel socially judged because their child is diagnosed with FAS</p>	Moderate confidence	3 studies contributed to this finding (1 from Canada, 1 from New Zealand, and 1 from UK). The reasons for rating down are moderate concerns regarding methodological limitations as well as adequacy of data	[73,78,79]
<p><b>Parents describe the importance of getting a formal diagnosis in order to get help from society</b></p> <p>Parents explain that a diagnosis is needed to receive help and to be able to address proper interventions for their child</p>	Moderate confidence	5 studies contributed to this finding (2 from Canada, 1 from New Zealand, 1 from Australia and 1 from Sweden). The reasons for rating down are moderate concerns regarding methodological limitations and minor concerns regarding adequacy of data	[67,71,79, 80,83]
<p><b>Parents experience positive feelings such as joy, pride and devotion to their children (in spite of all difficulties)</b></p> <p>Parents feel devoted to and proud of their children who brings them joy. Parents describe that their children are gifted and talented in many ways</p>	Moderate confidence	5 studies contributed to this finding (2 from Canada and 2 from USA and 1 from Australia). The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations as well as adequacy of data	[72,73,75, 80,82]
<p><b>Parents experience burdens such as stress and social isolation</b></p> <p>Raising a child with FASD puts frustration and emotional stress on the parents who burn out and feel isolated</p>	Moderate confidence	4 studies contributed to this finding (2 from UK and 2 from Canada). The reasons for rating down are minor to moderate concerns with regards to methodological limitations as well as adequacy of data	[72,77, 78,147]
<p><b>Parents experience that living with a FASD child burdens the whole family</b></p> <p>Parents experience that a living with child with FASD puts stress on the whole family including siblings and other family members causing the family to be socially isolated</p>	Moderate confidence	4 studies contributed to this finding (2 from UK, 1 from USA and 1 from Canada). The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations and relevance, and minor concerns regarding adequacy	[73,77,78,82]

*The table continues on the next page*

Tabell 4.7  
continued

Review finding	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual Assessment	Studies contributing to the review finding
<p><b>Parents experience that they have to adapt their parenting strategies to their child's specific needs</b></p> <p>Parents experience that they need to get involved and be informed, in addition to develop and practice strategies, providing structure, consistency and re-informing in order to get the daily life to work out. Parents also describe the difficult balance between maintaining responsibility for and control over their child and giving them space to make their own choices and mistakes. In addition parents also describe their strategies to cope when facing the difficulties that they have with their child</p>	Moderate confidence	8 studies contributed to this finding (5 from Canada, 1 from UK, 2 from USA). The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations	[70,72–74, 77,81, 82,148]
<p><b>Parents experience concern for their child's future and their own expected lifelong parenting</b></p> <p>Parents foresee that their children will need a lifelong dependence of support and if they are not properly supported they might encounter difficulties in life with education and work, and in worst case tragic outcomes such as homelessness, drug abuse, or being imprisoned</p>	Moderate confidence	7 studies contributed to this finding (3 from Canada, 2 from USA, 1 from Australia and 1 from UK). The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations as well as minor concerns regarding relevance	[72–75,77, 80,83]
<p><b>Parents experience that they have to advocate their children in multiple ways</b></p> <p>Parents experience that they have to speak for their children and constantly monitor their rights to services and support</p>	Moderate confidence	4 studies contributed to this finding (2 from Canada, 1 from UK and 1 from Australia). The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations, and minor concerns regarding relevance and adequacy	[70,77,80,81]

FASD = Fetal alcohol spectrum disorder

## Upplevelser av samhället i relation till sin roll som förälder till en person med FASD

Här beskrivs de sex andranivåtemana som handlar om hur föräldrar till barn med FAS eller andra tillstånd under FASD-paraplyet upplever samhället i relation till sitt föräldraskap. För tre av dessa teman bedömde vi att vi hade måttlig tillförlitlighet (Bilaga 2, Tabell 10–12).

Föräldrar som strävar efter en diagnos för barnet upplever det som en kamp

Detta tema baseras på data från fyra studier. Två studier var genomförda i Kanada [73,81], en i Nya Zeeland [79] och en i Australien [80]. I studierna beskriver föräldrar till barn som diagnostiserats med FASD hur de fick kämpa för att få diagnosen. Det var en frustrerande och påfrestande process. Föräldrarna beskriver diagnosens betydelse för att få hjälp och stöd från samhället. I studien av Watson och medarbetare konstaterar en fostermamma till två söner med FASD [81] *"It was a lot of work. It shouldn't be that hard. We need a better diagnostic process ... if you don't have the [facial] features, good luck."*

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är metodologiska begränsningar samt små begränsningar vad gäller datas omfattning.

Föräldrar upplever en brist på förståelse och okunskap om FASD hos professionella samt känner sig anklagade för dåligt föräldraskap

Detta andranivåtema baseras på information från åtta studier varav två studier var utförda i Storbritannien [77,78], två i Kanada [70,147], en i Sverige [67], en i Nya Zeeland [79], en i USA [82] och en i Australien [80]. I studierna beskriver föräldrar till barn med FASD att de upplever brist på kunskap och förståelse från yrkesverksamma i vård, skola och socialtjänst. Föräldrarna upplevde att de ofta var tvungna att "utbilda" de som skulle hjälpa dem, om FASD. Föräldrarna kände sig inte förstådda. Genom bemötandet de fick kände de sig till exempel beskyllda för att vara dåliga föräldrar eller att deras barn ansågs vara lata. I studien av Ryan och medarbetare beskriver en förälder följande: *"We are on our own. No one understands our situation, In fact, we feel like they blame us for Alan's behavior. We call [the social service agency] and they say that there are no services for kids with FAS."* [82].

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är metodologiska begränsningar samt små till inga begränsningar vad gäller relevans och datas omfattning.

Föräldrar betonar vikten av stöd från skola, hälso- och sjukvård och socialtjänst

Detta andranivåtema baseras på information från åtta studier varav fyra från Kanada [70,73,147,148], en från vardera Nya Zeeland [79], Storbritannien [78], USA [82] och Sverige [67]. Föräldrarna i den svenska studien beskriver hur skolan inte anpassades efter barnets behov och nivå, att inga förklaringar gavs om det som gjorde barnet annorlunda, att inget stöd fanns för barn med FASD. Å andra sidan beskriver föräldrar hur positivt det var i de fall de blev lyssnade till och när de professionella accepterade diagnosen.

En förälder som deltog i den svenska studien skildrar avsaknaden av stöd i skolan: *"Problemet har ju hela tiden varit skolans hantering som varit fruktansvärd och felaktig, liksom katastrof!.../vilket gjort att hans symtom eller vad man ska säga, har ju varit långt över taket mot vad det ska vara!.../ ja, de har ju förstärkt*

*alla de här funktionsnedsättningarna liksom. Han har ju ballat ur hur mycket som helst på grund utav hur han har blivit behandlad”.*

Föräldern fortsätter sedan med att beskriva en positiv erfarenhet av en ny assistent till sitt barn: *”Så den här nya då som han fick, assistenten, hon är ju jättebra! /.../ Hon är en erfaren pedagog och väldigt lugn... och liksom... tar det inte personlig när han är... ful i munnen eller nått så där... och hon tar det i hans takt och hon har ju förstått det, har ju tagit allting på allvar /.../ hon är intresserad så hon läser allt hon kommer över själv”.*

Anledningen till att temat bedömdes ha måttlig tillförlitlighet vid en evidensgradering är metodologiska begränsningar samt små begränsningar vad gäller datas omfattning.

### Övriga teman

Ett tema identifierades för vilket vi har låg tillförlitlighet: När adoptiv- eller fosterföräldrar tar sig an ett barn upplever de att inte fick någon information om att barnet kan ha utsatts för alkohol under fostertiden och vilka konsekvenser det kan ha (*When taking a child onboard, adoptive and foster parents experience lack of information about the possibility that their child had been exposed to alcohol or the potential impact of this*). Adoptiv- och fosterföräldrar beskriver hur de antingen inte fått veta något om att barnet hade exponerats för alkohol under fostertiden eller i de fall de fått veta det inte fått någon information om vad detta skulle kunna innebära. De upptäckte själva barnets problematik och fick söka svaren på vad detta innebar.

Osäkerheten i temat beror framför allt på relevans då det finns oklarheter kring om detta gäller på samma sätt idag jämfört med de tidpunkter som adaptionerna skedde vid i studierna samt i den svenska kontexten. Dessutom vägdes de metodologiska begränsningarna in.

Det finns ytterligare två andranivåteman och dessa bedömdes ha mycket låg tillförlitlighet. Dessa teman var specifika för upplevelser beskrivna av biologiska föräldrar:

- Biologiska mödrar känner sig felinformerade, skuldbelagda, ignorerade och inte tagna på allvar (*Biological mothers feel uninformed, blamed, not listened to and not taken seriously*).
- Biologiska föräldrar känner igen FASD som relaterat till sociokulturella mönster (*Biological parents recognize that FASD is related to sociocultural patterns*).

Den stora osäkerheten i dessa teman berodde, förutom ovannämnda metodologiska brister, framför allt på att temana är baserade på endast en studie samt oklarheter kring om kontextuella faktorer kan ha påverkat temana (Bilaga 2, Tabell 10–12).

**Table 4.8**  
 Parent's experiences regarding society in their role as parents to children with FASD. GRADE – CERQual summary of qualitative findings table.

Review finding	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual Assessment	References
<p><b>When taking a child onboard, adoptive and foster parents experience lack of information about the possibility that their child had been exposed to alcohol or the potential impact of this</b></p> <p>Adoptive or foster parents felt they had not been given enough information by social workers or the health care that their child had FAS/FASD, was showing indications thereof, or that their child had been prenatally exposed to alcohol</p>	Low confidence	5 studies contributed to this finding (1 from Canada, 2 from UK, and 2 from USA). This finding was graded as low confidence because of moderate concerns regarding methodological limitations and serious concerns regarding relevance	[73,75,77, 78,82]
<p><b>Biological mothers feel uninformed, blamed, not listened to and not taken seriously</b></p> <p>Birth mothers felt they had not been informed of the harmful effects of alcohol intake during pregnancy, in addition to feeling that no one took them seriously, but blamed them for their child's diagnosis and behaviour</p>	Very low confidence	1 study from New Zealand contributed to this finding. This finding was graded as very low certainty because of moderate concerns regarding methodological limitations, adequacy and relevance	[79]
<p><b>Biological parents recognise that FASD is related to sociocultural patterns</b></p> <p>Individuals pass on unhealthy ways of behaving or coping that they use to protect themselves from their pain and trauma, such as abusing alcohol or drugs; these behaviours are modeled for their children, sometimes those involved even being aware of these dynamics</p>	Very low confidence	1 study from Canada contributed to this finding. This finding was graded as very low certainty because of moderate concerns regarding relevance and serious concerns regarding adequacy of data	[71]
<p><b>Parents striving for a diagnosis experience this as a struggle</b></p> <p>Parents whose children have been diagnosed with FASD experienced that they had to struggle to receive this diagnosis. The process of getting a diagnosis was frustrating and stressful</p>	Moderate confidence	4 studies contributed to this finding (2 from Canada, 1 from New Zealand, and 1 from Australia). The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations and minor concerns regarding adequacy	[73,79, 80,83]

*The table continues on the next page*



**Table 4.8**  
continued

Review finding	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual Assessment	References
<p>Parents experience lack of understanding and knowledge about FASD among professionals and feel blamed for bad parenting</p> <p>Parents experience a lack of knowledge about FASD, including related difficulties and problem behaviours, among doctors, social workers, and educators. Parents also experience that there is little or no knowledge of the syndrome among the police, and instead feel that police blame their childrens behaviour on bad parenting</p>	Moderate confidence	8 studies contributed to this finding (2 from UK, 2 from Canada, 1 from New Zealand, 1 from USA, 1 from Australia and 1 from Sweden). The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations and no to minor concerns regarding adequacy and relevance	[67,70, 77–80, 82,147]
<p>Parent stress out the importance of support to children with FASD and their parents from professionals within health care, social care, and school</p> <p>Parents experienced lack of support from professionals and appreciate the times when support was provided</p> <p>Parents experiences include lack of knowledge of related difficulties and problem behaviours and that 'FASD' is a hidden disability, in the sense that it is not always easily identifiable to outsiders and is often not recognised</p>	Moderate confidence	8 studies contributed to this finding (4 from Canada, 1 from New Zealand, 1 from UK, 1 from USA and 1 from Sweden). The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations, and minor concerns regarding adequacy	[67,70,73, 78,79,82, 147,148]

**FASD** = Fetal alcohol spectrum disorder

## Sammanfattning av resultat och kunskapsluckor

Vi har syntetiserat resultat från kvalitativa studier om upplevelser och erfarenheter bland personer som bedömts uppfylla kriterier för FASD och deras föräldrar. Vi håller oss mycket nära studiernas egna resultat av sina rådata. Det gör att de framtagna temana är tämligen homogena och generella i sin karaktär och därmed ligger de på en relativt likartad abstraktionsnivå. Vårt syfte är inte att bygga hypoteser, beskriva möjliga orsakssamband eller att arbeta med teoriutveckling.

Resultaten av syntesen visar att det är troligt att individer med FASD upplever en rad olika kognitiva, fysiska eller sociala problem, enskilt eller i kombination, som begränsar dem i sin vardag och får dem att känna sig annorlunda än andra. Detta är en bild som bekräftas av föräldrarnas upplevelser.

Troliga upplevelser kring föräldraskapet är att en diagnos kan väcka en blandning av känslor, till exempel både skuld och lättnad och ha olika konsekvenser för familjen. Vidare upplevs föräldraskapet tyngt av bland annat stress och social isolering. Föräldrarna hittar och lär sig successivt vad som fungerar och

inte och anpassar sitt föräldraskap därefter. De upplever en oro för framtiden och tror att det tunga föräldraansvaret kommer att fortsätta livet ut.

Föräldrar beskriver hur de blir bemötta i samhället och hur de upplever en brist på kunskap och förståelse från professionella och känner sig beskyllda för dåligt föräldraskap. Vidare upplever föräldrarna en stor brist på stöd från professionella, men uppskattar de tillfällen de upplever att de faktiskt fått stöd och förståelse.

Mycket av det som beskrivs här är upplevelser som troligtvis delas av barn med andra neuropsykiatriska diagnoser och deras föräldrar. Till exempel visar en tidigare SBU-rapport att föräldrar till barn med ADHD upplever att barnen uppfattas som annorlunda samt att de upplever brister i bemötande och behandling [84].

Det som skiljer denna typ av orsaksdiagnos från till exempel ADHD är dock kopplingen till mammans alkoholkonsumtion under graviditeten. Av det skälet vore det viktigt att få mer kunskap om vad biologiska föräldrar har för upplevelser kring diagnosen, samt vilket bemötande och stöd de får av samhället.

# Samhällskostnader som förknippas med FAS och FASD

De flesta studier som beräknat kostnader för FAS och FASD har utförts i Kanada och USA [85–89]. Studierna ger en samstämmig bild av att FAS och FASD förknippas med betydande kostnader för individen, familjen och samhället. Däremot varierar kostnadsskattningarna i studierna kraftigt på grund av skillnader i uppskattad förekomst av FAS, ålder i studiepopulationen, vilka kostnadsposter som har inkluderats, förekomst av samsjuklighet, antaganden om resursförbrukning, enhetskostnader och inflation.

Endast en svensk studie av kostnader som förknippas med FAS identifierades i den övergripande litteratursökningen. Studien publicerades 2015 av Linnéuniversitet och Nationellt kompetenscentrum anhöriga (Nka) på uppdrag av Socialstyrelsen och är en hälsoekonomisk beräkning av årliga samhällskostnader som förknippas med FAS i Sverige [90]. Fokus i beräkningen låg på kostnader för de funktionshinder relaterade till FAS som antas var möjliga att begränsa genom tidiga insatser från samhället. Förekomsten av olika funktionsnedsättningar baseras i studien på den svenska registerbaserade långtidsuppföljningen av psykosociala aspekter hos vuxna individer med en säkerställd FAS-diagnos som presenterats tidigare i rapporten [52]. I studiepopulationen ingick 79 individer som diagnostiserats med FAS vid Barnsjukhuset i Göteborg samt en jämförelsegrupp som matchats med individerna med FAS utifrån kön, ålder och födelseort (n=3 160). Endast de funktionsnedsättningar där det fanns en statistiskt säkerställd skillnad i förekomst mellan FAS-gruppen och jämförelsegruppen inkluderades i beräkningarna. Dessa funktionsnedsättningar var att ha svårt att klara sig själv, svårigheter i skola, psykisk sjukdom, missbruk, självmordstankar (ingår i andra kostnadsreferenser), nedsatt arbetsförmåga, kriminalitet (ingår i missbruk), olämpligt sexuellt beteende (utgick på grund av brist på underlag), dödlighet (kostnaden ingår i missbruk), och anhörigvård. De kostnader som ingick var kostnader för samhällsstöd i form av olika boenden och personlig assistans, särskola på grundskolenivå, genomsnittskostnaden för depression, bipolär sjukdom, schizofreni och ångest, alkohol- och/eller narkotikamissbruk, samt produktionsbortfall för individer utan anställning och för anhöriga och vårdare.

Jämfört med kontrollgruppen visade studien en årlig genomsnittlig merkostnad för FAS-gruppen på cirka 640 000 kronor per barn och 860 000 kronor per vuxen (år 2014). För både barn och vuxna bestod över 60 procent av merkostnaden av kostnader för samhällsstöd i form av olika boenden och/eller personlig assistans. För barn utgjordes resterande merkostnader av kostnader för särskola (cirka 18 procent) och anhörigvård (cirka 16 procent). I beräkningen av de årliga merkostnaderna för vuxna ingår även kostnader för nedsatt arbetsförmåga (21,3 procent av totala merkostnaden), missbruk (12,5 procent) och psykisk sjukdom (2,6 procent).

I beräkningarna saknas vissa kostnader som är svåra att skatta. I kostnaden för anhörigvård har endast den tid de anhörigas har varit frånvarande från sitt förvärvsarbete räknats med, vilket innebär att den del av sin fritid som

de anhöriga bidrar med inte har beaktats. Utan de anhörigas insatser skulle behovet av annat stöd troligtvis vara större. En annan viktig kostnad för samhället som inte har beaktats i analysen är hur tillståndet påverkar livskvalitet. Utöver hur individerna med FAS upplever sin livskvalitet bör även anhörigas livskvalitet beaktas (avsnitt om upplevelser och erfarenheter, Kapitel 4). Hälso- och sjukvårdskostnader som uppstår som en följd av somatiska problem ingår inte heller i analysen eftersom analysen har fokuserat på funktionshinder som är möjliga att begränsa med tidiga insatser. Andra kostnadsberäkningar har visat att hälso- och sjukvårdskostnader utgör en stor del av kostnaden för FAS [87].

Det är svårt att uttala sig om hur stor del av kostnaderna som hade kunnat undvikas med hjälp av tidiga insatser. En stor del av merkostnaden för både barn och vuxna består av insatser som idag redan erbjuds för att stötta individerna och deras familjer och det är osäkert hur stor del av dessa som skulle kunna undvikas om ytterligare insatser erbjuds. Det är också oklart hur de insatser som redan har sats in har påverkat övriga kostnader som kostnader för missbruk, kriminalitet, psykisk sjukdom och nedsatt arbetsförmåga.

En annan begränsning är att det är svårt att bedöma hur stor del av kostnaderna som faktiskt beror på FAS. I analysen har en grupp individer med FAS jämförts med en grupp ur den generella befolkningen, matchat för ålder, kön och födelseort. Det är emellertid möjligt att viss del av det stöd som getts till gruppen har behövts på grund av att barnen haft föräldrar som har missbrukat alkohol eller andra faktorer kopplade till föräldrarnas missbruk, och inte nödvändigtvis är kopplat till att barnen har FAS.

Sammanfattningsvis innebär de funktionshinder som förknippas med FAS betydande kostnader för individerna och samhället. En stor del av dessa kostnader består av insatser för att stötta barn och vuxna med FAS, utan vilka det är möjligt att kostnader inom andra områden, såsom missbruk, kriminalitet och psykisk sjukdom, skulle vara ännu större. Detta är i nuläget, med de studier som genomförts, inte möjligt att beskriva.

# 5 Resultat – Utvärdering av insatser till barn och familjer

I detta kapitel presenteras resultaten från:

- En systematisk översikt på effekter av insatser till barn och familjer
- En systematisk översikt på upplevelser och erfarenheter av insatser
- En diskussion om hälsoekonomiska aspekter.

# En systematisk översikt – insatser till barn och familjer

## Frågeställningar

- Vilka effekter har olika insatser för barn som uppfyller kriterier för tillstånd inom FASD och deras föräldrar?
- Vilka är de relevanta samhällsekonomiska aspekterna av insatser till individer som uppfyller kriterierna för dessa tillstånd?

Vi har valt att utvärdera insatser i ett vidare perspektiv, det vill säga inte enbart åtgärder som idag kan utföras via svenska rehabiliteringsteam. Alla studier om insatser som syftat till att kompensera för funktionsnedsättningar vid FASD har därför inkluderats. Insatserna kan vara inriktade mot att öka barnets förmågor och/eller att försöka underlätta genom att anpassa miljö och krav. En viktig del av insatserna är att förmedla kunskap till föräldrar och personal som träffar barnet i förskolan eller i skolan. Kunskapsinnehållet är både teoretiskt och praktiskt och handlar om funktionshindret samt om handhavande och bemötande av barnet. Barnet kan ha ett hem som är temporärt; i översikten ska tillgängliga uppgifter noteras om typen av föräldraskap, det vill säga om det rör sig om biologiska, adoptiv- eller familjehemsföräldrar.

Förutom pedagogiska, psykosociala och logopediska insatser har syftet varit att också utvärdera läkemedels- och andra medicinska interventioner till barnen samt föräldrar och familjestöd. Stöd till familjer bör finnas med som ett led vid alla insatser men kan också vara en separat insats från samhället. Frågan om familjestöd spänner över socialtjänst, hälso- och sjukvård och rehabilitering. Även skolan kan vara aktuell. I Sverige har olika föräldrastödsprogram riktade till föräldrar vars barn har ADHD, trotssyndrom eller annan utagerande problematik utvärderats. Den gemensamma nämnaren för dessa program är att de försöker lära ut strategier för att hantera barnets problem i vardagen [92–95], i något fall kombinerat med liknande insats till barnets lärare [96]. Programmen är i allmänhet anpassningar av interventioner som utvecklats i andra länder, företrädesvis USA. SBU har tidigare granskat en del av dessa program i rapporten ”Program för att förebygga psykisk ohälsa hos barn” [97].

Reid och medarbetare publicerade en översikt av interventioner vid FASD år 2015. Översikten inkluderar flertalet av de studier som beskrivs i vår rapport (12 av totalt 15 studier) dessutom diskuterar författarna ett antal artiklar som faller utanför inklusionskriterierna. Översikten av Reid och medarbetare skiljer sig från vad som granskas i vår rapport genom att den inte behandlar läkemedelsinterventioner eller upplevelser i kvalitativa studier [149].

## Resultat

Totalt identifierades 227 artiklar som granskades i fulltext. Efter relevansgranskningen bedömdes 15 artiklar kunna ingå. Alla inkluderade studier hade jämförelsegrupp men risken för systematiska fel (bias) var varierande (låg,

medelhög eller hög). Dessa studier var utförda av forskargrupper i USA och Kanada. I en av studierna rapporterades samarbete med kollegor i Sydafrika.

Av de 15 studier som vi inkluderat handlar en studie om stöd till familjehem för att undvika omplacering av barnet [98]. Övriga studier handlar om insatser som framför allt riktas till barn, men där också information till och samarbete med vårdnadshavare ingår. Metoderna kan ha som huvudinriktning att träna sociala färdigheter eller basala funktioner i hjärnan (neurokognitiva interventioner) eller också de olika färdigheter som krävs i skola och vardagsliv. De mer omfattande programmen inkluderar flera olika aspekter på träning.

Tre publikationer rör social färdighetsträning [99–101]. Två studier är inriktade på träning av så kallade exekutiva funktioner/neurokognitiv intervention [102,103]. Tre studier behandlar inläring av matematik samt strategier för att minska beteendeproblem och underlätta inläring [17,104,105], en studie tar upp språk- och lästräning [106], en studie rör träning för ökad säkerhet i vardagen [107] och en studie försöker hitta strategi för inläring av sifferserier [108]. En studie undersöker effekten av olika former av föräldrautbildning för att minska beteendeproblem [109]. Två nyligen publicerade pilotstudier ingår också i granskningen. Den ena beskriver ett program för att minska beteendeproblem och förbättra inläringssituationen [110]. Den andra studien har undersökt möjligheten att minska riskkonsumtion av alkohol hos ungdomar med FASD [111].

Under rubriken Utvärderade insatser och i Tabell 5.1 beskrivs de olika insatserna närmare liksom vilka resurser som krävs. I Bilaga 1 (Tabell 2 och 3) presenteras samtliga inkluderade studier där olika insatser jämförs med varandra eller mot att inte ha någon insats alls. En jämförelsegrupp kan till exempel vara individer som har placerats på väntelista. I flera studier saknas en fullgod randomisering av deltagarna, vilket ger hög risk för bias även om studierna för övrigt är väl genomförda. Bilaga 7 innehåller en kort beskrivning av frågeformulär och testinstrument för utfallsmåtten i studierna. Tabell 5.2 visar en narrativ sammanvägning och GRADE-bedömning av de undersökta interventionerna och i Bilaga 6 finns en mera utförlig presentation av de bedömningar som gjorts enligt GRADE.

Insats	Beskrivning och bakgrund	Resurser i aktuella studier
Extended support Ett utökat stöd för att förbättra stabiliteten vid placering i familjehem	Många barn med FASD bor inte hos sina biologiska föräldrar utan är placerade i familjehem. En stabil placering borde vara väsentlig för barnens trygghet och utveckling. Ett sätt att uppnå detta kan vara utökat stöd från socialtjänsten till familjehem, där barn som uppfyller kriterierna för FASD eller där man misstänker FASD, är placerade	Programmet Promising Practices fokuserar på screening och bedömning, remiss för diagnos, individuell planering, två dygns avlastning/månad, 12 timmars utbildning till familjehemsföräldrarna och socialarbetarkontakt [98]

**Tabell 5.1**  
Beskrivning och bakgrund till insatser samt behov av resurser för genomförandet. Gäller studier som utvärderat insatser till barn och familjer.

Tabellen fortsätter på nästa sida

Tabell 5.1  
fortsättning

Insats	Beskrivning och bakgrund	Resurser i aktuella studier
Children's Friendship Training (CFT)	En metod för social färdighets-träning, Children's Friendship Training (CFT, är utarbetad vid UCLA, Los Angeles, USA [112]). Den används för barn med ADHD [113] och barn med autismspektrumtillstånd [114]. Metoden bygger på träning i grupp för barnen parallellt med information och utbildning till föräldrarna, vilka också är tänkta föra kunskapen vidare i vardagen via olika hemuppgifter	Programmet CFT var utformat som 12 grupp-sammanskomster à 90 minuter under en tremånadersperiod och innehöll träning i sociala färdigheter. Varje grupp bestod av 7 till 8 barn som var i ålder 6 till 12 år. Föräldrarna deltog samtidigt, men separat, i sammankomster där de fick information om FASD och om de viktigaste sociala färdigheterna som deras barn tränades i [99–101]. Gruppledare/terapeuter var kliniska psykologer anknutna till universitet [91–92] alternativt terapeuter med varierande yrkestillhörighet på kommunala centra [90]; alla gruppledare fick undervisning om FASD förutom om metoden
The Alert Program for Self-Regulation/ Neurocognitive Habilitation	Ett flertal program finns utvecklade för träning av olika aspekter på exekutiva funktioner vid exempelvis ADHD. Ett exempel är programmet Alert för utveckling av självreglering (Alert Program for Self-Regulation) [115]. Barn får lära sig att uppfatta sin egen nivå av vakenhet och anspänning och sedan hitta strategier att själv reglera denna nivå efter vad som krävs i en viss situation	Programmet Alert för självkontroll gavs i en studie [93] individuellt vid 12 tillfällen à en timme under 14 veckor. Föräldrarna fick återkoppling under en timme med bland annat rekommendationer för fortsatt träning. Terapin gavs i ett speciellt inrett rum utan yttre distraherande stimuli. En senior forskarstudent ledde terapin och fick handledning varannan vecka av en kliniskt specialiserad psykolog som också såg vissa sessioner via video [102]  Neurocognitive habilitation är benämning på ett program som innehåller många komponenter från Alert. Det innefattade 12 sammankomster à 75 minuter en gång per vecka. Dessa gavs parallellt och gruppvis för barn och vårdnadshavare. Grupperna leddes av forskarstuderanden på olika nivåer [103]
Math interactive learning experience (MILE)  Anpassad undervisning i matematik samt psykoedukativa/ neurokognitiva insatser, exempelvis en strategi för att lära barn att reflektera över sin inläring kallad FAR (Focus and plan, Act, and Reflect)	Många barn med FASD har specifika svårigheter med inläring av matematik (dyskalkyli). I programmet MILE ingår matematikundervisning som är anpassad för att kompensera för de kognitiva svårigheterna vid FASD samt insatser för att minska beteendeproblem och andra faktorer som inverkar negativt på inlärningsförmågan. Information till och samarbete med vårdnadshavare är en viktig del i programmet	Barn i ålder 3 till 10 år som deltog i MILE, Math interactive learning experience, fick individualiserad matematikundervisning i 6 till 15 veckor. Vårdnadshavarna deltog i informationsmöten om FAS och om strategier för att stödja barnens inläring och vid behov kunna modifiera beteenden i positiv riktning. Instruktörer/lärare fick utbildning via manual [104,105,116]

Tabellen fortsätter på nästa sida



Tabell 5.1  
fortsättning

Insats	Beskrivning och bakgrund	Resurser i aktuella studier
Language and literacy training (LLT) Språk- och lästräning	Träning av fonologisk medvetenhet är ett viktigt inslag i ett program som har som målsättning att underlätta läsinlärning. Dessutom ingår träning som är riktad mot andra samtidiga språkproblem	Träningen ordnades i grupper om fem barn och gavs en halvtimme två gånger per vecka under 9 månader, totalt 38 timmar. Barnen var 9–10 år gamla. Träningen sköttes av erfaren logoped. Program med fokus på språklig terapi (19 timmar) varierades med träning av fonologisk medvetenhet och läsning (19 timmar) [106].
Datorbaserad träning för ökad säkerhet i vardagen	Personer med funktionsnedsättning och beteendeproblem har ökad risk för olyckshändelser. Barn med FASD kan ha nedsatt förmåga att lära in de färdigheter som krävs i vardagslivet, exempelvis för att undvika faror	Utveckling av två datorspel med "virtual reality"-metodik, ett för träning av brandsäkerhet och ett för hur man säkert ska gå över en gata. Barnen fick lära in korrekt beteende steg för steg genom att låta en tecknad hund, Buddy, agera i de olika situationerna [107]. Barnen fick först träna på att klara själva hanteringen av spelet och sedan spela självständigt, men under överinseende av försöksledare. I studien ingick att bedöma hur väl barnen sedan klarade att beskriva och visa sin kunskap
Strategi för inlärning av sifferserier	Under normal utveckling lär sig barn att använda olika strategier vid inlärning, exempelvis att repetera för sig själv. Repetitionsträning har visat sig vara framgångsrikt i grupper av barn med nedsatt arbetsminne	Försöksledaren läste upp en serie ental och barnen (4–11 år gamla) uppmanades att repetera dessa efter 10 sekunder. Interventionsgruppen instruerades att visa siffrorna för sig själv som repetition [108]
GoFAR, en vidareutveckling av programmet FAR (Focus and plan, Act, and Reflect, se MILE ovan); tre komponenter ingår – dataspel för inlärning av strategier, föräldraundervisning samt träning för barn och föräldrar tillsammans att använda strategierna i vardagen	I en nyligen publicerad pilotstudie presenteras de första delarna i programmet – träning av barn med hjälp av ett speciellt utvecklat datorprogram samt manual för föräldraundervisning [110]  GoFAR-spelet syftar till att hjälpa barnen att kontrollera uppmärksamhet och hantera problem med eftertanke genom att planera istället för agera på ett hastigt och impulsivt sätt. För jämförelse användes i studien ett dataspel, som utvecklats för barn med autismspektrum, Faceland	GoFAR gjordes alltid på samma sätt medan Faceland styrdes av vilket val av känsla barnet ville spela omkring  Go-FAR-spelet innehåller tre frågor med flera svarsalternativ. Barnet får veta om det gjort rätt val eller uppmantras att göra ett nytt val. Reflektion om hur det gått görs innan nästa steg. Det handlar om Miles, en rymdfigur, som ska mata sin katt via en plan. Efter en första träning får barnet hjälpa rymdfiguren hitta sitt försvunna rymdskepp och sitt husdjur. För varje del ska barnet göra en plan för hur hindren kan lösas. Svårighetsgraden kan varieras liksom miljön, t.ex. rymden eller i vatten  Faceland-spelet utgår från ett nöjesfält. Barnet får ledtrådar och frågor för att bedöma deras kunskap om de känslor som olika ansiktsuttryck förmedlar  Föräldraträningen bestod av fem tillfällen à en timme enskilt med psykologistuderande på olika nivåer under handledning. En särskild föräldrmanual gicks igenom med utgångspunkt i situationen för det aktuella barnet och dess familj

Tabellen fortsätter på nästa sida

**Tabell 5.1**  
fortsättning

Insats	Beskrivning och bakgrund	Resurser i aktuella studier
Project Step Up Intervention Programmet tidigare använt och validerat för att minska riskbeteende vad gäller alkohol hos barn utan utvecklingsavvikelse, modifierat för användning vid FASD	Det finns hållpunkter för ökad sårbarhet vad gäller alkoholrelaterade problem bland personer som exponerats för alkohol i fosterstadiet. Ungdomar med FASD är en viktig målgrupp för tidig intervention, oavsett om de börjat använda alkohol eller inte [111]	Ungdomar i ålder 13 till 18 år fick information i grupp under en timme vid sex tillfällen, en gång per vecka; de fick också tillgång till skriftligt material. Parallellt deltog föräldrarna i separata möten. Båda grupperna leddes av två terapeuter/gruppledare. Gruppledarna utbildades genom föreläsningar och gruppaktiviteter för att kunna arbeta med ungdomar med FASD. Handledare bedömde gruppledarnas arbete

FASD = Fetal alcohol spectrum disorder

**Tabell 5.2**  
Sammanfattande tabell av GRADE-bedömning (narrativ sammanvägning till följd av olika utfallsmått).

Åtgärd Referens	Diagnos/tillstånd (studier/deltagare)	Resultat	GRADE Underlag	Kommentar
Ökat stöd från socialtjänsten till familjehem [98]	FASD eller misstänkt FASD (1/182)	Antalet sammanbrott i placering minskade	Otillräckligt vetenskapligt underlag ⊕○○○	Risk för systematiska fel –2 Överförbarhet –1 (få deltagare/ inte representativt)
Children's Friendship Training (CFT) [99–101]	FAS, pFAS eller ARND (2/1 859)	Ökade sociala färdigheter	Otillräckligt vetenskapligt underlag ⊕○○○	Risk för systematiska fel –2 Precision –1 Överförbarhet –1 (få deltagare/ inte representativt)
Children's Friendship Training (CFT) [99]	pFAS eller ARND (1/85)	Förbättrad självbild	Otillräckligt vetenskapligt underlag ⊕○○○	Risk för systematiska fel –2 Överförbarhet –1 (få deltagare/ inte representativt)
Matematikundervisning MILE [104,105,116]	FAS eller pFAS (3/175)	Ökad kunskap i matematik	Begränsat vetenskapligt underlag ⊕⊕○○	Risk för systematiska fel –1 Överförbarhet –1 (få deltagare/ inte representativt)
Matematikundervisning MILE [104,105]	FAS eller pFAS (2/115)	Förbättring av beteendeproblemen	Begränsat vetenskapligt underlag ⊕⊕○○	Risk för systematiska fel –1 Överförbarhet –1 (få deltagare/ inte representativt)
Alert-programmet [102,103]	FASD (FAS, pFAS eller ARND) (2/103)	Ökad förmåga problemlösning, samspeletsituationer eller exekutiva funktioner	Otillräckligt vetenskapligt underlag ⊕○○○	Risk för systematiska fel –2 Överförbarhet –1 (få deltagare/ inte representativt)

Tabellen fortsätter på nästa sida

Tabell 5.2  
fortsättning

Åtgärd Referens	Diagnos/ tillstånd (studier/ deltagare)	Resultat	GRADE Underlag	Kommentar
Språk- och lästräning [106]	FAS eller pFAS (1/36)	Ökade färdigheter i språk-, läs- och stavningsförmåga	Otillräckligt vetenskapligt underlag ⊕○○○	Risk för systematiska fel –1 Överförbarhet –2 (mycket få deltagare/ inte representativt)
Datorbaserad träning [107]	FAS or pFAS (1/36)	Ökad kunskap om brand- och trafiksäkerhet	Otillräckligt vetenskapligt underlag ⊕○○○	Risk för systematiska fel –1 Överförbarhet –2 (mycket få deltagare/ inte representativt)
Minnesträning [108]	FASD inte specificerat (1/33)	Ökad förmåga att minnas siffror	Otillräckligt vetenskapligt underlag ⊕○○○	Risk för systematiska fel –2 Överförbarhet –2 (mycket få deltagare/ inte representativt)
StepUp-programmet (Intervention) (SUI) [111]	FAS, pFAS eller ARND (1/54)	Minskad riskkonsumtion av alkohol	Otillräckligt vetenskapligt underlag ⊕○○○	Risk för systematiska fel –2 Överförbarhet –1 (få deltagare/ inte representativt)
Olika föräldraträningsprogram (standard, workshop i grupp och via internet) [109]	FAS eller pFAS (eller de med betydande alkoholrelaterad dysmorfologi) (1/59)	Förbättring av beteendeproblem	Otillräckligt vetenskapligt underlag ⊕○○○	Risk för systematiska fel –2 Överförbarhet –2 (få deltagare/ inte representativt)
Föräldraträning och barn som fått interventionen GoFAR [110]	FASD (FAS, pFAS eller de med alkoholrelaterade fysiska egenskaper) (1/28)	Förbättring av beteendeproblem	Otillräckligt vetenskapligt underlag ⊕○○○	Risk för systematiska fel –2 Överförbarhet –2 (mycket få deltagare/ inte representativt)

**ARND** = Alcohol-related neurodevelopmental disorder; **FAS** = Fetal alcohol syndrome;  
**FASD** = Fetal alcohol spectrum disorder; **pFAS** = Partial fetal alcohol syndrome

## Vetenskapligt underlag för effekter av insatser till barn och familjer

Vår bedömning av det vetenskapliga underlaget från de 15 studierna visas i Tabell 2 och 3 (Bilaga 1). Där har en narrativ sammanvägning gjorts av studier där så är möjligt. Det handlar om relativt svagt vetenskapligt underlag, otillräckligt eller begränsat, vilket betyder att det finns en ganska hög grad av osäkerhet. Osäkerheten beror framför allt på det låga antalet deltagare och att det oftast bara finns en studie. Vidare har flera studier kort uppföljningstid, varierade sammansättning av studiegrupperna, små effektstorlekar samt utfallsmått som inte alltid är värderade vad gäller möjlig betydelse för individen, det vill säga om det är en betydelsefull förändring som påvisas eller inte. De

beräknade effekterna pekar emellertid i gynnsam riktning, det vill säga att interventionerna hjälper barnen.

## Utvärderade insatser

### Stöd till familjehem

En kanadensisk studie från 2013 av Pelech och medarbetare, med hög risk för systematiska fel, inkluderades [98]. I studien prövade man att öka stödet från socialtjänsten till familjehem där barn med fastställd eller misstänkt FASD är placerade [98]. I studien implementerades programmet ”Promising Practices” vilket bland annat innebar en ökad tillgång till kompetens som kan diagnostisera FASD, två dygns avlastning varje månad, 12 timmars utbildning inför placeringen för familjehemsföräldrarna, och en intensifierad kontakt mellan handläggare och familjehem. I studiepopulationen, som till 87 procent bestod av barn från den kanadensiska ursprungsbefolkningen, minskade sammanbrotten i placering med 47 procent under studietiden, dock med en liten statistisk effekt, medan sammanbrotten samtidigt ökade i den matchade jämförelsepopulationen. Man undersökte även faktorer som var särskilt förknippade med sammanbrott i placeringen och fann att en lägre frekvens av kontakt med socialarbetare var den mest inflytelserika faktorn. Interventionen är tillämplig i Sverige, men vi vet inte om resultatet skulle bli likadant här.

Vi fann inga studier som specifikt fokuserade på familjestöd riktade mot barnens problem eller föräldrarnas situation. Vår bedömning är att det finns ett otillräckligt vetenskapligt underlag för att avgöra om utökat familjestöd, genomtänkt program med täta kontakter mellan fosterföräldrar och socialarbetare, kan minska sammanbrott i placeringen (Tabell 5.2).

### Social färdighetsträning och förbättrad självbild

Tre inkluderade studier undersökte effekterna av Childrens Friendship Training (CFT) [99–101]. CFT är en metod som är utarbetad för barn med ADHD och/eller autismspektrumtillstånd [112]. Studierna bedömdes ha hög risk för systematiska fel [99–101]. En av studierna genomfördes ursprungligen i universitetsmiljö i Kalifornien, USA [100]. Etthundra barn i åldern 6–12 år uppfyllde inklusionskriterierna; 11 barn hade diagnos FAS, övriga hade annan diagnos inom FASD; alla hade IQ över 70. En grupp fick starta med CFT under 12 veckor, blev bedömda efter denna träningsperiod samt efter ytterligare 3 månader. En annan grupp placerades på väntelista för att sedan få samma behandling i 12 veckor. Utfallsmåtten var frågeformulär till barnen för att mäta sådana sociala färdigheter som ingått i träningen samt frågeformulär till föräldrar respektive lärare. Enligt föräldraskattning hade barnen som fått träning förbättrat sina sociala färdigheter och även fått minskat problembeteende jämfört med barnen på väntelista; vid uppföljning efter 3 månader var resultatet ytterligare förbättrat i träningsgruppen. Däremot framkom inga signifikanta skillnader mellan grupperna som fått respektive inte fått träning i frågeformulär till lärare. Författarna har som förklaring till det senare att träningen inte var riktad mot att förbättra barnens medverkan i klassrummet utan mera rörde aktiviteter på raster och fritid; ett alternativ är att föräldrarna överskattat framstegen.

Författarna tar själva upp att avsaknad av oberoende och objektiva mått på barnens förmågor är en klar brist i studien. En studie där CFT kombinerades med olika läkemedel visade förbättring avseende beteende bland barn som fått neuroleptika enligt föräldra- och lärarskattningar [117].

Samma forskargrupp visar i en senare publikation med samma utgångsmaterial att ett mått på fientlighet och irritationen mot jämnåriga minskade efter den sociala träningen [101]. I studier av olika barngrupper och i olika kulturer är det beskrivet ett samband mellan alltför stor benägenhet (bias) att tolka andra barns beteende som fientligt och risk för utveckling av aggressivt beteende [118]. Detta skulle kunna betyda att förmågan att tolka och bearbeta social information kan förbättras också under kort period med strukturerad träning, men att träningsprogrammet behöver specifikt inkludera just de områden där man vill se effekt.

O'Connor och medarbetare presenterade 2012 en RCT-studie med CFT lokaliserad till ett kommunalt centrum för barn- och familjerådgivning [99]. Deltagare var barn i ålder sex till tolv år utan (n=53) och med exposition för alkohol under fosterstadiet (n=32); alla hade IQ över 70; en hög andel av barnen hade visat utagerande beteendeproblem (i båda grupperna). Dessa barn indelades i en studiegrupp som fick social träning i grupp enligt CFT-manual och i en grupp som fick mer traditionell undervisning i sociala färdigheter i grupp. Skillnaden var uppbyggnaden av träningen där man vid CFT anser att metoden är specifikt inriktad på de förmågor som man empiriskt kommer fram till krävs för att utveckla vänskap samt att föräldrar till barn som deltog i CFT parallellt fick undervisning i grupp; föräldrarna var där direkt inkopplade i försök att skapa sociala nätverk i barnens vardagsmiljö. De terapeuter som skulle leda barngrupper i CFT fick dels undervisning om FASD, dels om metodiken. Utfallsmått var till stor del de samma som användes i de tidigare studierna. Frågeformulär till barnen om socialt samspel visade signifikant större förbättring för barnen som fått CFT jämfört med barnen i andra gruppen. Dessutom användes ett självskattningsformulär som mått på barnens självbild. Det framkom att självbilden blivit signifikant mera positiv i gruppen som fått CFT jämfört med en mera blygsam förändring i kontrollgruppen. Det finns ingen beskrivning av hur stor effekten kunde beräknas vara i vardagslivet. En målsättning för studien var att bedöma om barn som uppfyller kriterier för FASD svarade på annorlunda sätt på träningen än barn med jämförbara problem men utan FASD; någon sådan skillnad kunde inte noteras. Författarna drar slutsatserna att barn kan få social färdighetsträning vid centra i samhället utanför en universitetsanknuten forskningsklinik förutsatt att terapeuter får utbildning. Det går sedan att integrera barn som uppfyller kriterier för FASD i träningsgrupper bland barn med andra diagnoser.

En positiv aspekt i rapporten från O'Connor och medarbetare är att metodiken kunde utföras utanför universitetsmiljön till centra närmare familjerna (ungefär motsvarande habiliteringscentra eller barnpsykiatriska mottagningar i vårt land) med bibehållen god effekt. Det förutsatte att terapeuter/handledare fått utbildning om FASD [99]. Ett genomgående drag i studierna är att man lyfter fram betydelsen av information till och insatser från föräldrarna parallellt med intervention riktad till barnet.

Vår bedömning är att det finns ett otillräckligt vetenskapligt underlag för att avgöra om social färdighetsträning kan leda till ökad av kunskap om social kompetens eller ge förbättrad självbild hos individer med FASD (Tabell 5.2).

## Neurokognitiva interventioner

Två studier, en med medelhög risk för systematiska fel och en med hög risk för systematiska fel, undersöker effekten av Alertprogrammet (Alert Program for Self-Regulation) [102,103]. Exekutiva funktioner (EF) är en sammanfattande benämning för de förmågor som krävs för att hjärnan ska kunna arbeta på ett effektivt sätt och utnyttja övrig kapacitet för till exempel inläring. EF innefattar bland annat förmåga till uppmärksamhet, impuls kontroll, arbetsminne och planering samt möjligheten att själv reglera sin aktivitetsnivå och sitt känsloläge. Svårigheter med självreglering kan finnas från låg ålder och kan under uppväxten ge svårigheter med socialt samspel och risk för utveckling av beteendeproblem. Bristande förmåga till självreglering anses vara en vanligt förekommande och central funktionsnedsättning vid FASD [102,119].

En av grupperna, Wells och medarbetare verksamma i Chicago, har skapat ett omfattande program för vad de kallar neurokognitiv rehabilitering och där integrerat interventioner som används vid traumatisk hjärnskada med komponenter från programmet Alert [103]. En randomiserad studie publicerades 2012 av barn med FASD i ålder sex till tolv år (n=78, varav n=21 med FAS). En interventionsgrupp fick delta direkt i träning en gång per vecka under 12 veckor, en jämförelsegrupp var placerad på väntelista. Det var ingen skillnad mellan interventions- och jämförelsegrupp vad gäller diagnoser inom FASD eller annan samtidig diagnos (cirka 70 procent hade diagnos ADHD). Aktiviteterna under gruppernas möten följde en manual. Föräldragrupper fick parallellt information om FAS och ARND och om träningsmetodik. Föräldrarna deltog också under den avslutande delen av varje tillfälle då barnen hade aktiviteter för att ge dessa möjlighet att visa och träna vad de lärt. Målsättningen var att barn och föräldrar skulle lära sig se tidiga tecken på oro och hitta strategier för att lösa problem. Utvärdering gjordes två till tre månader efter att första gruppen avslutat träningen. Utfallsmåtten var dels föräldraskattning av exekutiva funktioner och dels att barnen fick besvara frågor angående problemlösning och samspelssituationer. Författarna anger positiva förändringar efter interventionen, framför allt att barnen efter träning inte lika ofta sökte lätta eller orealistiska lösningar på problem.

Även Nash och medarbetare har i Toronto, Kanada, använt och anpassat programmet Alert för att hjälpa barn till bättre självkontroll [102]. Tjugonio barn med FASD i ålder åtta till tolv år placerades i en grupp som fick träning direkt och i en jämförelsegrupp på väntelista. Interventionen bestod av individualiserad träning en timma per vecka vid tolv tillfällen under en 14-veckorsperiod. Utvärdering skedde genom bedömning före och strax efter interventionsperioden samt som frågeformulär till föräldrar efter ytterligare sex månader. Förutom föräldraskattningar använde Nash och medarbetare också direkta, objektiva mått på barnens självkontroll och sociala samspel [120]. Vid uppföljning beskriver föräldrarna signifikanta framsteg i interventionsgruppen vad gäller att kontroll-

era beteende och känslor. Möjligheten att se resultat från studien begränsas av det låga antalet deltagare.

Vår bedömning är att det finns ett otillräckligt vetenskapligt underlag för att avgöra om Alert-programmet kan leda till förbättring av problemlösning, samspelsituationer eller exekutiva funktioner (Tabell 5.2).

## **Träning av färdigheter för skola och vardagsliv/pedagogiska insatser**

### Matematikundervisning

FASD kan leda till inlärningssvårigheter som led i generellt begränsad begåvning, men det finns också många barn med FASD som har specifika inlärningsproblem, till exempel vad gäller matematik (dyskalkyli). Bakgrunden kan vara begränsad förmåga att bearbeta information av visuell och spatial form (vilket krävs för att arbeta med symboler) i kombination med brister i exekutiva funktioner (som arbetsminne, koncentrationsförmåga och självkontroll).

Tre inkluderade studier med medelhög risk för systematiska fel har undersökt effekten av Math Interactive Learning Experience (MILE) [104,105,116]. Studierna kommer från en forskargrupp i Atlanta, USA. Undervisningen i matematik är anpassad efter och försöker kompensera för andra kognitiva svårigheter. För de yngsta barnen tränas de basala färdigheterna som utgör basen för senare matematikkunskap. Matematikundervisningen är en del i ett omfattande program av insatser, som inkluderar att lära barnen att själva reflektera över sin inläring (Focus and plan, Act, and Reflect; FAR) och att ge föräldrarna strategier för att minska beteendeproblem hos barnen.

I en RCT användes MILE på barn med FASD i åldern 3–10 år; n=61 (totalt n=61 vid randomisering) (Bilaga 1 Tabell 2) [105]. Efter randomisering fick en grupp träning under 6 veckor medan barn i jämförelsegrupp fick sedvanlig skolundervisning. För att påvisa effekt av träningen användes en rad olika standardiserade mått på matematikkunskaper med variation efter barnens ålder. Alla tester utfördes av personer som var ovetande om till vilken grupp respektive barn hörde. Förbättrade matematikkunskaper kunde noteras i båda grupperna, men med signifikant skillnad till förmån för gruppen som fått extra träning enligt MILE. För varje använt test angavs vilken förbättring som hade praktisk betydelse (definierat som skillnad i utfallsmått på över en standarddeviation). I träningsgruppen fanns en sådan förbättring på minst ett av fyra test hos 58,6 procent av barnen, i jämförelsegruppen hos 23,1 procent.

Barn som var randomiserade till MILE fick individualiserad undervisning och deras föräldrar fick instruktioner om hur man kunde arbeta med matematikuppgifter i hemmet. Dessutom ingick flera andra komponenter i programmet, sammanfattat som insatser för att ge bästa möjliga inlärningssituation ("learning readiness"; exempelvis insatser för att minska beteende- och hälsoproblem hos barnet). Alla föräldrar, även de med barn i jämförelsegruppen, fick undervisning om FASD och om insatser som samhället kan erbjuda samt om metoder att

påverka barnens beteende. Föräldraskattningar visade att beteendeproblemen hade minskat signifikant under projektiden.

Coles och medarbetare har 2009 beskrivit uppföljning av ovanstående studie [104]. Av de 61 barn som från början deltog i randomisering för MILE-studien publicerad 2007, var 54 barn tillgängliga för uppföljning. Denna studie kom att göras sex månader efter avslutad MILE-intervention. Gruppen som fått extra träning fortsatte att ha signifikant bättre resultat än jämförelsegruppen. Praktiskt och kliniskt betydelsefullt framsteg fanns hos 68,4 procent i MILE-gruppen jämfört med 38,5 procent i jämförelsegruppen.

I ytterligare en studie har Kable och medarbetare arbetat vidare med metoden MILE för att visa att metoden kan användas effektivt också i barnens vanliga skolmiljö [116].

Vår bedömning är att det finns ett begränsat vetenskapligt underlag för att matematikundervisning med MILE leder till ökade kunskaper i matematik (Tabell 5.2).

### Språk- och läsundervisning

En studie med medelhög risk för bias beskriver språk- och läsundervisning (Bilaga 2, Tabell 2) [106]. Undersökningen var ett samarbete mellan universitet i Kapstaden, Sydafrika, och ett universitet i New Mexico, USA. Denna rapport ingår i ett större projekt och beskrivs som en pilotstudie med randomisering av 40 barn som uppfyller kriterier för FASD (27 barn med diagnos FAS) till en grupp som fick specifik språk- och läsundervisning (n=18) som kunde utvärderas) och en grupp som fick sedvanlig skolundervisning (n=18). Dessutom fanns en jämförelsegrupp utan FASD (n=23), barn som kom från samma område i Sydafrika och som bedömdes ha en likartade socioekonomisk situation. Barnen var i åldern nio till tio år. Programmet var strukturerat med fokus på träning av fonologisk medvetenhet och annan kunskap nödvändig för läsinlärning. Barnen testades av personer som inte kände till barnens grupptillhörighet, dels vid start av intervention och dels efter 9 månader. Utfallsmått var tester av fonologisk medvetenhet och tidig läsförmåga samt olika kunskapsmått på läsning och stavning samt addition och subtraktion (som hade anpassats för språk och ålder på barnen). Alla grupperna visade förbättrade resultat under studietiden. För den FASD-grupp som fått ta del av specifik träning blev resultaten vid andra teststillfället signifikant bättre på vissa deltester, men inte generellt vad gäller läsning/stavning/aritmetik. Författarna tolkar resultaten som att barn som uppfyller kriterier för FASD kan förbättra sina färdigheter efter riktad kognitiv intervention.

Vår bedömning är att det finns ett otillräckligt vetenskapligt underlag för att avgöra om undervisning i språk- och läsförmåga leder till förbättringar i språk- och läsförmåga (Tabell 5.2).

### Träning för ökad säkerhet i vardagen

Coles och medarbetare från Atlanta och Raleigh, USA, rapporterade 2007 om användning av datorbaserad träning i form av spel med så kallad virtual reality



för att lära ut kunskap om brand- och trafiksäkerhet [107]. Studien bedöms ha medelhög risk för systematiska fel. Bakgrunden till studien är att risken för olyckshändelser är ökad i grupper med funktionsnedsättning och beteendeproblem. Vid exempelvis FAS kan det också behövas mer intensiva insatser och multimodal metodik vid inläring (till exempel möjligheten att använda syn, hörsel och motorik). Trettiofyra barn i ålder fyra till tio år med tillstånd inom FASD (varav 19 barn med FAS) samt IQ mer än 50 deltog. Varje enskilt barn ingick i experimentgruppen för ena typen av träning och i kontrollgruppen för den andra interventionen. Barnens kunskaper testades före och efter träning samt vid uppföljning efter en vecka. Barnens kunskap hade ökat signifikant i gruppen som tränats i en situation jämfört med de som inte fått samma typ av träning. Barnen visade också förmåga att kunna generalisera till en mer verklighetsnära situation (Bilaga 1, Tabell 2).

Vår bedömning är att det finns ett otillräckligt vetenskapligt underlag för att avgöra om datorbaserad träning om brand- och trafiksäkerhet ger ökad kunskap om brand- och trafiksäkerhet (Tabell 5.2).

### **Strategi för inläring av sifferserier**

Loomes och medarbetare beskrev 2008 minnesträning för barn med FASD enligt en metod skapad av forskargrupp från Edmonton och Victoria, Kanada [108]. Studien bedöms ha hög risk för bias. Metoden syftar till att förbättra inläringssituationen för barn som har bristande arbetsminne. Trettiofyra barn som uppfyllde kriterier för FASD (19 pojkar och 14 flickor) i åldern 4 till 12 år blev uppdelade i två grupper, så långt det var möjligt matchade för ålder och kön. Alla fick delta i ett minnestest av sifferserier för att få en utgångsnivå. Testning med nya sifferserier gjordes dels efter kort rast och dels efter i medeltal 11 dagar. En grupp fick instruktioner i hur man kunde repetera siffrorna för sig själv, en jämförelsegrupp fick inte några instruktioner. Grupperna hade samma resultat vid start men sedan signifikant bättre resultat för den grupp som blivit instruerad. Författarna bedömer att detta är ett exempel på en strategi som underlättar inläringen för barn med FASD. Förhoppningen är att strategier för att kompensera för svårigheter med arbetsminnet också kan göra att barnen klarar av matematikundervisningen bättre.

Vår bedömning är att det finns ett otillräckligt vetenskapligt underlag för att avgöra om träning för att minnas nummer och siffror kan förbättra inläringssituationen för barn som har bristande arbetsminne (Tabell 5.2).

### **Olika former av föräldraträning för att öka föräldrarnas kunskapsnivå samt minska beteendeproblem**

I en studie av Kable och medarbetare jämfördes hur olika former av föräldrabildning påverkade föräldrarnas kunskapsnivå samt förbättrade barnens beteende [109]. Risken för systematiska fel bedömdes som hög i denna studie på grund av högt bortfall i en av de studerade grupperna i kombination med lågt deltagarantal. Författarna jämförde internetbaserad undervisning med ett sedan tidigare standardiserat utbildningspaket och med grupputbildning (workshops). Alla undervisningsformerna ökade föräldrarnas kunskap om FAS

och om tillgängliga stödinsatser. Indikation finns på att undervisning i grupp och det standardiserade utbildningspaketet även medförde förbättringar i barnens beteenden (föräldrarnas bedömning). Författarna sammanfattar att bästa val av föräldrautbildning styrs av målsättningen och av graden av beteendesvårighet och mål.

Vår bedömning är att det finns ett otillräckligt vetenskapligt underlag för att avgöra om föräldraträning leder till minskade beteendeproblem (Tabell 5.2).

### **Pilotstudie av intervention med programmet GoFAR för att minska beteendeproblem och förbättra inlärningssituationen**

Coles och medarbetare, en forskargrupp i Atlanta, USA, har publicerat en pilotstudie med hög risk för systematiska fel. De har tidigare presenterat metoder att förbättra inlärningssituationen för barn med FASD, se ovan angående matematikundervisning [95,96,103] och träning för att öka säkerheten i vardagen [98]. Gruppen arbetar vidare med strategier för att lära barnen att själva reglera sitt beteende kopplat till undervisning av deras föräldrar för att dessa på bästa sätt ska stödja barnen i att utveckla färdigheter i vardagen. I programmet GoFAR (där FAR står för Focus and plan, Act and Reflect) ingår bland annat ett dataspel. I en nyligen publicerad pilotstudie presenteras träning av barnen med hjälp av detta dataspel samt manual för föräldraundervisning [110]. I nästa fas kommer man att studera en större grupp samt beskriva hur barn och föräldrar gemensamt kan arbeta för att minska barnens beteendeproblem och underlätta deras inlärning. Likheter finns med programmen för träning av självkontroll som har beskrivits tidigare under rubriken Neurokognitiva interventioner [93,94].

Vår bedömning är att det finns ett otillräckligt vetenskapligt underlag för att avgöra om föräldrars och barns samtidiga träning enligt GoFAR-program leder till minskade beteendeproblem (Tabell 5.2).

### **Pilotstudie av intervention för minskat alkoholriskbeteende**

Personer med FASD riskerar att hamna i alkoholberoende enligt rapporter i litteraturen [25]). En pilotstudie om programmet Project Step Up Intervention för att minska risken för alkoholrelaterade problem har publicerats av O'Connor och medarbetare, Los Angeles, USA [111]. Studien har hög risk för systematiska fel. Information förmedlas i grupp till tonåringar med FASD och parallellt till deras föräldrar. De preliminära resultaten är positiva vad gäller att förebygga beroende. O'Connor och medarbetare har tidigare rapporterat om social färdighetsträning av barn med FASD [101,102].

Vår bedömning är att det finns ett otillräckligt vetenskapligt underlag för att avgöra om programmet Project Step Up Intervention kan minska riskbeteende vad gäller alkohol (Tabell 5.2).

## Effekter av läkemedelsbehandling vid ADHD

En andel av barnen med FASD har så tydliga svårigheter med uppmärksamhet och med att reglera aktivitetsnivå och impulser att de får diagnosen ADHD och för dem kan det vara aktuellt att pröva läkemedelsbehandling. Det har dock funnits funderingar kring huruvida barn som uppfyller kriterier för FASD har en annorlunda effekt av de läkemedel som används vid ADHD än övriga barn med ADHD [121].

Utifrån litteratursökningen och tidigare referenser [122–125] identifierades endast en studie som utvärderat effekten av ADHD-läkemedel jämfört med kontroll för barn som uppfyller kriterier för FASD och ADHD [122]. Detta var dock en pilotstudie med endast 4 individer och inkluderades därför inte. Inga studier identifierades som jämförde medicinering mot ADHD för barn som uppfyller kriterier för FASD jämfört med de utan FASD.

Vår bedömning är att det finns ett otillräckligt vetenskapligt underlag för att avgöra effekten av läkemedelsbehandling mot ADHD hos barn som uppfyller kriterier för FASD och ADHD.

Vår bedömning är att det finns ett otillräckligt vetenskapligt underlag för att avgöra om effekten av läkemedelsbehandling mot ADHD skiljer sig hos barn som uppfyller kriterier för FASD och ADHD jämfört med barn som inte uppfyller kriterier för ADHD.

Ytterligare områden som berörs vid aktuell forskning om insatser

Gruppen i Toronto, Kanada, som studerat effekten av träning av exekutiva funktioner har publicerat ytterligare en artikel om träning med Alert-metodik [126]. Efter randomisering fick en grupp med FASD direkt ta del av träning med Alert-metodik (n=18 varav 13 fullföljde) och en grupp var placerad på väntelista (n=20 varav 16 kunde analyseras), dessutom fanns en jämförelsegrupp utan utvecklingsavvikelse (n=27 varav 19 kunde analyseras). Det är oklart i hur hög grad den studerade gruppen med FASD överlappade med den grupp som beskrivs i tidigare artikel [102]. Vi tar därför inte upp resultaten vad gäller beteendeförändring som en separat rapport. Avsikten med denna studie var också att bedöma om avbildning av hjärnan med magnetresonans (MRI) kunde påvisa någon förändring efter träning. MR-undersökning gjordes på alla barn före och efter den period då ena gruppen fick aktiv träning. Den initiala undersökningen visade tydliga skillnader mellan grupperna i mängden grå substans (nervceller) i vissa områden i hjärnan. De båda grupperna med FASD hade mindre volym grå substans jämfört med gruppen utan FASD. Vid uppföljning efter träning hade interventionsgruppen fått ökad volym jämfört med FASD-kontrollerna. Då författarna korrigerat för multipla jämförelser kvarstod inte någon signifikant effekt. Detta är således resultat som måste verifieras med nya studier.

Nutritionen till blivande mödrar har väsentlig betydelse för fostrets utveckling. Ett forskningsfält är nu under uppbyggnad kring möjligheterna att minska skadeeffekterna av alkohol genom förändrad näringstillförsel till barn och mödrar. Ett ämne som med stöd i djurstudier har väckt särskilt intresse är

aminozyran cholin, en nödvändig byggsten i hjärnans membraner och för att bilda signalsubstanser med mera. Wozniak och medarbetare har studerat tillförsel av cholin i en randomiserad studie och funnit god tolererbarhet och begränsade bieffekter [127]. Gruppen har senare publicerat resultat av nio månaders daglig behandling med cholin. Sextiofem barn deltog vid randomisering där 26 barn som fått cholin och 25 som fått placebo kunde medverka vid analys [128]. Interventionen gav ingen skillnad mellan grupperna vid testning av den generella utvecklingsnivån, som var det primära utfallsmåttet; bara tveksamt positiv effekt för de yngsta barnen på ett mått på preverbalt minne (tidig minnesförmåga).

Coles och medarbetare har genomfört ett samarbetsprojekt mellan forskare i USA och i Ukraina [129]. Blivande mödrar rekryterades prospektivt. Vissa kvinnor hade moderat till tungt missbruk av alkohol (n=301), andra använde lite eller ingen alkohol (n=313). De gravida kvinnorna blev efter randomisering indelade i 3 grupper: en grupp som inte fick kosttillskott, en grupp fick substitution med multivitamin- och mineralpreparat och den tredje gruppen fick multivitamin- och mineralpreparat samt också cholin. På 405 barn gjordes en utvecklingsbedömning vid 6 månaders ålder, 367 kunde inkluderas i studien. Studien beskrev en liten men signifikant positiv effekt av behandling med kosttillskott, men inte specifikt bättre av cholin jämfört med enbart multivitamin- och mineraltillskott.

## Sammanfattning av resultat och kunskapsluckor

Genomgången av studier om insatser vid FASD visar att det finns forskargrupper som arbetar ambitiöst med intervention för barn och familjer. Ett flertal metoder är representerade, till exempel social färdighetsträning, pedagogiska interventioner för att stödja matematisk förmåga och läs- och språkförmåga, liksom träning för att öka säkerheten i vardagen. Resultaten pekar i positiv riktning, det vill säga att det är möjligt att med viss framgång förbättra situationen för barnen. Ett sådant exempel är arbete enligt programmet MILE med matematikundervisning kombinerat med strategier för att underlätta barnets inläring och minska beteendeproblem [105].

Det går inte att dra några säkra slutsatser om effektiviteten av de olika interventionerna eftersom det rör sig om enstaka eller få studier inom varje område och med få deltagare. Långtidsstudier saknas. Etiska ställningstaganden förhindrar att en viss grupp barn ställs utanför insatser eller får en alltför lång period på väntelista. En lösning vore att jämföra två behandlingsprogram på längre sikt, men det är svårt att då särskilja vad som är naturlig utveckling under viss tid från effekten av träning. Vi har inte identifierat några studier där man kan särskilja effekten av en åtgärd vid de olika tillstånden inom FASD (FAS, pFAS, ND-PAE/ARND eller ARBD). De studier som presenteras berör grupper som är sammansatta av barn med FAS och varierande andra tillstånd inom FASD-paraplyet.

Ofta är det svårt att bedöma om en uppmätt förändring i ett utfallsmått innebär någon tydlig förändring i barnets liv. Förhoppningarna är att även en blygsam effekt inom ett område kan ha en överlappande positiv effekt

på barnets situation i sin helhet. De utfallsmått som används är knutna till respektive intervention. Vid pedagogiska insatser kan utfallet mätas med standardiserade tester. I andra studier saknas objektiva mått; exempelvis kan slutsatser bygga på föräldraskattningar av barnens beteende där risken finns att föräldraengagemang under studien påverkar bedömningen. Förmedling av kunskap till föräldrar och lärare lyfts fram som ett viktigt led i flera studier. Vid social färdighetsträning engageras till exempel föräldrarna i att genomföra positiva förändringar i vardagen. Genomgående saknas ett standardiserat mått som beskriver välbefinnande och social situation före och efter en intervention (som till exempel ett mått på välbefinnande/livskvalitet eller klassificering enligt ICF-CY [130]).

De kunskapsluckor som beskrivs ovan (svårigheter med långtidsuppföljning till exempel) är inte specifika för FASD-området utan är ett vanligt fynd vid systematisk genomgång av interventioner vid utvecklingsavvikelser (som ADHD och autism). De eventuella negativa konsekvenserna av de olika interventionerna är dåligt belysta. För insatser som ägde rum på forskningscentra utgjorde resvägen ett praktiskt problem. I någon studie anges bortfall av enstaka deltagare som inte kunde medverka på grund av beteendeproblem, men det framkommer inte om detta hade något samband med interventionen som sådan. Litteraturgenomgången kan inte besvara frågan om insatserna har olika effekt beroende på om ett barn vårdas av biologiska föräldrar, adoptiv- eller familjehemsföräldrar.

Det finns inga studier som visar om barn som uppfyller kriterier för FASD och specificerad annan diagnos som ADHD, intellektuell funktionsnedsättning eller autism får annorlunda effekt av en viss insats än de barn som bara har den speciella diagnosen utan att ha FASD. Det är dessutom bara i undantagsfall som det redovisas vilka barn i en FASD-grupp som har annan diagnos.

I flera studier är det ett exklusionskriterium om barnen har intellektuell funktionsnedsättning. Frågor kring medicinering mot ADHD hos barn som uppfyller kriterier för FASD utgör också kunskapsluckor. Fyra studier som beskriver effekten av läkemedelsbehandling mot ADHD hos barn som uppfyller kriterier för FASD är baserade på få individer; några slutsatser kan inte dras. Det finns inga studier som jämför effekten av medicinering mot ADHD hos individer med FASD respektive utan FASD.

# En systematisk översikt – Upplevelser och erfarenheter av insatser till barn och familjer

- Vilka upplevelser och erfarenheter har barn som uppfyller kriterier för FASD och deras föräldrar av stödinsatser?

För att besvara ovanstående fråga gjordes en systematisk granskning av studier med en kvalitativ metodik (se även den systematiska översikten på kvalitativa studier i Kapitel 4). Totalt identifierades 48 publicerade artiklar som granskades i fulltext. Av dessa beskriver en studie från Kanada föräldrars upplevelser av en insats, efter att de fått avlösarservice (respite care) (Tabell 5.3). Studien inkluderar tio föräldrar till barn som huvudsakligen hade misstänkt eller verifierad FASD [131].

## Erfarenheter och upplevelser av avlösarservice

Under detta tredjenivåtema finns ett andranivåtema för vilket vi har mycket låg tillförlitlighet: *Föräldrar uppfattar avlösarservice som fördelaktigt för familjen, men upplever svårigheter att få avlösarservice samt brister i samordningen* [131]. I temat beskrivs stödjande interventioner till barn som uppfyller kriterier för FASD eller deras föräldrar. Föräldrar beskriver avlösning som något gott för familjen, men erfar svårigheter i att få insatsen och avsaknad av samordning i systemet (Bilaga 2, Tabell 13–15).

Vi bedömde att vi har mycket låg tillförlitlighet för detta tema. Orsaken till den stora osäkerheten var framför allt mängden information då temat är baserat på endast en studie. En viss osäkerhet beror även på huruvida det finns kontextuella faktorer såsom att formerna för insatsen och hur den beviljas kan skilja sig mellan Sverige och Kanada.

**Tabell 5.3**  
Parental experiences  
from respite care  
interventions.  
GRADE – CERQual.  
Summary of qualitative  
evidence table.

Review finding	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	Studies contributing to the review finding
Parents experience respite care as beneficial for the family, but have seen recurrent difficulties in receiving it and also a deficiency in system coordination  Parents experience respite as preventing a break down. They put big effort in order to find ways to identify possibilities to receive the service	Very low confidence	One study with serious concerns regarding adequacy and moderate concerns regarding relevance	[131]

# Samhällsekonomiska aspekter av insatser till barn och familjer

- Vilka är de relevanta samhällsekonomiska aspekterna av insatser till individer som uppfyller kriterierna för dessa tillstånd?

I den systematiska översikten har inga studier som utvärderat kostnadseffektiviteten av insatser för barn med FAS eller FASD identifierats. Nedan förs en hälsoekonomisk diskussion om de insatser som har utvärderats.

För att utvärdera kostnadseffektiviteten av insatser behövs i första hand kunskap om insatsernas effekt på barnens och familjernas livssituation samt vad insatserna innebär för kostnader på längre sikt. Det vetenskapliga underlaget för effekten av insatser har tidigare i rapporten bedömts som otillräckligt eller begränsat, vilket betyder att, även om underlaget för insatsernas effekt pekar i en positiv riktning, finns det en hög grad av osäkerhet när det gäller insatsernas effekt.

I de effektstudier som har publicerats används utfallsmått som till exempel social färdighet eller matematikkunskaper. Eftersom problem att förstå och använda matematik anses kunna bero på nedsatt visuell-spatial förmåga och nedsatt arbetsminne finns en förhoppning att andra kognitiva funktioner också ska kunna förbättras genom att träna just matematisk förmåga. Det är möjligt, kanske till och med troligt, att insatser med en positiv effekt på social färdighet och matematikkunskaper både kan leda till ökad funktionsförmåga och kostnadsbesparingar på längre sikt, men det är i dagsläget svårt att avgöra vad dessa insatser innebär för individen och familjen och hur stora förbättringar som krävs för att det ska göra skillnad i individernas liv. Utan att veta hur insatserna påverkar individernas välbefinnande blir det svårt att uttala sig om vilken kostnad som är rimlig att acceptera.

I ekonomiska utvärderingar inom hälso- och sjukvårdsområdet mäts ofta effekten i så kallade kvalitetsjusterade levnadsår (QALY), vilket är ett sammansatt mått på hur insatser påverkar individens livskvalitet och överlevnad. Resultatet från analysen presenteras då som kostnader per vunnen QALY och kan tolkas utifrån riktlinjer för vad som är en låg, måttlig, hög och mycket hög kostnad per QALY [132]. På så sätt underlättas bedömningen av huruvida insatser som har en positiv effekt men högre kostnader jämfört med alternativet är kostnadseffektiva, det vill säga om de ökade kostnaderna är rimliga i relation till effekten.

För att göra denna typ av bedömningar behövs studier som visar hur insatserna påverkar mer individnära mått som individernas livskvalitet eller välbefinnande (well-being). En svårighet med det är att de enskilda insatserna kanske inte har tillräckligt stor effekt för att påverka individernas välbefinnande, men att de ofta används i kombination med andra insatser och då kan ha en viktig roll i hur individerna mår. Eftersom insatsernas mer långsiktiga effekter dessutom kan komma först långt senare i livet kan dessa vara svåra att mäta inom mer kortsiktiga interventionsstudier. Ett alternativ kan då vara att fastställa sam-

banden mellan de färdigheter som mäts i interventionsstudier och mer långsiktiga utfallsmått genom hänvisning till andra typer av studier.

Det rekommenderas att hälsoekonomiska analyser som ska användas för beslut i en svensk kontext görs ur ett svenskt samhällsperspektiv. Det innebär att inte bara hälso- och sjukvårdens och socialtjänstens kostnader beaktas utan att även kostnader för resor, frånvaro från arbete och värdet av individernas eller anhörigas fritid tas med i analysen [133]. Från studiernas beskrivningar av insatserna är det möjligt att ge en översiktlig bild av de resurser som krävs (Tabell 5.1). Till exempel innebär matematikundervisning, enligt formatet MILE, 6 till 15 veckors extra matematikundervisning samt workshops för att stötta föräldrarna i hur de kan hjälpa barnen med matematikträning i hemmet. Däremot är det svårt att uttala sig om hur insatserna påverkar samhällets kostnader på längre sikt eftersom vi vet för lite om insatsernas effekt på andra kostnader och vad effekten innebär på längre sikt. Det kan till exempel gälla hur insatserna påverkar kostnader för kriminalitet, missbruk och sjukfrånvaro (Kapitel 4). Eftersom vi varken vet hur insatserna påverkar individernas välbefinnande eller hur de påverkar framtida kostnader går det inte att göra en bedömning av insatsernas kostnadseffektivitet i dagsläget.

För att samhällets resurser ska kunna användas på ett så kostnadseffektivt sätt som möjligt är det viktigt att de insatser som erbjuds visas ha en positiv effekt när det gäller att stötta barnen och deras familjer och att insatsernas effekt och kostnader jämförs med relevanta jämförelsealternativ. Eftersom samhällets resurser är begränsade bör varje satsning på en insats som kräver ökad resursanvändning vägas mot andra insatser för individerna eftersom det alltid finns en så kallad alternativkostnad, det vill säga den effekt på individernas välbefinnande som hade kunnat uppnås genom att använda resurserna på något annat sätt.



# 6 **Upplevelser och erfarenheter ur ett svenskt perspektiv – svar från FAS-föreningen**

För att få en tydligare bild av vad som är viktigt att betona för individer som uppfyller kriterier för FAS/FASD och deras närstående i en svensk kontext ställdes frågor till FAS-föreningen genom en enkät. Utformningen av enkäten och FAS-föreningens metod för att besvara den beskrivs i metodkapitlet (Kapitel 3). FAS-föreningens enkätsvar redovisas i Bilaga 8.

Enkätsvaren bygger på svar från sociala medier, livsberättelser från personer som medverkat i media, skrivit brev, böcker eller berättat muntligt, egna erfarenheter samt diskussioner i grupper av föräldrar respektive ungdomar under läger och föräldrautbildningar. FAS-föreningen gick ut med några av frågorna i en enkät där totalt 32 personer bidrog med svar. Nio personer hade FAS eller FASD-symtom och 23 personer var anhöriga. Personerna med FAS/FASD var 18 till 42 år gamla, tre män och sex kvinnor. De anhöriga bestod av 19 adoptivföräldrar, två familjehemsföräldrar, en biologisk förälder och ett syskon.

Nedan sammanfattas en del av svaren från FAS-föreningen och hur de relaterar till utvärdering av de kvalitativa studierna av erfarenheter och upplevelser av att leva med, eller som anhörig till någon med, FAS/FASD (Kapitel 4). SBU tar inte ställning till huruvida svaren är representativa för alla FAS-föreningens medlemmar eller för personer med FAS och deras familjer generellt.

# Individens och föräldrars upplevelser och erfarenheter av tillstånden

FAS-föreningen beskriver hur både personer med FAS/FASD och deras föräldrar upplever skoltiden som en prövning. Detta innefattar både svårigheter med inläring och socialt utanförskap. Temana i de kvalitativa internationella studierna där både kognitiva och påtagliga sociala svårigheter beskrivs, bland annat med relationer, bekräftas.

Det finns en risk att personer med FAS/FASD kan utnyttjas på grund av att de ofta är tjänstvilliga och positiva människor. FAS-föreningen sammanfattar även svårigheter med fritidsaktiviteter såsom lagsporter för att det kan vara svårt att tolka strategier, fatta snabba beslut och förhålla sig till andra. Fysiska problem kan också medföra begränsningar. Föräldrarna vittnar om många hälsoproblem, både av psykiatrisk och somatisk karaktär. Att klara vardagslivet, även till synes enkla vardagsgöromål, kan vara problematiskt och de sociala svårigheterna kvarstår upp i vuxenlivet. Bilden av naivitet, bekräftas också av de granskade forskningsstudierna.

Att ”ta sig fram i samhället” upplevs som väldigt betungande generellt för personer med FAS/FASD, enligt FAS-föreningen, men är inte lika tydligt framställt i de granskade studierna.

## Upplevelser av värdet av att få diagnos

Att få en diagnos är enligt FAS-föreningen övervägande positivt utifrån såväl föräldrar som vuxna med FAS/FASD. Föreningen känner varken till att någon har fått diagnos ställd mot sin vilja eller att någon ångrat en utredning inför diagnos. Exempel finns på en initial tveksamhet inför diagnosens definitiva bekräftelse på livslånga funktionsnedsättningar, men där inställningen ändrats allt eftersom. Att ha diagnos är positivt jämfört med att vara utan diagnos, men ha funktionsnedsättningarna, noterar FAS-föreningen. Å andra sidan finns också erfarenheter av att behöva argumentera för att få använda en ställd diagnos som redskap för att få stöd och hjälp. I studierna användes uttrycket tveggat svärd vilket påminner om FAS-föreningens utsagor.

Att få till stånd en utredning och diagnos upplevs som en stor prövning för föräldrarna, något som också tydligt framkom i de internationella studierna.

## Föräldrars upplevelser och erfarenheter av föräldraskapet

Anhörigas vardag påverkas väldigt mycket, konstaterar FAS-föreningen. Föräldrarna blir slitna, deras tankar kretsar ständigt kring hur de ska få hjälp

för sitt barn, på kort och lång sikt. Det är stressande att ständigt vara ”stridsberedd”. Isolering och påfrestningar på äktenskapet är andra konsekvenser av ett FAS/D-föräldraskap, vilket också bekräftas i de granskade studierna.

Att försöka lotsa barnet genom skolgången och vidare in i vuxenlivet är en av de största prövningarna. Ett påtagligt känslomässigt engagemang i och för barnen omvittnas i FAS-föreningens sammanställning. Dessa upplevelser harmonierar väl med iakttagelserna i de internationella studierna.

## Individens och föräldrars upplevelser och erfarenheter i relation till samhället

Att ha någon annan än föräldrarna att prata med är viktigt, enligt FAS-föreningen. Boendeformer som medger en individuell behovsanpassning i form av stöd, struktur och gemenskap, ”en förlängning av föräldrahemmet”, ses som angeläget. Dessa konkreta exempel beskrivs inte så tydligt i de undersökta forskningsstudierna. Däremot är överensstämmelsen med forskningsstudierna god när det gäller upplevelsen av obefintligt, felaktigt eller dåligt stöd från skola, socialtjänst och hälso- och sjukvård. De flesta får i och för sig stöd, men det uppfattas inte som helt adekvat, varken av föräldrar eller personerna själva.

Särskilt skolans bristande stöd framhålls av FAS-föreningen där det också framgår att synsättet kan variera, inte bara resurstillgången. Utgångspunkten i barnets behov av stöd, inte diagnos, är vanlig, särskilt inom skolan. Skolans önskemål att lära känna barnet ”förutsättningslöst” för att själv bilda sig en uppfattning kan ha följder såsom många inblandade och risk för godtycklighet. Denna risk upplevs som stor med tanke på de bristfälliga kunskaperna och att hjälpinsatsen kan bli mer kopplad till tillgängliga resurser än till behovet.

Föräldrar känner sig misstrodda i sitt hjälpsökande. FAS-föreningen erfar att stödet från hälso- och sjukvården upplevs minst dåligt i regioner där flest personer utretts och fått diagnos.

Upplevelsen av en i stort sett obefintlig kunskap om FAS/FASD bland professionella framgår av såväl FAS-föreningens enkät som forskningsstudierna.

Samverkan mellan skola, socialtjänst och hälso- och sjukvård måste bli bättre framhåller FAS-föreningen och föreslår en ny stödform, en individuell samordnare för familjer till barn eller för vuxna med FAS/FASD. I en av de utvärderade studierna påtalas också brister i samordning och ett stort behov av detta.

FAS-föreningen betonar att de biologiska föräldrarnas perspektiv behöver lyftas fram. De barn som lever med biologiska mammor har en särskilt utsatt situation.



# 7 Etiska aspekter kring diagnos och insatser

Det kan inledningsvis vara värt att påminna om att FAS finns som diagnos i Sverige, även om den tycks användas sparsamt (Kapitel 4). Däremot är inte FASD en etablerad diagnos, utan endast ett samlingsnamn på ett antal likartade tillståndsbeskrivningar, varav FAS är ett. När diskussionen nedan rör frågan om vad införandet av en diagnos skulle innebära, så är det en bredare FASD-diagnos som avses, om inte annat framgår. Mot bakgrund av FAS-diagnosens relativt ringa användning kan det vara värt att förtydliga att när vi talar om för- och nackdelar med en diagnos, så ingår premissen att den då också skulle användas i relevanta fall.

## Möjliga fördelar med diagnos ur ett vårdperspektiv

Det framgår tydligt av litteraturen, inklusive vår egen syntes av kvalitativa studier (Kapitel 4), att detta att en diagnos sätts, eller att en tillståndsbeskrivning ges, har betydelse på flera olika sätt. För vårdgivaren innebär en FASD-relaterad tillståndsbeskrivning att patienten kan placeras i ett sammanhang av potentiella medicinska och sociala problem. Om FASD skulle finnas som diagnos skulle det kunna leda till att det tas en bättre anamnes – det är lättare att leta om man uppfattar att det kan finnas något särskilt att leta efter. Då FASD förknippas med bland annat syn- och hörselproblem, motoriska problem, bristande kognitiva funktioner, ADHD-problematik, autism, tvångssyndrom, bristande sociala färdigheter, humörstörningar och utåtagerande beteende kan förekomsten av

en diagnos också innebära att det fortsatta utredningsarbetet får en tydligare inriktning, då vårdgivaren har skäl att gå vidare med vissa undersökningar av sådant som inte redan uppmärksammats i samband med diagnossättandet eller sådant som bör undersökas mer noggrant – och som man kanske inte kommit att tänka på att undersöka utan diagnos. Dessutom blir diagnosen en utgångspunkt för diskussion av medicinering och andra behandlingar. Diagnosen kan också ur vårdgivarperspektiv innebära att fokus lyfts från enskilda svårigheter som barnet har till en mer övergripande bild av barnets förmågor och svårigheter. Den innebär också en grund för prognos för framtiden. Det bör dock noteras att många av de här anförda fördelarna med en diagnos är fördelar just i relation till en praxis där barns behov i annat fall delvis förbises. Det finns inte några principiella skäl för varför en diagnos skulle vara nödvändig för att bättre fånga upp barnens behov. I praktiken kan det likväl vara så till följd av olika resurshanteringsbeslut inom skola och sjukvård.

Man kan även tänka sig att etablerandet av en ny FASD-relaterad tillståndsbeskrivning får ett starkt signalvärde, inåt mot hälso- och sjukvården och utåt mot samhället, att här finns ett problem som behöver tas itu med. Det är också tänkbart att det blir resursgenererande genom att det fattas politiska beslut om särskilt stöd för denna patientgrupp, till exempel specialenheter dit man kan vända sig. Etablerandet av en bredare FASD-relaterad tillståndsbeskrivning kan med andra ord få effekten att berörda funktionsnedsättningar prioriteras upp i hälso- och sjukvården och i övriga samhället. Detta är rättvist i den mån viktiga behov som tidigare har förbisetts härigenom kan mötas och orättvist om allvarigare problem får stå tillbaka (något som vi återkommer till).

En tanke som har framförts av eldsjälarna inom läkarkåren är att skapa särskilda kunskapscentra kring FAS och FASD. Om sådana kunskapscentra etableras är en tänkbar effekt över tid att detta främjar kunskapsutvecklingen inom det berörda området. Detta kan i sin tur ge en spridningseffekt som gör att även andra barn med funktionshinder av liknande art, men som inte hamnar under FASD-paraplyet, kan dra nytta av framstegen och kan komma att inkluderas i behandlingsprogram på ett annat sätt än vad som sker nu. Likaså kan man tänka sig att en långsiktig effekt av att särskilda kunskapscentra etableras är att det främjar prevention genom att problematiken får mer uppmärksamhet och att sjukvården dessutom blir bättre på att känna igen signaler på alkoholskador för att fånga upp missbruk i familjen. Det är värt att notera att de tänkbara effekter som anges i detta och föregående stycke inte har direkt med diagnostisering att göra, utan rör effekter som genom politiska beslut i princip kan åstadkommas med eller utan diagnos, med sikte på de funktionshinder som diagnosen täcker in.

## Möjliga fördelar med diagnos för individen och familjen

För individen och resten av familjen kan en diagnos eller tydlig tillståndsbeskrivning uppfattas som värdefull, utöver ovan nämnda skäl, för att den ger en

förklaring till de problem och svårigheter man haft och det kan också vara en fördel för familjesammanhållningen att veta att till exempel vredesutbrott från barnet som uppfyller kriterier för FASD inte behöver tolkas som motvilja eller egentlig ilska mot övriga familjemedlemmar [73,79,83].

Att det finns en diagnos eller tydlig tillståndsbeskrivning kan också göra det något lättare att förhålla sig konstruktivt i de situationer som uppstår när man vet att barnet en hel del gånger inte klarar av att hantera situationen bättre än vad det gör. Med en bredare genomgång av barnets förmågor och svårigheter kan föräldrarna dessutom få möjlighet att hitta strategier för att bättre klara av sin vardag på hemmaplan. Med diagnosen i ryggen kan det också bli lättare att hitta gemenskap och utbyta erfarenheter, till exempel i patientföreningar och i sociala medier.

Etableringen av en ny diagnos eller tillståndsbeskrivning kan innebära att barn som uppfyller kriterier för FASD identifieras tidigare. Detta kan i sin tur leda till en mängd fördelar för både familjen och hälso- och sjukvården samt sociala myndigheter som kan vara mer förberedda. Utredningar av funktionshinder kan komma igång tidigare, liksom insatser för avlastning med mera. Det kan också vara värdefullt för eventuella syskon, som är en utsatt grupp. Forskning visar att stora problem kan förekomma, som till exempel ökad stress och högre mortalitet hos dessa syskon än i andra syskongrupper [134].

## Diagnosens betydelse för att få insatser

Att få en diagnos kan få betydelse för barnet och familjen på ytterligare ett sätt, och detta har att göra med resurs- och hushållning och -fördelning i samhället. Flera utländska studier vittnar om att diagnosen är den nyckel som öppnar dörren till olika resurser inom exempelvis hälso- och sjukvård, socialtjänst och skola [73,79,83]. Utan diagnos får barnet och familjen ingen tillgång alls, med diagnosen följer i praktiken en mängd rättigheter att ta del av dessa resurser, och kan till exempel ge tillgång till familjestöd och medicinering och underlätta att få expertkonsultationer och bättre kontakt med socialtjänsten. Motsvarande gäller i praktiken på många håll i Sverige kring exempelvis autism och ADHD [135] och autism, trots att det enligt gällande lagstiftning är behov och inte diagnos som ska ligga till grund för vilket stöd som sätts in. Tillgång till särskilda centra, särskilda insatser i skolan, avlastningsstöd och möjligheter till medicinering och andra behandlingsinsatser knyts då till att barnet fått en diagnos. Så behöver det förstås inte vara. Att göra en sådan koppling mellan diagnos och resurstillgång är ett aktivt val från samhället, eller den enskilda skolan. Ett alternativ vore att titta direkt på de konkreta svårigheter och behov av hjälp som det enskilda barnet har och anpassa resursinsatser därefter. Men det kan inte uteslutas att en FASD-relaterad tillståndsbeskrivning skulle få denna betydelse i Sverige, liksom den har i andra länder där den används inom hälso- och sjukvården.

De olika tillståndsbeskrivningar som ryms under FASD-paraplyet bygger på delvis olika diagnoskriterier och kan därigenom komma att identifiera delvis olika grupper av individer. För att säkerställa vilken tillståndsbeskrivning som är mest angelägen att använda utifrån hälso- och sjukvårdens prioriteringsriktlinjer behöver man först klargöra vilka individer som identifieras med respektive alternativ och därefter jämföra vilken grupp som har störst behov av hjälp. Eventuellt borde detta också ställas mot vilka insatser som finns att tillgå och som kan komma att finnas inom de närmaste åren, eftersom det är tveksamt om man bör systematiskt identifiera behov som inte kan tillfredsställas [136].

Det finns förstås ingen nödvändig koppling mellan att diagnos ställs och att insatser och stöd sätts in. Det förefaller vara en vanlig uppfattning i familjer där en familjemedlem har fått en FAS-diagnos att det ändå saknas förståelse och stöd från professionella (Kapitel 4 och 5).

## Populationsbaserad screening

Det som diskuterats så här långt är värdet av en diagnos eller tillståndsbeskrivning för att fånga upp den berörda gruppen i ordinarie sjukvård. Det förekommer i litteraturen även en diskussion av biomarkörer och värdet av en populationsbaserad screening av nyfödda för FASD med syfte att identifiera barn som uppfyller kriterier för FASD så tidigt och så fullständigt som möjligt. Det finns flera saker att ta ställning till i relation till detta, förutom den vetenskapliga frågan om tillförlitligheten i de biomarkörer som i så fall skulle komma ifråga [137,138].

För det första är det ett nödvändigt villkor för ett screeningprogram framgång att det finns ett tillförlitligt sätt att identifiera berörda individer. Som vi varit inne på tidigare finns det mycket som talar för att detta inte är fallet i relation till FASD. Idén att det skulle vara klokt att införa en populationsbaserad screening av nyfödda för FASD faller därmed redan här. För det andra måste det finnas något påtagligt att vinna för att det ska vara försvarbart att inleda allmän screening, mot bakgrund av de många etiska aspekter som aktualiseras vid all screening, så som frågor kring autonomi och personlig integritet, risk för överdiagnostisering och överbehandling, falsk trygghet etc. Och detta eventuella mervärde måste också jämföras med värdet av ett mer riktat fokus, det vill säga undersökning utifrån indikation i det enskilda fallet. Mot bakgrund av att FASD tar sig ett mycket diversifierat uttryck, med många olika typer av svårigheter och behov, finns goda skäl att förmoda att införandet av ett brett screeningprogram inte går att försvara.



## Diagnos utan speciell symtomuppsättning

Det finns också ett antal invändningar mot FASD som diagnos eller tillståndsbeskrivning. En invändning är att diagnosen är oanvändbar i den meningen att den inte identifierar någon speciell uppsättning symtom (*“knowing that someone has FASD does not specify which symptoms they have”*) [139]. Därmed finns inte heller den sedvanliga kopplingen mellan diagnos och en någorlunda specificerad uppsättning behandlingsinsatser [139]. Då kan det tyckas i bästa fall meningslöst och i värsta fall skadligt att ställa diagnosen. Som vi har sett ovan kvarstår poängen med en diagnos att den kopplar individen till ett kluster av potentiella problem, vilket kan vägleda fortsatt utredning. Vid sidan av denna fördel kan det dock vara svårt att hitta någon fördel som inte bygger på samhälleliga beslut om resursallokering utifrån diagnos.

Mot ovanstående invändning kan anföras att kritiken bara träffar en generell FASD-diagnos. Det är förstås i princip möjligt att skapa en ny mer specifik FASD-relaterad diagnos som faktiskt identifierar en speciell uppsättning symtom. Men med precisionen följer en begränsning i applicerbarhet eftersom FASD representerar en så bred palett av symtom och svårigheter – många individer med FASD-relaterad problematik skulle då falla utanför.

## Skuldbeläggande till följd av etiologisk diagnos

En annan typ av invändning rör negativa psykologiska och sociala effekter av att diagnos ställs, så som upplevelse av skuld bland biologiska föräldrar [73], särskilt mödrar; risk för problem inom familjen till följd av skuldbeläggande; skuldbeläggande och dåligt bemötande från professionella [77]; stigmatisering genom att utpekats som barn till en som skadligt brukat alkohol, alternativt pekats ut som en sådan förälder; risk för att som barn med diagnos behöva leva med idén att mamma skadat en och kanske gjort det med avsikt; ilska och skuldbeläggande gentemot biologiska föräldrar bland familjehemsföräldrar med mera [82,140]. Vilka sådana effekter en diagnos eller tillståndsbeskrivning kan få beror bland annat på vilken information som sprids om den, på mödravårdscentraler och i informationskampanjer, till exempel att skadan kan uppstå under en period då mamman ännu inte är medveten om att hon är gravid – och i vilken utsträckning befolkningen tar till sig sådan information. Det bör också noteras att diagnosens bördor faller olika, åtminstone vad gäller skuldbeläggande: här blir det biologiska mammor/familjer som pekats ut, medan adoptivfamiljer snarare står på den anklagande sidan. Det är värt att understryka att skuldbeläggande i samband med FASD-relaterade tillståndsbeskrivningar i stor utsträckning har att göra med att tillståndsbeskrivningarna är etiologiska eller lätt lockar till tolkningar där tillståndets uppkomst ingår i förståelsen av tillståndet.

En del av den kritik som framförts rör delvis mer specifika diagnoser inom FASD-fältet, och ska förstås mot bakgrund av att det i dagsläget inte finns några biomarkörer som med säkerhet kan visa att alkohol har orsakat funktionsnedsättningarna. Så har kritiken riktats mot tillståndsbeskrivningen ARND att dess användning är tvetydig: formellt hävdar den endast en koppling mellan tidigare alkoholbruk och de uppkomna funktionsnedsättningarna, men likväl antyder den en kausal länk [141]. Om denna tolkning blir praxis bland kliniker, vilket har hävdats är fallet, förvandlas en konstaterad riskfaktor till den kausala faktorn [141].

På liknande sätt har argumenterats att FASD-tillstånden generellt förutsätter, eller tolkas som, att alkoholbruk under graviditeten orsakat de FASD-relaterade funktionsnedsättningarna. Price och Miskelly beskriver att läkare som använder FASD-beteckningen sluter sig till såväl användningen av alkohol som dess kausala verkan, trots att flera diagnoser och tillståndsbeskrivningar är tillämpliga utan att alkoholkonsumtion under graviditeten är belagd och att det vetenskapliga stödet endast rör ett möjligt samband mellan alkoholbruk och funktionsnedsättningarna [139]. Vad kritiken visar är att det i klinisk praxis kan uppstå tolkningar av diagnoser och tillstånd som avviker från definitionen och som kan påverka hur enskilda individer bemöts. I praktiken innebär det att den enskilda biologiska mamman riskerar att beskyllas för alkoholbruk under graviditeten och att detta orsakat barnets skador, trots att det inte behöver finnas stöd för något av dessa påståenden. Diagnoser utifrån antagande eller kunskap om alkoholbruk under graviditeten är generellt värre avseende skuldbeläggnings- och stigmatiseringsrisk jämfört med diagnoser där alkoholkonsumtion och kausala effekter av detta endast inkluderas som riskfaktorer. I de fall diagnosen utgår från att alkoholbruk förekommit även när detta inte är belagt kan detta medföra ett ogrundat skuld påläggande.

Men invändningen rör inte bara skuldbeläggande, utan också att det finns en risk för att en diagnos med alkoholbruk som ett antagande riskerar att i praktiken leda till att andra orsaksfaktorer i stor utsträckning ignoreras. Eftersom inte alla kvinnor som druckit alkohol under graviditeten får barn som uppfyller kriterier för FASD-tillstånd och inte heller alla de som inte druckit alkohol under graviditeten får barn utan liknande problematik, är det uppenbart att andra faktorer också spelar in [139,141–143]. Det finns forskning som antyder att alkoholkonsumtion under graviditeten endast har måttligt förklaringsvärde [141].

## Individfokusering på ett socialt problem?

Det finns också en invändning som går ut på att man genom att ge en diagnos ”individualiserar” ett problem som i stor utsträckning snarare är ett socialt problem, som har att göra med utanförskap, ekonomisk och social ojämlikhet med mera. Kort sagt är tanken att det är fel att primärt skylla skadligt alkoholbruk på individen om det finns ett starkt samband mellan utsatthet på grund av

rådande sociala strukturer och missbruket. Med individfokuseringen kan man lägga det moraliska ansvaret på enskilda mödrar istället för på samhällets institutioner. Domen blir ”dåliga mödrar” istället för att samhället i otillräcklig grad tar hand om en utsatt grupp [143,144]. Denna invändning mot diagnostisering framstår dock inte som särskilt träffande i en svensk kontext, då samhällets syfte med en FASD-diagnos eller -tillståndsbeskrivning inte torde vara att avhända sig ansvar utan tvärtom att hjälpa barnen och familjerna ifråga. Det kan förstås vara så att missbruket är starkt knutet till individen, snarare än till social utsatthet, till exempel för att missbruket har genetiska orsaker. Även en sådan förklaring skulle begränsa den enskildes ansvar.

Viss forskning kring identifiering av FASD och variation i alkoholkonsumtionsmönster mellan olika sociala strata antyder dessutom att det är vanligare att identifiera FASD hos barn från socioekonomiskt svagare skikt medan barn från starkare socioekonomiska grupper oftare får symtomspecifika diagnoser, som ADHD [143]. Mot bakgrund av detta kan man tänka sig att användningen av en diagnos knuten till presumerad alkoholkonsumtion kan göra att det upplevs som svårare för mammor ur socioekonomiskt svagare grupper som använt alkohol under graviditeten att söka hjälp.

## Potentiell undanträngningseffekt

En annan invändning rör den potentiella undanträngningseffekt som en FASD-diagnos kan ha i förhållande till andra barn med liknande svårigheter men som inte uppfyller diagnoskriterierna. Tanken är att med ett fokus på att fånga upp barn med diagnosen finns risken att barn som inte fångas upp på detta sätt därigenom får mindre uppmärksamhet än vad de får nu. Denna risk skulle kunna vara särskilt stor då syndromet inte har några specifika uttryck. Emot detta kan sägas att eftersom det kan finnas en stor grupp barn som nu inte uppmärksammas inom hälso- och sjukvården på ett sätt som vore rimligt givet deras behov, så blir inte situationen värre av att vissa av dessa barn får den hjälp de behöver. Orättvisan blir snarare mindre än större genom att fler får del av den vård de behöver. Redan nu föreligger dessutom en orättvisa i att vissa barn som uppfyller kriterier för FASD uppmärksammas och tas om hand i vården medan andra inte gör det beroende dels på hur stark föräldrauppbäckning de har, dels på regionala skillnader i hälso- och sjukvården. Med en etablerad diagnos eller tillståndsbeskrivning ska barnen inte behöva ha pådrivande föräldrar eller bo i rätt del av landet för att få vederbörlig uppmärksamhet. Fortfarande finns förstås risken att det görs en osaklig skillnad mellan dem med och dem utan diagnos, om behoven av vård och stöd är desamma. Man kan till och med tänka sig att det får till effekt att barn med diagnos prioriteras före barn med större behov men utan diagnos. Detta vore orättvist och i strid med hälso- och sjukvårdens prioriteringsriktlinjer. Det är därför tänkbart att en bättre lösning vore att inrikta sig på de största svårigheterna för dessa grupper, oavsett diagnos, till exempel de relaterade till kognitiv funktionsnedsättning, bristande impulskontroll och koncentrations- och minnessvårigheter.

Det som sagts om en potentiell undanträngningseffekt gäller generellt och inte endast gentemot barn med liknande problem men utan diagnos. I en situation med begränsade resurser får varje satsning som kräver ökad resursanvändning på ett område effekter på vilka andra insatser som kan göras i andra delar av sjukvården – det finns med andra ord alltid en så kallad alternativkostnad. Om en sådan undanträngning dessutom kombineras med riktade insatser utan belagd effekt är det problematiskt.

Utifrån ett folkhälsoperspektiv avseende problematiken med alkohol i Sverige kan man tänka sig en annan prioriteringseffekt: medan mäns drickande är det stora hälsoproblemet (Bilaga 10) riskerar fokus på kvinnors drickande att öka med införandet av en diagnos. Detta är en tveksam prioritering om det till diagnosen läggs satsningar på särskilda kompetenscentra med mera.

Slutligen finns invändningen mot etableringen av nya diagnoser och tillståndsbeskrivningar att det kan vara fråga om skickligt entreprenörskap. Genom att överdriva förekomst, skadans grad med mera kan man sälja in behovet av nya diagnoser och nya resurser knutna till dessa [145].

## Diagnos, habilitering och autonomi

En fråga som bör ställas är vilken betydelse det har för den enskildes autonomi att diagnos sätts, eller en bestämd tillståndsbeskrivning ges. Här tycks finnas både för- och nackdelar. Autonomi förutsätter beslutskompetens. Om autonomi förstås som dels beslutsrätt avseende sådant som särskilt rör individen själv (rätten till autonomi), dels individens kontroll över sitt eget liv, kan man tänka sig att en diagnos främjar autonomi genom att öka självförståelsen och därmed också, i någon mån, möjligheten att styra sitt liv. En tidig diagnos och därmed tidigt stöd kan öka möjligheterna att få insatser som stärker de egna förmågorna över tid och därmed ytterligare främja individens kontroll över sitt eget liv.

Men diagnosen kan också innebära en börda som minskar det upplevda handlingsutrymmet, till exempel genom att skapa en uppgivenhet kring den egna förmågan att uppnå personliga mål. Om diagnosen innebär stigmatisering utöver vad de FASD-relaterade svårigheterna innebär kan det också krympa individens handlingsutrymme, genom stigmatiseringens praktiska sociala effekter, och i den meningen skada autonomi. Frågan blir i så fall om fördelarna eller nackdelarna väger tyngst. I en tidigare SBU-rapport om ADHD framkommer att barn som fått diagnos mestadels ser positivt på detta [84]. Det är dock oklart vilken relevans det har för en eventuell FASD-diagnos, som knyter an till (eventuell) alkoholkonsumtion och därför riskerar att vara mer stigmatiserande.

Det finns särskilda invändningar mot tidigt diagnossättande som går ut på att det utifrån autonomisynpunkt är bättre med en senare diagnos, eftersom personen, i vissa fall, då är kompetent att själv fatta ett beslut. Mot detta talar fördelarna som en tidig diagnos kan ge. Autonomintresset står alltså här i konflikt med hälso- och sociala intressen. Dessutom tycks olika autonomiaspekter

potentiellt stå i konflikt med varandra – med tidig diagnos kan det vara så att framtida autonomi främjas (i termer av förmåga till eget beslutsfattande och kontroll över den egna livssituationen) till priset av inskränkt beslutsfattande för individen i nuet i en fråga som särskilt rör denne själv (nämligen avseende medverkan i FASD-utredning).

Autonomifrågan kommer in på olika sätt och berör olika individer i relation till FASD. Alkoholkonsumtion är en sådan aspekt, och där är det bland annat blivande mödrars autonomi som berörs. Då osäkerhet råder kring magnitud och effekt, inte minst kring om det finns en ”säker konsumtionsnivå” (en nivå som med säkerhet inte leder till skador på fostret), har flera nationella myndigheter valt att rekommendera total avhållsamhet från alkoholkonsumtion under graviditeten. Av hänsyn till fertila kvinnors autonomi är det viktigt att beslutsgrunden för denna rekommendation tydligt redovisas. Den blivande mammans beslutsfattande kring sin alkoholkonsumtion har sedan eventuellt inverkan på fostrets utveckling och framtida autonomi.

## Etiska aspekter på habilitering

Trots att många menar att det är viktigt att barn med tillstånd som är förenliga med FASD får en diagnos, tycks diagnostiken inte ha någon särskild inverkan på habiliteringen – den ger ingen vägledning, utöver vad de enskilda svårigheterna ger [82,139]. Om det förhåller sig så innebär det att diagnostiken inte genererar något mervärde i detta avseende. En idé som förekommit är att ADHD hos barn som uppfyller kriterier för FASD inte kan medicineras på samma sätt som övrig ADHD. Det verkar dock inte finnas stöd i litteraturen för att det skulle finnas en sådan skillnad (Kapitel 5). Det tycks med andra ord inte finnas någon särskild habilitering just för barn som uppfyller kriterier för FASD. Därför tycks det heller inte finnas någon särskild fördel med att söka fastställa huruvida de uppfyller dessa kriterier. Däremot finns mycket stöd att ge till dessa barn (Kapitel 5), såsom träning av arbetsminnet, riktad språk- och lästräning, matematikundervisning, social färdighetsträning i grupp, datorbaserad träning av exekutiva funktioner, datorbaserad inläring av praktiska saker som brand- och trafik kunskap och ADHD-medicin.

Ett generellt potentiellt problem, som kan bli relevant i samband med utbildningsinsatser för barn som uppfyller kriterier för FASD, är att om man utbildar grupper av sårbara ungdomar, så finns risken att de lär sig dåligt beteende av varandra under tiden utbildningen pågår (så kallad negativ socialisering). Exempel på denna effekt ges i en tidigare SBU-rapport, *Program för att förebygga psykisk ohälsa hos barn* [97]. I olyckliga fall blir då den sammanlagda effekten av utbildningsinsatsen negativ.

## Etiska aspekter på familjestöd

Belastningen på familjer med ett barn som uppfyller FASD-kriterierna kan vara mycket hög (inte minst gäller detta barn med FAS) och dessa familjer behöver i många fall stöd. Livet med ett sådant barn kan vara mycket påfrestande. De sätt att vara och hjälpa till som fungerar för andra barn kan för dessa barn visa sig långt ifrån tillräckliga, vilket gör att föräldraskapet kan sättas på stora prov [72,73,77]. Även livet som syskon kan påverkas i hög grad. Enligt en undersökning är mortaliteten högre bland syskon till barn med FAS [134]. I en studie beskriver en förälder hemmet som en krigszon på grund av sonens utbrott och aggressivitet. Dottern i familjen har diagnostiserats med posttraumatiskt stressyndrom [73]. Trots att svårigheterna kan vara stora är de inte unika – flera av svårigheterna liknar dem vid andra genetiska och neuropsykiatriska tillstånd, exempelvis autism.

Familjestöd kan ha flera effekter. Att få stöd kan göra att familjen känner sig sedd och uppmärksammas och inte övergiven med sina problem. Detta kan i sig vara ett stöd. Men det är uppenbart att mer handgripliga insatser kan behövas, som utbildning, hjälp med social träning, avlastning och ekonomiskt stöd. Sådant stöd kan öka livskvaliteten och kontrollen över livet för barnet och för övriga familjemedlemmar. Utbildningsstöd kan röra hur man bäst kan försöka lära barnet praktiska saker, som för andra barn går relativt lätt men som för vissa barn som uppfyller kriterier för FASD kan vara mycket svårt, tidsödande och tålmodsprövande. Avlastning kan behövas för att ge vårdnadshavarna möjlighet till ett avbrott och återhämtning. Syskonen kan också behöva detta andrum, eftersom det mesta av föräldrarnas tid annars tenderar att gå till att vara ett stöd för barnet med FASD.

Från kvantitativa studier finns ytterst litet underlag för att säga något om effekter av interventioner, mer än att någon intervention verkar bättre än ingen, åtminstone om den ger familjen ökad uppmärksamhet, innebär avlastning och ger ökad tillgång till expertis. En annan lärdom tycks vara att sådana program kan vara till stöd för familjen utan att för den skull ge något särskilt stöd för barnet med FASD.

Ser man till den internationella litteraturen inom området framgår att allvarligheten i funktionshindren kan ha stora effekter på vilka problem som uppstår och därför vilka typer av personligt stöd och familjestöd som kan behövas. Exempelvis tycks det vara så att ett tillräckligt svårt funktionshinder kan förhindra att individen dras in i problem med droger och brottslighet genom att denne har svårt att röra sig fritt i samhället. Det kan också innebära ett garanterat ekonomiskt stöd, vilket förhindrar att personen dras in i kriminalitet som försörjningsalternativ. En lättare utvecklingsstörning innebär i många fall inte ett sådant hinder, samtidigt som den kan ge en större naivitet. Likaså kan den medföra att man till exempel inte riktigt hänger med socialt, inte riktigt förstår abstraktare humor och har svårare att självständigt bedöma rimligheten i olika förslag som läggs fram. I kombination med bristande impuls kontroll kan det bli lätt att låta sig dras med i aktiviteter som både direkt och på sikt är skadliga.



Av olika studier framgår att en hel del föräldrar upplever okunskap, bristfällig information och bristande stöd från till exempel sociala myndigheter [77,82]. Det tycks vara en förhållandevis vanlig uppfattning att man som förälder får kämpa hårt för att överhuvudtaget få någon hjälp [77]. Detta kan innebära lidande i form av oro och av att känna sig övergiven av samhället.

För insatser gäller generellt att särintressen kan leda till ojämlig tillgång. Exempelvis kan en föräldraförening för adoptiv- och familjehemsföräldrar göra att deras inflytande stärks. I princip gäller att sådant externt inflytande kan påverka sjukvård och andra insatser i ojämlig riktning genom att redan starka individer kan skaffa sig ytterligare inflytande medan svagare grupper har svårt att åstadkomma något motsvarande. Om patientgruppen med familjer som helhet är i en svag position kan förstås gemensamt agerande genom en förening ge individerna större chans till en rimlig nivå av uppmärksamhet.

## Sammanfattning av etiska aspekter på diagnos och insatser

För att det ska vara rimligt att införa en ny diagnos eller tillståndsbeskrivning bör detta sammantaget vara till fördel för berörda personer jämfört med nuvarande praxis. En kärnfråga är därför: leder identifiering av barn som uppfyller FASD-kriterierna till att barnen får bättre möjligheter att hantera sina funktionsnedsättningar och på sikt bättre prognos för långsiktiga funktionshinder? Detta är inte klarlagt.

Några fördelar: Om diagnos sätts ger det vårdgivaren en grund för att gå vidare med specifika undersökningar inom flera områden och familjen får en förklaring till de svårigheter de lever med. Tidig diagnos kan ge en tidig beredskap för vad som komma ska och mer realistiska förväntningar på framtiden, liksom tidigare insatser för barnets utveckling och till stöd för familjen.

Men det är också möjligt att diagnostisering för med sig skuldbeläggande och stigmatisering av såväl barn som moder/familj och får en undanträngningseffekt vad gäller möjligheterna för barn med liknande svårigheter men utan diagnos att få relevant stöd och behandling.

En viktig fråga i sammanhanget är vilka alternativ till ny diagnos det finns för att få ökad uppmärksamhet för de barn som har FASD-relaterade svårigheter och inte får tillräckligt stöd av sjukvården och samhället i övrigt idag. En annan viktig fråga är i vilken utsträckning sjukvården misslyckas med att fånga upp dessa barn redan idag. Utan klarhet i dessa empiriska frågor är det inte möjligt att ge klara besked i flera av de normativa frågorna.

Identifieringen av barn som uppfyller kriterierna tycks inte ge någon vägledning för habilitering, eftersom symtomen varierar stort. Det finns heller ingen särskild insats för dessa barn som visats vara mer effektiv än någon annan. Insatser som riktar sig till barn med samma slags symtom som vid FASD kan

antas fungera även för dessa barn. I dessa avseenden har alltså en diagnos inget av värde att tillföra.

Den kvalitativa syntesen samt svaren från FAS-föreningen (Kapitel 4 och Bilaga 8) visar att föräldrar till barn som uppfyller kriterier för FASD upplever en okunskap och bristande stöd från till exempel sociala myndigheter. Detta är i så fall olyckligt, eftersom familjestöd kan ha flera effekter, dels att familjen känner sig sedd och inte övergiven, dels att konkret hjälp med bland annat social träning, avlastning och ekonomiskt stöd kan öka livskvaliteten och kontrollen över livet för barnet och för övriga familjemedlemmar.

Sammantaget visar det undersökta materialet att personer med FASD-problematik, och deras familjer, behöver stöd. FAS-föreningen i Sverige efterfrågar i första hand en större förståelse för problematiken. Samtidigt finns det inte något tydligt stöd för att fördelarna med FASD-relaterade kriterier motiverar särskilt allokerade resurser för barn med just denna typ av tillståndsbeskrivningar.



# 8 Diskussion

## Syfte och metodologiska aspekter

Fokus för rapporten har varit att sammanställa vad som i vetenskapliga artiklar finns beskrivet om förekomsten av olika funktionsnedsättningar och funktionshinder hos individer som uppfyller kriterierna för tillstånd inom FASD samt i vilken utsträckning interventioner har effekt på de drabbade individernas fysiska och psykiska hälsa, funktionsförmåga och sociala situation. Vi har också systematiskt utvärderat litteratur som behandlar upplevelser av att själv ingå i gruppen med tillstånd inom FASD eller vara närstående. Den systematiska litteraturgranskningen har kompletterats med en egen registerstudie på barn i Sverige som fått diagnosen FAS. Vid litteraturgranskningen identifierades en svensk studie av samhällsekonomiska faktorer. Genom samarbete med FAS-föreningen har den internationella forskningen kring upplevelser av tillstånd och insatser kompletterats med aktuellt svenskt perspektiv. Under utvärderingens gång har arbete pågått kring etiska aspekter med utgångspunkt i publicerad litteratur, SBU:s etikvägledning och diskussioner med referensgrupper.

De internationella riktlinjer som finns för att identifiera de olika tillstånden inom FASD har i sig inte granskats. Det är viktigt att poängtera att vi inte heller har granskat det vetenskapliga underlaget för orsakssambandet mellan alkohol och de funktionsnedsättningar som karakteriserar FASD-tillstånden. Vi belyser därmed inte de frågor som har betydelse för samhällets rekommendationer angående alkoholkonsumtion. Livsmedelsverket rekommenderar kvinnor att avstå från alkohol under graviditeten. Folkhälsomyndigheten ger idag inga direkta rekommendationer men står bakom vägledning/kunskapsstöd för barnmorskor i deras samtal om alkohol med blivande föräldrar. Det finns också

ett kunskapsstöd för kvalitetssäkring av mödrahälsovårdens arbete för att främja en alkoholfri graviditet och en kunskapssammanställning av forskningen kring alkohol, graviditet och barns utveckling (Bilaga 11).

Vår genomgång visar att de populationer som beskrivs i vetenskapliga artiklar består av individer med olika tillstånd inom FASD (FAS, pFAS, ARND/ND-PAE och ARBD) [146] och det är ofta oklart vilken fördelningen är mellan dessa tillstånd. För översikten om prevalens av olika funktionsnedsättningar valde vi att enbart inkludera studier där det är väl definierat vilka tillstånd inom FASD som individerna har. Anledningen till detta är att prevalenssiffrorna annars skulle vara svåra att tolka då samtliga FASD-tillstånd tillsammans utgör en heterogen grupp. Vad gäller upplevelser och insatser har vi inkluderat studier med blandade och något odefinierade populationer med FASD, då vi bedömer att studierna ändå ger viktig information om hur tillstånden och insatserna upplevs samt vilka eventuella effekter som insatserna har.

Vi har inte satt någon nedre gräns vad gäller antalet deltagare i respektive studie. De allra flesta inkluderade studierna är små vilket har bidragit till osäkerheten i resultaten. Vi bedömer att små studier trots allt ger en indikation både på prevalens och effekt. Flera sådana små studier hade kunnat ge en samlad bild med en högre grad av tillförlitlighet.

## Vad visar utvärderingen?

Inledningsvis kan det konstateras att det vetenskapliga underlaget är otillräckligt eller begränsat för att säkert fastställa kvantitativa data om tillstånden och om effekterna av olika insatser på grund av att det endast finns relativt få publicerade studier, vilka också haft ett begränsat antal deltagare. När det gäller forskning på upplevelser och erfarenheter av tillstånden är det vetenskapliga underlaget betydligt säkrare.

### **Förekomst av funktionsnedsättningar vid specifika FASD-tillstånd, livssituation och samhällsekonomi**

Vad gäller barn med FAS, som är den mest undersökta gruppen, tycks nedsatt intellektuell förmåga höra till bilden. Intellektuell funktionsnedsättning (begåvning inom det område som ger rätt till särskoleundervisning, tidigare kallat psykisk utvecklingsstörning) drabbar i storleksordningen 20 till 55 procent av barnen, men alltså inte alla. Majoriteten har ändå någon form av kognitiva problem, till exempel begåvning inom nedre normalområdet och nedsatta exekutiva funktioner som koncentrationsproblem och bristande arbetsminne. Försenad språkutveckling kan förekomma liksom missbildningar, fysiska hälsoproblem och nedsatta sensoriska och motoriska förmågor. Samsjukligheten med barnpsykiatriska diagnoser är utbredd, särskilt vad gäller ADHD.

Vad gäller fysiska avvikelser så kan förekomsten av hjärtfel uppskattas till mellan 7 och 25 procent för barn med FAS, skelning till mellan 6 och 29 procent samt hängande ögonlock (ptos) till mellan 3 och 11 procent.

Osäkerheten vad gäller förekomsten av funktionsnedsättningar är ytterligare ökad för tillstånden pFAS och ARND. Termen ARBD är enbart en beskrivning av missbildningar hos barn som varit utsatta för alkoholexposition i fosterstadiet.

I vilken utsträckning den ålder då diagnosen FAS eller annat tillstånd inom FASD blev fastställt har betydelse för prognosen för individen är inte tillräckligt undersökt. Den grad av svårigheter som individer med FASD ställs inför beror sannolikt på begränsade färdigheter och problematiska beteenden hos individen i ett komplext samspel med förekomsten av eller bristen på stöd och anpassningar i hem, förskola och skola. I detta avseende kan man se likheter med situationen för personer med svår ADHD och andra tillstånd med avvikelser i utveckling och beteende (så kallade neuropsykiatriska diagnoser).

Från en svensk studie av vuxna personer med FAS framkommer en tämligen dystyr bild [52]. Den stora majoriteten hade vuxit upp i samhällsvård, flertalet erhöll försörjningsstöd av olika slag och bortåt hälften hade problem med alkohol, droger, depressioner och/eller psykossjukdom. En fjärdedel hade gått i särskola.

Den enda svenska kostnadsstudie som har identifierats visar att över 60 procent av merkostnaden som förknippas med barn och vuxna med FAS består av kostnader för samhällsstöd i form av olika boenden och personlig assistans [91]. Resterande kostnader utgörs av kostnader för särskola, anhörigvård, missbruk, psykisk sjukdom, och nedsatt arbetsförmåga. Det är emellertid svårt att bedöma hur stor del av kostnaderna som faktiskt beror på FAS och inte på andra samvarierande faktorer.

Inom ramen för SBU:s projekt gjordes en nationell registerstudie av personer under 18 år med FAS-diagnos. På grund av troliga begränsningar i registerföringen kan inte siffrorna användas för att bedöma hur ofta FAS-diagnosen ställs. Dock styrks i några avseenden den bild som litteraturgenomgången gett. Flertalet av de barn med FAS, som var födda i landet, fostrades i samhällsvård. Ungefär hälften av totala antalet barn med FAS-diagnos var utlandsadopterade. Det förekom missbildningar, epilepsi och kortvuxenhet hos en mindre andel och de vanligast ställda diagnoserna tillsammans med FAS var ADHD och, i mindre utsträckning, autism.

Analysen av kvalitativa studier om hur personer som uppfyller kriterier för FASD och deras föräldrar upplever sina liv stöder bilden av en komplex problembild, ett tungt och isolerat föräldraskap som möter brist på kunskap, förståelse och insatser från samhällets sida. Bilden av ett svårt och begränsat liv för drabbade och föräldrar framkommer även i den enkät som den svenska FAS-föreningen besvarat (Bilaga 8).

## **Effekten av insatser till barn och familjer**

Det finns begränsat eller otillräckligt vetenskapligt stöd för effekten av insatser som är specifikt riktade till barn med FASD och deras familjer. Det finns enstaka eller få studier inom varje område, många studier har också få deltagare.

De inkluderade studierna särskiljer inte de olika tillstånden inom FASD och redovisar inte samsjuklighet som kan påverka resultaten. Det är oklart om utfallen visar förändringar som har reell betydelse för barn och familj och det saknas långsiktiga uppföljningar av effekterna. Det är även oklart om insatserna kan ha oönskade effekter då inget om detta beskrivits i studierna. Sammantaget är det oklart vad utfallen kan innebära för barnens sociala situation och välbefinnande på både kort och lång sikt. Insatserna ger ändå anledning till viss optimism då positiva effekttrender belyser att man kan stötta upp det som inte fungerar så bra.

De inkluderade studierna beskriver interventioner i form av utökat stöd till familjehem och träning av olika problemområden hos barnen (som exekutiva funktioner, sociala färdigheter, inläring av matematik och läsförmåga/språk) samt försök att minska risker för skador i vardagen för små barn och risken för alkoholberoende hos tonåringar. Insatserna har i allmänhet inte varit specifikt utformade för barn med FASD-tillstånd utan varit tillämpningar av metoder som utarbetats för barn med ADHD eller andra tillstånd med beteende- och/eller inlärningsproblem. Ett genomgående tema som lyfts av författarna till studierna är behovet av att anpassa metodiken och att föra ut kunskap om FASD till alla som möter barnen, inklusive till vårdnadshavare. Flera studier kombinerar träningsinsatser riktade direkt till barnen med föräldraundervisning för att stödja barnens inläring och minska beteendeproblem.

Det saknas kontrollerade studier som undersökt om effekterna av insatser, inklusive medicinering, skiljer sig för barn med FASD jämfört med barn som får samma insatser med andra diagnoser som bakgrund. Det finns heller inte studier som visar om effekten varierar för barn med de olika tillstånden inom FASD. Även ålderns inverkan på effekten av en insats är okänd. Sammantaget finns alltså begränsad kunskap om eventuellt modererande faktorer i länken mellan intervention och effekt.

## Etiologi – en svårighet vid tillstånd som FASD

En avgörande fråga inom FASD-området är förutsättningen för diagnos eller tillståndsbestämning, nämligen hur moderns alkoholkonsumtion under graviditeten sett ut. FAS-diagnosen bygger på avvikelser i ansiktsdrag, tillväxt och CNS-funktion. För FAS-diagnosen krävs i dagsläget ingen dokumenterad bekräftelse av den prenatala alkoholexponeringen vilket är en förändring från de ursprungliga kriterierna från 1973. Bekräftad alkoholexponering krävs för ARND/ND-PAE och ARBD men inte för pFAS [18]. Som stöd för alkoholens roll för FAS finns bland annat djurstudier där alkoholexponering experimentellt kan kopplas till jämförbara avvikelser hos människor (Bilaga 10). I den registerstudie av FAS som genomförts inom projektet hade ungefär en tredjedel av mödrarna till barn födda i Sverige vårdats inom missbruksvård (Kapitel 4). Alkoholens ensamt avgörande roll för skadorna är dock inte uppenbar då en femtedel av mödrarna också hade vårdats för narkotikarelaterad sjuklighet.

Tillståndet ARND/ND-PAE inom FASD kräver bekräftad alkoholexponering, men har inte fysiska utan kognitiva och beteendemässiga avvikelser som kriterier, vilka kan vara påfallande lika symtomen vid andra tillstånd med avvikelser i utvecklingen som ADHD, språkstörning och/eller begränsad begåvning. Vid diagnostisering kan det finnas en risk för cirkelresonemang – barnet har tecken på något FASD-tillstånd och vid kännedom om prenatal alkoholexponering dras slutsatsen att alkoholen orsakat symtomen trots att andra skäl till dessa inte kan uteslutas. Diskussionen bör nyanseras, det tycks till exempel inte finnas några absoluta samband mellan tillstånd inom FASD och olika funktionsnedsättningar, utan en variation inom gruppen. Denna variation kan bero på skillnader i fostrets exposition för alkohol (med vilken dos samt när och under hur stor del av graviditeten som exponeringen skett). Dock antyds inverkan av andra faktorer, exempelvis faderns alkoholbruk, demonstrerad av den femtedel fäder som enligt den svenska registerstudien vårdats för alkoholdiagnos (Kapitel 4). Familjens sociala problem, moderns hälsa och nutrition samt rökning och andra ogynnsamma faktorer som ofta hänger samman med alkoholbruk kan spela roll, liksom genetik och epigenetik (då miljöfaktorer påverkar funktion i gener).

Det är viktigt att diskutera den komplexa bakgrunden till de utvecklingsproblem, som inräknas i spektrumet FASD, det vill säga att många olika faktorer kan ha betydelse. Samtidigt kan detta innebära en risk, att alkoholens roll kommer alltför mycket i bakgrunden, och att kanske inte barn och familjer får adekvat stöd (exempelvis att en beroendesituation inte blir uppmärksammas). Detta är farhågor som kommit fram bland annat vid samråd i referensgruppen.

## Kunskapsluckor

Som framgått har litteraturoversikten visat på kunskapsluckor om vad definierade tillstånd inom FASD innebär för individen och om effekten av möjliga stödinsatser för dessa grupper.

Det finns kunskapsluckor om omfattningen av funktionsnedsättningar, hälsa och social situation hos personer med tillstånd inom FASD, möjligen med undantag för FAS, som är en diagnos och mest studerad. Vidare är det okänt om åldern, då diagnosen ställs eller tillstånden beskrivs, har någon betydelse för prognosen.

Det finns kunskapsluckor om vilka insatser som kan förbättra situationen för individer med FASD och deras familjer. Det saknas långtidsuppföljning av de olika behandlingsprogram som har beskrivits i studier. Vidare saknas det studier som på både kort och lång sikt mäter utfall som är tydligt kopplade till individers sociala situation och välbefinnande liksom studier som undersöker sammansatta interventioner och hur dessa insatser bäst kan kombineras. Det saknas också kontrollerade studier som undersöker betydelsen av samsjukliga tillstånd för effekten av interventioner, inklusive medicinering. Likaså saknas studier som undersöker betydelsen av barnets familjesituation (boende hos biologiska

föräldrar, i fosterhem eller adoptivhem). Det är också okänt vad åldern har för betydelse vid insättande av en intervention.

## Framtida forskning och praxis

Det är viktigt att framtida forskning identifierar vilka svårigheter som finns i grupper med FASD för att med ledning av detta finna metoder med god möjlighet att ha positiv effekt. Samma svårigheter i utveckling och beteende kan finnas oberoende av om personen har en klar diagnos FAS eller ett annat tillstånd inom FASD. I båda fallen är det nödvändigt att ha en vid infallsvinkel, att kunna bedöma andra samverkande orsaksfaktorer och ta hänsyn till dessa. Även om vår litteraturgenomgång inte kunde visa några vetenskapligt säkra resultat finns många moment i de bedömda studierna som kan vara till hjälp. Exempel på detta är beskrivning av möjligheten att anpassa metoder som tidigare är använda för andra grupper, behovet av föräldrasamverkan, utbildning om FAS med mera. Ett angeläget behov är långtidsuppföljningar av interventionsstudier. Då tillstånden är tämligen ovanliga, och möjligen underidentifierade, innebär ambitioner att svara mot dessa behov att forskningsinsatser bör samordnas, i synnerhet i ett land av Sveriges storlek.

En allsidig utredning som ibland leder fram till en diagnos är ofta avgörande för att individer med utvecklingsproblem ska få rätt utformat stöd. Nyttan av diagnostisering, och i synnerhet identifiering av tillstånden inom FASD, har aktualiserats i projektet. Vid diskussion om värdet av att identifiera tillstånd inom FASD måste FAS särskiljas. Detta är ett tillstånd med tydliga yttre kännetecken i tillväxtmönster och ansiktsdrag i kombination med kognitiva svårigheter och beteendeproblem. Det finns ett värde av identifikation av FAS liksom av många andra medicinska diagnoser, exempelvis för att kunna förebygga eller tidigt upptäcka hälsoproblem som är vanliga vid tillståndet och att få en förklaring som begränsar behovet av utredningar.

Det går dock inte att utifrån litteraturen vetenskapligt belägga att det finns ett tydligt värde i att identifiera de tillstånd inom FASD som enbart beskriver avvikelser i utveckling och beteende eller psykiatriska symtom eller att erbjuda insatser med enbart denna specifika utgångspunkt. Kunskap om tillstånden inom FASD är dock värdefull eftersom sådan behövs såväl för den enskilda familjen som ur ett samhällsperspektiv. Barn och familjer kan behöva tillgång till rätt form av utredning och information där olika orsaksfaktorer och etiska frågeställningar beaktas. Kunskap är också nödvändig bakgrund för de samhällsinsatser som är inriktade på prevention. För drabbade som inte kvalificerar sig för en FAS-diagnos skulle det kunna innebära att de ändå blir synliga och i ökad omfattning föremål för riktade insatser. Samtidigt går det inte att utesluta risken att människor med liknande och svår problematik "faller mellan stolarna" och inte får del av resurser, till exempel när kopplingen till alkohol är oklar. Detta kan resultera i att resurser inte används och fördelas på bästa sätt.

Med tanke på den förvirring och överlappning som råder gällande FASD-tillstånden och deras olika uttryck är det i nuläget oklart vad specifikation av

ytterligare diagnoser inom FASD området tillför (utöver FAS). Vidare är de interventioner som prövats riktade mot specifika problem och inte utformade exklusivt för barn med FASD-tillstånd. Oavsett diagnos krävs det alltid en noggrann kartläggning av det individuella barnets svårigheter och styrkor för att riktade insatser ska vara effektiva.

För flertalet föräldrar till barn med avvikande utveckling och hälsoproblem kommer det upp frågor om orsaken till barnets tillstånd. Föräldrar har nära till att undra över sin egen roll; de kan oroa sig över ärftlighet och över eventuella skador under graviditeten. Det är viktigt att läkare och sjuksköterskor och andra yrkesgrupper inom barnhälsovård och sjukvård har kunskap om FAS eller ytterligare tillstånd inom FASD, för att kunna delta i samtal om just denna typ av skadefaktor. Personal som inte själva har denna kunskap måste kunna rådgöra med eller remittera till annan instans inom barnhälsovård/-sjukvård. Kunskap kan behövas av olika skäl såsom för att på ett nyanserat sätt kunna och våga diskutera med föräldrar i det fall det föreligger misstanke om FASD och ta upp ett möjligt orsakssamband med alkoholbruk under graviditeten. För biologiska föräldrar kan det finnas skuldproblematik, men kunskapen är värdefull för dem, bland annat för att förhindra alkoholintag vid en ytterligare graviditet. Adoptiv- och familjehemsföräldrar kan också vara drabbade av skuld, exempelvis känna att de inte räcker till om barnet har stora problem med beteende och socialt samspel. För dessa familjer är det till hjälp med en allsidig utredning, där också frågor om en eventuell fosterskada ingår. En FAS-diagnos kan göra situationen förståelig och lättare att handskas med för föräldrarna.

Det är ett allmänt intryck, inte minst från FAS-föreningens perspektiv, att kunskapen om FASD och dess olika manifestationer är otillfredsställande låg inom många verksamheter som möter barn med svårigheter. Således skulle det finnas skäl att rikta utbildningsinsatser om FASD till specialistinstanser som habilitering, barnpsykiatri och barnhälsovård/sjukvård och barntandvård. Utbildningsinsatser till skola samt även socialtjänst är också befogat. Information till allmänheten kan bidra till en allmänt ökad kunskap och förståelse för FASD-relaterad problematik.





# 9 Projektgrupp, externa granskare, referensgrupper, råd och nämnd

## Sakkunniga

### **GERT HELGESSON**

professor, medicinsk etik,  
Karolinska Institutet

### **ANDERS HJERN**

professor, social epidemiologi, över-  
läkare, Karolinska Institutet och  
Sachsska barn- och ungdomssjukhuset,  
Stockholm

### **MARITA MINELL**

socionom, (tidigare Socialstyrelsen)

### **CHRISTINA NEHLIN GORDH**

med dr, socionom, Uppsala  
universitet

### **VIVIANN NORDIN**

med dr, överläkare, Sachsska barn-  
och ungdomssjukhuset, Stockholm

### **JENNY RANGMAR**

fil dr, psykologi, Göteborgs universitet

### **ANN-MARGRET RYDELL**

professor emerita, psykologi, Uppsala  
universitet

### **VIVEKA SUNDELIN WAHLSTEN**

docent, BUP, Institutionen för Neuro-  
vetenskap, Uppsala universitet

För registerstudie:

### **LISA BERG**

forskare, Centre for Health Equity  
Studies, Stockholms universitet

## SBU

**MONICA HULTCRANTZ**  
projektledare och samordnare

**ELISABETH GUSTAFSSON**  
projektadministratör

**GÖRAN BERTILSSON**  
projektledare

**EMELIE HEINTZ**  
hälsoekonom

**HELENA DOMEIJ**  
projektledare

**HANNA OLOFSSON**  
informationsspecialist

**GUNILLA FAHLSTRÖM**  
projektledare

**INGEMAR ENGSTRÖM**  
intern sakkunnig

## Myndighetsgrupp/styrgrupp

**MONICA HULTCRANTZ**  
SBU

**ELIZABETH ÅHSBERG**  
Socialstyrelsen (t.o.m. augusti 2016)

**SOFIA TRANÆUS**  
SBU

**ANNIKA ÖQUIST**  
Socialstyrelsen

**ANDERS FEIJER**  
Socialstyrelsen (fr.o.m. augusti 2016)

**PI HÖGBERG**  
Folkhälsomyndigheten

**SUSANNE ZETTERQVIST**  
Socialstyrelsen

## Externa granskare

**HEATHER MUNTHE-KAAS**  
Folkehelseinstituttet, Oslo, Norge  
(granskare av den kvalitativa delen  
i rapporten)

**CLAES SUNDELIN**  
Uppsala universitet

**JENNY REHNMAN**  
Myndigheten för delaktighet

# Referensgrupp

Denna grupp har bland annat belyst området ur en svensk kontext.

**ANNIKA ANDERSSON**  
ordförande FAS-föreningen

**MARITA ARONSON**  
psykolog, fil dr, Göteborg

**THOMAS ARVIDSSON**  
barnhälsovårdsöverläkare,  
Hagamottagningen,  
Närhälsans kansli, Göteborg

**MATS CARNESTEN**  
förskolechef, Kalmar

**ANN-BRITT HJELM**  
enhetschef/barnmorska, Rosenlunds  
mödravårdsteam/Beroendecentrum,  
Stockholm

**LISBETH KÄLLSTRÖM**  
socioonom, Ambulatoriegruppen,  
Region Skåne

**ANNA LAUENSTEIN**  
speciallärare, Stockholm

**MARIA LYCKNER-ELVIN**  
kurator, Rosenlunds mödravårdsteam/  
Beroendecentrum, Stockholm

**ÅSA MAGNUSSON**  
verksamhetschef, Beroendecentrum  
i Örebro

**ANTONIA REUTER**  
enhetschef, Mödra- och barnhälso-  
vårdsteamet i Haga, Göteborg

**IHSAN SARMAN**  
barnläkare Sachsska barn- och  
ungdomssjukhus, Stockholm

**CHRISTINA STRÖMBÄCK**  
verksamhetschef, Barn- och ungdoms-  
mottagningen, Kalix sjukhus

**KATARINA WITTGARD**  
f.d. ordförande, FAS-föreningen

## Referensgrupp – Etik

Under projektets gång har en referensgrupp inom etik haft en diskussion om etiska aspekter på diagnos, behandling och familjestöd för barn och unga med FASD i samband med en kritisk genomgång av en tidig manusversion. I denna grupp har följande personer ingått:

**BARBRO FRÖDING**  
docent, avdelningen för filosofi,  
Kungliga Tekniska Högskolan,  
Stockholm

**NIKLAS JUTH**  
docent, Institutionen för lärande,  
informatik, management och etik  
(LIME), Karolinska Institutet

**NIELS LYNÖE**  
senior professor, medicinsk etik,  
Institutionen för lärande, informatik,  
management och etik (LIME),  
Karolinska institutet

**ERIK MALMQVIST**  
docent, medicinsk etik,  
Linköpings universitet

**LARS SANDMAN**  
professor, hälso- och sjukvårdsetik,  
Prioriteringscentrum, Linköpings  
universitet

## Bindningar och jäv

Sakkunniga och granskare har i enlighet med SBU:s krav inlämnat deklARATION rörande bindningar och jäv. Dessa dokument finns tillgängliga på SBU:s kansli. SBU har bedömt att de förhållanden som redovisas där är förenliga med kraven på saklighet och opartiskhet.

## SBU:s vetenskapliga råd – Eira

SBU:s vetenskapliga råd har granskat det vetenskapliga underlaget i rapporten.

**KJELL ASPLUND**  
ordförande, professor, Stockholm  
(specialgranskare för denna rapport)

**INGEMAR ENGSTRÖM**  
professor, psykiatri, etik,  
Örebro universitet  
(specialgranskare för denna rapport)

**HENRIK ANDERSHED**  
professor i psykologi, docent i  
kriminologi, Örebro universitet

**NILS FELTELIUS**  
docent, Läkemedelsverket

**KRISTINA BENGTTSSON BOSTRÖM**  
docent, Billingsens vårdcentral, Skövde

**YLVA NILSAGÅRD**  
med dr, docent, fysioterapi,  
CAMTÖ, Region Örebro Län

**CHRISTINA BERGH**  
professor, Kvinnokliniken,  
SU/Sahlgrenska, Göteborg

**KATARINA STEEN CARLSSON**  
fil dr, hälsoekonomi, IHE Lund

**ANNA EHRENBERG**  
professor, vårdvetenskap,  
Högskolan Dalarna

**STEN-ÅKE STENBERG**  
professor, social forskning,  
Stockholms universitet

# SBU:s nämnd

SBU:s nämnd har fattat beslut om slutsatserna i rapporten.

**NINA REHNQVIST**  
ordförande, professor,  
Karolinska Institutet

**STEFAN LINDGREN**  
professor, ordförande,  
Svenska läkaresällskapet

**SUSANNA AXELSSON**  
generaldirektör, SBU

**STIG NYMAN**  
ordförande, Handikappförbunden

**HEIKI ERKERS**  
förbundsordförande,  
Akademikerförbundet SSR

**SINEVA RIBEIRO**  
förbundsordförande, Vårdförbundet

**EVA FRANZÉN**  
forsknings- och utvecklingschef,  
Statens Institutionsstyrelse

**AGNETA VON SCHOTING**  
ordförande, Nationella samverkans-  
gruppen för kunskapsstyrning i social-  
tjänsten (NSK-S)

**ÅSA FURÉN-THULIN**  
sektionschef,  
Sveriges Kommuner och Landsting

**HEIDI STENSMYREN**  
ordförande, Sveriges läkarförbund

**JAN-INGVAR JÖNSSON**  
huvudsekreterare för ämnesrådet  
för medicin, Vetenskapsrådet

**ANDERS SYLVAN**  
landstingsdirektör,  
Västerbottens Läns Landsting

**BJÖRN KLINGE**  
professor, Odontologiska  
fakulteten, Malmö högskola,  
och Karolinska Institutet

**HÅKAN SÖRMAN**  
verkställande direktör,  
Sveriges Kommuner och Landsting

**LARS-TORSTEN LARSSON**  
avdelningschef, Socialstyrelsen

**KARIN TENGVALD**  
professor emerita,  
Linköpings universitet



# 10 Ordförklaringar och förkortningar

<b>Anomali</b>	Avvikelse
<b>ARBD</b>	Alcohol-Related Birth Defects
<b>ARND</b>	Alcohol-Related Neurodevelopmental Disorder
<b>Bensodiazepiner</b>	En grupp ångestdämpande läkemedel
<b>Dyskalkyli</b>	Specifika svårigheter att räkna som inte har sin grund i en allmänt svag begåvning eller bristande skolgång (t.ex. pga. skada, sjukdom eller medfödd defekt)
<b>Epigenetiska</b>	Cellulära minnen som nedärvs från en cell till en annan. Epigenetiska förändringar uppkommer genom ändringar av DNA
<b>Exekutiva funktioner</b>	Samlingsnamn för olika funktioner som styrs från den främre delen av hjärnan (frontalloben), till exempel förmågan att planera, att hejda oönskade handlingar, att kunna anpassa sig
<b>FAS</b>	Fetalt alkoholsyndrom
<b>FASD</b>	Fetala alkoholspektrumstörningar (eng. fetal alcohol spectrum disorders)
<b>Kognitiva funktioner</b>	Funktioner som minne, språk och tidsuppfattning
<b>Microcefali</b>	Abnormt litet huvud
<b>MR (MRI)</b>	Magnetresonansundersökning (Magnetic Resonance Imaging)
<b>Neuroleptika</b>	Antipsykotiska läkemedel
<b>ND-PAE</b>	Neurobehavioral disorder associated with prenatal alcohol exposure
<b>pFAS</b>	Partial fetal alcohol syndrome
<b>Psykoeduktiv</b>	En kombination av stöd och kunskapsutbildning
<b>Somatiska</b>	Kroppsliga
<b>Teratogen</b>	Skadlig yttre faktor som stör embryonal- och fosterutvecklingen och framkallar missbildningar av olika slag





# 11 Referenser

1. Lewin S, Glenton C, Munthe-Kaas H, Carlsen B, Colvin CJ, Gülmezoglu M, et al. Using qualitative evidence in decision making for health and social interventions: an approach to assess confidence in findings from qualitative evidence syntheses (GRADE-CERQual). *PLoS Med* 2015;12:e1001895.
2. Nyman H, Bartfai A. *Klinisk neuropsykologi*. Studentlitteratur AB. ISBN: 9789144040479; 2014.
3. Ungerer M, Knezovich J, Ramsay M. In utero alcohol exposure, epigenetic changes, and their consequences. *Alcohol Res* 2013;35:37-46.
4. WHO. International classification of diseases, ICD-10. Tillgänglig från <http://www.who.int/classifications/icd/icdonlineversions/en/>. Nedladdad 2016-03-17.
5. American, Psychiatric, Association. *DSM-5. Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders*. 5 ed; 2013.
6. Regeringen. Regeringsbeslut. Diarienummer: S2015/04673/FST. Tillgänglig från <http://www.regeringen.se/regeringsuppdrag/2015/09/uppdrag-att-granska-metoder-for-diagnostik-foraldrar-eller-familjestod-samt-barnhabilitering-avseende-alkohol--och-drogskadade-barn/>.
7. Regeringen. Regeringsuppdrag till Socialstyrelsen. Uppdrag att leda, samordna och stimulera till ett nationellt utvecklingsarbete av stöd till barn i familjer med missbruk m.m. samt utbetalning av medel. Diarienummer: S2011/6353/FST.
8. Jones KL, Smith DW. Recognition of the fetal alcohol syndrome in early infancy. *Lancet* 1973;302:999-1001.
9. Astley SJ, Bailey D, Talbot C, Clarren SK. Fetal alcohol syndrome (FAS) primary prevention through fas diagnosis: II. A comprehensive profile of 80 birth mothers of children with FAS. *Alcohol* 2000;35:509-19.
10. Bertrand J, Floyd LL, Weber MK. Guidelines for identifying and referring persons with fetal alcohol syndrome. *MMWR Recomm Rep* 2005;54:1-14.
11. Bertrand J, Floyd R, Weber M, O'Connor M, Riley E, Johnson K, et al. National Task force on FAS/FAE. *Fetal alcohol syndrome: guidelines for referral and diagnosis*. Atlanta, GA: Centers for Disease Control and Prevention 2004;4.

12. Chudley AE, Conry J, Cook JL, Look C, Rosales T, LeBlanc N. Fetal alcohol spectrum disorder: Canadian guidelines for diagnosis. *Cmaj* 2005;172:S1-s21.
13. Hoyme HE, May PA, Kalberg WO, Kodituwakku P, Gossage JP, Trujillo PM, et al. A practical clinical approach to diagnosis of fetal alcohol spectrum disorders: clarification of the 1996 institute of medicine criteria. *Pediatrics* 2005;115:39-47.
14. May PA, Gossage JP, Kalberg WO, Robinson LK, Buckley D, Manning M, et al. Prevalence and epidemiologic characteristics of FASD from various research methods with an emphasis on recent in-school studies. *Dev Disabil Res Rev* 2009;15:176-92.
15. Riley EP, Infante MA, Warren KR. Fetal alcohol spectrum disorders: an overview. *Neuropsychol Rev* 2011;21:73-80.
16. Doyle LR, Mattson SN. Neurobehavioral Disorder Associated with Prenatal Alcohol Exposure (ND-PAE): Review of Evidence and Guidelines for Assessment. *Curr Dev Disord Rep* 2015;2:175-86.
17. Kable JA, O'Connor MJ, Olson HC, Paley B, Mattson SN, Anderson SM, et al. Neurobehavioral disorder associated with prenatal alcohol exposure (ND-PAE): proposed DSM-5 diagnosis. *Child Psychiatry Hum Dev* 2015:1-12.
18. Hoyme HE, Kalberg WO, Elliott AJ, Blankenship J, Buckley D, Marais A-S, et al. Updated clinical guidelines for diagnosing fetal alcohol spectrum disorders. *Pediatrics* 2016;138:e20154256.
19. Strömmland K, Miller M, Cook C. Ocular teratology. *Surv Ophthalmol* 1991;35:429-46.
20. Stromland K. Visual impairment and ocular abnormalities in children with fetal alcohol syndrome. *Addict Biol* 2004;9:153-7; discussion 159-60.
21. Katbamna B. Fetal Alcohol Syndrome: effects on the auditory system. Third trimester equivalent alcohol exposure reduces modulation of glutamatergic synaptic transmission by 5-HT1A receptors in the rat hippocampal CA3 Region. *Audiology on line*. 2010.
22. Niccols A. Fetal alcohol syndrome and the developing socio-emotional brain. *Brain Cogn* 2007;65:135-42.
23. Streissguth A, Barr H, Kogan J, Bookstein F. Understanding the occurrence of secondary disabilities in clients with FAS and FAE: Final report to the centers for disease control and prevention: Technical Report; 1996.
24. Clarke ME, Gibbard WB. Overview of fetal alcohol spectrum disorders for mental health professionals. *Can Child Adolesc Psychiatr Rev* 2003;12:57-63.
25. Famy C, Streissguth AP, Unis AS. Mental illness in adults with fetal alcohol syndrome or fetal alcohol effects. *Am J Psychiatry* 1998;155:552-4.
26. Baer JS, Sampson PD, Barr HM, Connor PD, Streissguth AP. A 21-year longitudinal analysis of the effects of prenatal alcohol exposure on young adult drinking. *Arch Gen Psychiatry* 2003;60:377-85.
27. Brown NN, Burd L, Grant T, Edwards W, Adler R, Streissguth A. Prenatal alcohol exposure: An assessment strategy for the legal context. *Int J Law Psychiatry* 2015;42-43:144-8.
28. Streissguth AP, Bookstein FL, Barr HM, Sampson PD, O'Malley K, Young JK. Risk factors for adverse life outcomes in fetal alcohol syndrome and fetal alcohol effects. *J Dev Behav Pediatr* 2004;25:228-38.
29. Momino W, Felix TM, Abeche AM, Zandona DI, Scheibler GG, Chambers C, et al. Maternal drinking behavior and Fetal Alcohol Spectrum Disorders in adolescents with criminal behavior in southern Brazil. *Genet Mol Biol* 2012;35:960-5.
30. Popova S, Lange S, Bekmuradov D, Mihic A, Rehm J. Fetal alcohol spectrum disorder prevalence estimates in correctional systems: a systematic literature review. *Can J Public Health* 2011;102:336-40.
31. Abel EL, Sokol RJ. Incidence of fetal alcohol syndrome and economic impact of FAS-related anomalies. *Drug Alcohol Depend* 1987;19:51-70.

32. Clarren SK, Randels SP, Sanderson M, Fineman RM. Screening for fetal alcohol syndrome in primary schools: a feasibility study. *Teratology* 2001;63:3-10.
33. Gahagan S, Sharpe TT, Brimacombe M, Fry-Johnson Y, Levine R, Mengel M, et al. Pediatricians' knowledge, training, and experience in the care of children with fetal alcohol syndrome. *Pediatrics* 2006;118:e657-68.
34. Wedding D, Kohout J, Mengel MB, Ohlemiller M, Ulione M, Cook K, et al. Psychologists' knowledge and attitudes about fetal alcohol syndrome, fetal alcohol spectrum disorders, and alcohol use during pregnancy. *Prof Psychol Res Pr* 2007;38:208.
35. Jakobsson I-L. Diagnos i skolan. En studie av skolsituationer för elever med syndromdiagnos. 2002. Acta Universitatis Gothoburgensis . ISBN 91-7346-447-3. ISSN 0436-1121.
36. Bertrand J, Interventions for children with Fetal Alcohol Spectrum Disorders Research Consortium. Interventions for children with fetal alcohol spectrum disorders (FASDs): overview of findings for five innovative research projects. *Res Dev Disabil* 2009;30:986-1006.
37. Popova S, Lange S, Shield K, Mihic A, Chudley AE, Mukherjee RA, et al. Comorbidity of fetal alcohol spectrum disorder: a systematic review and meta-analysis. *Lancet* 2016;387:978-87.
38. CASP. Critical Appraisal Skills Programme. Tillgänglig från <http://www.casp-uk.net/casp-tools-checklists>. Nedladdad 161116.
39. Graneheim UH, Lundman B. Qualitative content analysis in nursing research: concepts, procedures and measures to achieve trustworthiness. *Nurse Educ Today* 2004;24:105-12.
40. Sandelowski M. Focus on research methods-whatever happened to qualitative description? *Res Nurs Health* 2000;23:334-40.
41. Balshem H, Helfand M, Schunemann HJ, Oxman AD, Kunz R, Brozek J, et al. GRADE guidelines: 3. Rating the quality of evidence. *J Clin Epidemiol* 2011;64:401-6.
42. SBU. Etiska aspekter på åtgärder inom hälso- och sjukvården. Tillgänglig från [http://www.sbu.se/globalassets/ebm/metodbok/mall\\_etiska\\_aspekter.pdf](http://www.sbu.se/globalassets/ebm/metodbok/mall_etiska_aspekter.pdf). Nedladdad 2016-09-26. 2014.
43. FAS. FAS-föreningen. Tillgänglig från <http://www.fasportalen.se/>. Nedladdad 2016-08-23.
44. PCIG. HTAi Interest Group on Patient and Citizen Involvement in HTA (PCIG). Tillgänglig från HTAi Interest Group on Patient and Citizen Involvement in HTA (PCIG). Nedladdad 2016-06-01.
45. Church MW, Eldis F, Blakley BW, Bawle EV. Hearing, language, speech, vestibular, and dentofacial disorders in fetal alcohol syndrome. *Alcohol Clin Exp Res* 1997;21:227-37.
46. Egeland GM, Perham-Hester KA, Gessner BD, Ingle D, Berner JE, Middaugh JP. Fetal alcohol syndrome in Alaska, 1977 through 1992: an administrative prevalence derived from multiple data sources. *Am J Public Health* 1998;88:781-6.
47. Bell SH, Stade B, Reynolds JN, Rasmussen C, Andrew G, Hwang PA, et al. The remarkably high prevalence of epilepsy and seizure history in fetal alcohol spectrum disorders. *Alcohol Clin Exp Res* 2010;34:1084-9.
48. Connor PD, Sampson PD, Bookstein FL, Barr HM, Streissguth AP. Direct and indirect effects of prenatal alcohol damage on executive function. *Dev Neuropsychol* 2000;18:331-54.
49. Elgen I, Bruaroy S, Laegreid LM. Complexity of foetal alcohol or drug neuroimpairments. *Acta Paediatr* 2007;96:1730-3.
50. Fuglestad AJ, Boys CJ, Chang PN, Miller BS, Eckerle JK, Deling L, et al. Overweight and obesity among children and adolescents with fetal alcohol spectrum disorders. *Alcohol Clin Exp Res* 2014;38:2502-8.
51. Landgren M, Svensson L, Stromland K, Andersson Gronlund M. Prenatal alcohol exposure and neurodevelopmental disorders in children adopted

- from eastern Europe. *Pediatrics* 2010;125:e1178-85.
52. Rangmar J, Hjern A, Vinnerljung B, Stromland K, Aronson M, Fahlke C. Psychosocial outcomes of fetal alcohol syndrome in adulthood. *Pediatrics* 2015;135:e52-8.
  53. Rangmar J, Sandberg AD, Aronson M, Fahlke C. Cognitive and executive functions, social cognition and sense of coherence in adults with fetal alcohol syndrome. *Nord J Psychiatry* 2015;69:472-8.
  54. Steinhausen HC, Von Gontard A, Spohr HL, Hauffa BP, Eiholzer U, Backes M, et al. Behavioral phenotypes in four mental retardation syndromes: fetal alcohol syndrome, Prader-Willi syndrome, fragile X syndrome, and tuberous sclerosis. *Am J Med Genet* 2002;111:381-7.
  55. Viljoen DL, Gossage JP, Brooke L, Adnams CM, Jones KL, Robinson LK, et al. Fetal alcohol syndrome epidemiology in a South African community: a second study of a very high prevalence area. *J Stud Alcohol* 2005;66:593-604.
  56. Lee HS, Jones KL, Lee HK, Chambers CD. Fetal alcohol spectrum disorders: Clinical phenotype among a high-risk group of children and adolescents in Korea. *Am J Med Genet A* 2016;170:19-23.
  57. Kvigne VL, Leonardson GR, Neff-Smith M, Brock E, Borzelleca J, Welty TK. Characteristics of children who have full or incomplete fetal alcohol syndrome. *J Pediatr* 2004;145:635-40.
  58. Mattson SN, Roesch SC, Fagerlund A, Autti-Ramo I, Jones KL, May PA, et al. Toward a neurobehavioral profile of fetal alcohol spectrum disorders. *Alcohol Clin Exp Res* 2010;34:1640-50.
  59. May PA, Gossage JP, Marais AS, Adnams CM, Hoyme HE, Jones KL, et al. The epidemiology of fetal alcohol syndrome and partial FAS in a South African community. *Drug Alcohol Depend* 2007;88:259-71.
  60. May PA, Fiorentino D, Coriale G, Kalberg WO, Hoyme HE, Aragon AS, et al. Prevalence of children with severe fetal alcohol spectrum disorders in communities near Rome, Italy: new estimated rates are higher than previous estimates. *Int J Environ Res Public Health* 2011;8:2331-51.
  61. May PA, Keaster C, Bozeman R, Goodover J, Blankenship J, Kalberg WO, et al. Prevalence and characteristics of fetal alcohol syndrome and partial fetal alcohol syndrome in a Rocky Mountain Region City. *Drug Alcohol Depend* 2015;0.
  62. Carr JL, Agnihotri S, Keightley M. Sensory processing and adaptive behavior deficits of children across the fetal alcohol spectrum disorder continuum. *Alcohol Clin Exp Res* 2010;34:1022-32.
  63. O'Connor MJ, Shah B, Whaley S, Cronin P, Gunderson B, Graham J. Psychiatric illness in a clinical sample of children with prenatal alcohol exposure. *Am J Drug Alcohol Abuse* 2002;28:743-54.
  64. Fuglestad AJ, Whitley ML, Carlson SM, Boys CJ, Eckerle JK, Fink BA, et al. Executive functioning deficits in preschool children with Fetal Alcohol Spectrum Disorders. *Child Neuropsychol* 2014;0:1-16.
  65. O'Connor MJ, Kogan N, Findlay R. Prenatal alcohol exposure and attachment behavior in children. *Alcohol Clin Exp Res* 2002;26:1592-1602.
  66. Jones KL, Hoyme HE, Robinson LK, Del Campo M, Manning MA, Prewitt LM, et al. Fetal alcohol spectrum disorders: Extending the range of structural defects. *Am J Med Genet A* 2010;152A:2731-5.
  67. Hagström. E, Lindberg. E. Det är inget påhittat, inget som går över och det kan inte medicineras bort – En studie om föräldrars och skolkuratorers upplevelser kring hur barn med alkoholskador bemöts av samhället. Kandidatuppsats. Göteborgs universitet. Available from <https://gupea.ub.gu.se/handle/2077/44575>. Nedladdad 2016-08-23. 2016.
  68. Stade B, Beyene J, Buller K, Ross S, Patterson K, Stevens B, et al. Feeling different: the experience of living with fetal alcohol spectrum disorder. *J Popul Ther Clin Pharmacol* 2011;18:e475-85.
  69. Salmon JV, Buetow SA. An exploration of the experiences and perspectives

- of New Zealanders with fetal alcohol spectrum disorder. *J Popul Ther Clin Pharmacol* 2012;19:e41-50.
70. Coons KD, Watson SL, Schinke RJ, Yantzi NM. Adaptation in families raising children with fetal alcohol spectrum disorder. Part I: What has helped. *J Intellect Dev Disabil* 2016;41:150-65.
  71. Johnston S, Boyle JS. Northern British Columbian Aboriginal mothers: raising adolescents with fetal alcohol spectrum disorder. *J Transcult Nurs* 2013;24:60-7.
  72. Michaud D, Temple V. The complexities of caring for individuals with fetal alcohol spectrum disorder: The perspective of mothers. *J Dev Disabil* 2013;19:94-101.
  73. Sanders JL, Buck G. A long journey: Biological and non-biological parents' experiences raising children with FASD. *J Popul Ther Clin Pharmacol* 2010;17:e308-e322.
  74. Gardner J. Fetal Alcohol Syndrome. *MCN Am J Matern Child Nurs* 2000;25:252-7.
  75. Granitsas J. Experiences of Adoptive Parents of Children With Fetal Alcohol Syndrome. *Clin Excell Nurse Pract* 2004;8:22-8.
  76. Ryan SM. Instructional tips: Supporting the educational needs of students with fetal alcohol spectrum disorders. *TEACHING Exceptional Children Plus* 2006;3:12.
  77. Mukherjee R, Wray E, Commers M, Hollins S, Curfs L. The impact of raising a child with FASD upon carers: findings from a mixed methodology study in the UK. *Adoption & Fostering* 2013;37:43-56.
  78. Whitehurst T. Raising a child with foetal alcohol syndrome: Hearing the parent voice. *Br J Learn Disabil* 2012;40:187-93.
  79. Salmon J. Fetal alcohol spectrum disorder: New Zealand birth mothers' experiences. *Can J Clin Pharmacol* 2008;15:e191-213.
  80. Chamberlain K, Reid N, Warner J, Shelton D, Dawe S. A qualitative evaluation of caregivers' experiences, understanding and outcomes following diagnosis of FASD. *Res Dev Disabil* 2016;0
  81. Watson S, Hayes S, Radford-Paz E, Coons K. 'I'm hoping, I'm hoping...' Thoughts about the future from families of children with autism or fetal alcohol spectrum disorder in Ontario. *J Dev Disabil* 2013;19:76-93.
  82. Ryan S, Ferguson DL. On, yet under, the radar: students with fetal alcohol syndrome disorder. *Except Child* 2006;72:363-79.
  83. Watson SL, Hayes SA, Coons KD, Radford-Paz E. Autism spectrum disorder and fetal alcohol spectrum disorder. Part II: a qualitative comparison of parenting stress. *J Intellect Dev Disabil* 2013;38:105-13.
  84. SBU. ADHD – Diagnostik och behandling, vårdens organisation och patientens delaktighet. En systematisk litteraturoversikt. Stockholm: Statens beredning för medicinsk utvärdering (SBU); 2013. SBU-rapport nr 217. ISBN 91-85413-58-4.
  85. Kvigne VL, Leonardson GR, Borzelleca J, Neff-Smith M, Welty TK. Hospitalizations of children who have fetal alcohol syndrome or incomplete fetal alcohol syndrome. *S D Med* 2009;62:97, 99, 101-3.
  86. Popova S, Lange S, Burd L, Rehm J. Cost attributable to Fetal Alcohol Spectrum Disorder in the Canadian correctional system. *Int J Law Psychiatry* 2015;41:76-81.
  87. Popova S, Stade B, Lange S, Rehm J. A model for estimating the economic impact of fetal alcohol spectrum disorder. *J Popul Ther Clin Pharmacol* 2012;19:51-65.
  88. Thanh NX, Jonsson E. Costs of fetal alcohol spectrum disorder in the Canadian criminal justice system. *J Popul Ther Clin Pharmacol* 2015;22:e125-31.
  89. Popova S, Lange S, Burd L, Nam S, Rehm J. Special education of children with fetal alcohol spectrum disorder. *Exceptionality* 2016;24:165-75.
  90. Hovstadius B, Ericson L, Magnusson L. Hälsoekonomisk studie av barn och

- vuxna med fetalt alkoholsyndrom. NKA Linnéuniversitetet. Barn som anhöriga 2015:10. ISBN 978-91-87731-30-3. 2015.
91. Ericson L, Magnusson L, Hovstadius B. Societal costs of fetal alcohol syndrome in Sweden. *The Eur J Health Econ* 2016;1-11.
  92. Axberg U, Hansson K, Broberg AG. Evaluation of the Incredible Years Series – An open study of its effects when first introduced in Sweden. *Nord J Psychiatry* 2007;61:143-51.
  93. Kling A, Forster M, Sundell K, Melin L. A randomized controlled effectiveness trial of parent management training with varying degrees of therapist support. *Behav Ther* 2010;41:530-42.
  94. Stattin H, Enebrink P, Özdemir M, Giannotta F. A national evaluation of parenting programs in Sweden: The short-term effects using an RCT effectiveness design. *J Consult Clin Psychol* 2015;83:1069.
  95. Thorell LB. The Community Parent Education Program (COPE): Treatment effects in a clinical and a community-based sample. *Clin Child Psychol Psychiatry* 2009;14:373-87.
  96. Östberg F, Rydell AM. Bedömningar och beslut. Från anmälan till insats i den sociala barnvården. Stockholms Universitet. ISBN 978-91-7155-976-0, ISSN 0281-6288. 2010.
  97. SBU. Program för att förebygga psykisk ohälsa hos barn. En systematisk litteraturöversikt. Stockholm: Statens beredning för medicinsk utvärdering (SBU); 2010. SBU-rapport nr 202. ISBN 978-91-85413-38-6.
  98. Pelech W, Badry D, Daoust G. It takes a team: Improving placement stability among children and youth with fetal alcohol spectrum disorder in care in Canada. *Child Youth Serv Rev* 2013;35:120-7.
  99. O'Connor MJ, Laugeson EA, Mogil C, Lowe E, Welch-Torres K, Keil V, et al. Translation of an evidence-based social skills intervention for children with prenatal alcohol exposure in a community mental health setting. *Alcohol Clin Exp Res* 2012;36:141-52.
  100. O'Connor MJ, Frankel F, Paley B, Schonfeld AM, Carpenter E, Laugeson EA, et al. A controlled social skills training for children with fetal alcohol spectrum disorders. *J Consult Clin Psychol* 2006;74:639-48.
  101. Keil V, Paley B, Frankel F, O'Connor MJ. Impact of a social skills intervention on the hostile attributions of children with prenatal alcohol exposure. *Alcohol Clin Exp Res* 2010;34:231-41.
  102. Nash K, Stevens S, Greenbaum R, Weiner J, Koren G, Rovet J. Improving executive functioning in children with fetal alcohol spectrum disorders. *Child Neuropsychol* 2015;21:191-209.
  103. Wells AM, Chasnoff IJ, Schmidt CA, Telford E, Schwartz LD. Neurocognitive habilitation therapy for children with fetal alcohol spectrum disorders: an adaptation of the Alert Program(R). *Am J Occup Ther* 2012;66:24-34.
  104. Coles CD, Kable JA, Taddeo E. Math performance and behavior problems in children affected by prenatal alcohol exposure: intervention and follow-up. *J Dev Behav Pediatr* 2009;30:7-15.
  105. Kable JA, Coles CD, Taddeo E. Socio-cognitive habilitation using the math interactive learning experience program for alcohol-affected children. *Alcohol Clin Exp Res* 2007;31:1425-34.
  106. Adnams CM, Sorour P, Kalberg WO, Kodituwakku P, Perold MD, Kotze A, et al. Language and literacy outcomes from a pilot intervention study for children with fetal alcohol spectrum disorders in South Africa. *Alcohol* 2007;41:403-14.
  107. Coles CD, Strickland DC, Padgett L, Bellmoff L. Games that "work": using computer games to teach alcohol-affected children about fire and street safety. *Res Dev Disabil* 2007;28:518-30.
  108. Loomes C, Rasmussen C, Pei J, Manji S, Andrew G. The effect of rehearsal training on working memory span of children with fetal alcohol spectrum disorder. *Res Dev Disabil* 2008;29:113-24.
  109. Kable JA, Coles CD, Strickland D, Taddeo E. Comparing the effectiveness of on-line versus in-person caregiver education and training for behavioral regulation in families of children with

- FASD. *Int J Ment Health Addict* 2012;10:791-803.
110. Kable JA, Taddeo E, Strickland D, Coles CD. Improving FASD children's self-regulation: Piloting phase 1 of the GoFAR intervention. *Child Fam Behav Ther* 2016;38:124-41.
  111. O'Connor MJ, Quattlebaum J, Castaneda M, Dipple KM. Alcohol intervention for adolescents with fetal alcohol spectrum disorders: Project Step Up, a treatment development study. *Alcohol Clin Exp Res* 2016;40:1744-51.
  112. Frankel FH, Myatt R. *Children's friendship training*. Psychology Press; 2003; 1583913084.
  113. Frankel F, Myatt R, Cantwell DP, Feinberg DT. Parent-assisted transfer of children's social skills training: effects on children with and without attention-deficit hyperactivity disorder. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 1997;36:1056-64.
  114. Frankel F, Myatt R, Sugar C, Whitham C, Gorospe CM, Laugeson E. A randomized controlled study of parent-assisted Children's Friendship Training with children having autism spectrum disorders. *J Autism Dev Disord* 2010;40:827-42.
  115. Williams MS, Shellenberger S. *How does your engine run?: A leader's guide to the alert program for self-regulation*. TherapyWorks, Inc.; 1996; 0964304104.
  116. Kable JA, Taddeo E, Strickland D, Coles CD. Community translation of the Math Interactive Learning Experience Program for children with FASD. *Res Dev Disabil* 2015;39:1-11.
  117. Frankel F, Paley B, Marquardt R, O'Connor M. Stimulants, neuroleptics, and children's friendship training for children with fetal alcohol spectrum disorders. *J Child Adolesc Psychopharmacol* 2006;16:777-89.
  118. Dodge KA. Translational science in action: hostile attributional style and the development of aggressive behavior problems. *Dev Psychopathol* 2006;18:791-814.
  119. Kodituwakku PW. A neurodevelopmental framework for the development of interventions for children with fetal alcohol spectrum disorders. *Alcohol* 2010;44:717-28.
  120. Korkman M, Kirk U, Kemp S. *NEPSY II. Administrative Manual*. San Antonio, TX: Psychological Corporation; 2007.
  121. Peadon E, Elliott EJ. Distinguishing between attention-deficit hyperactivity and fetal alcohol spectrum disorders in children: clinical guidelines. *Neuropsychiatr Dis Treat* 2010;6:509-15.
  122. Oesterheld JR, Kofoed L, Tervo R, Fogas B, Wilson A, Fiechtner H. Effectiveness of methylphenidate in Native American children with fetal alcohol syndrome and attention deficit/hyperactivity disorder: a controlled pilot study. *J Child Adolesc Psychopharmacol* 1998;8:39-48.
  123. Doig J, McLennan JD, Gibbard WB. Medication effects on symptoms of attention-deficit/hyperactivity disorder in children with fetal alcohol spectrum disorder. *J Child Adolesc Psychopharmacol* 2008;18:365-71.
  124. O'Malley KD, Koplun B, Dohner VA. Psychostimulant clinical response in fetal alcohol syndrome. *Can J Psychiatry* 2000;45:90-1.
  125. Snyder J, Nanson J, Snyder R, Block G. A study of stimulant medication in children with FAS. In: Streissuth A, Kanter J., editor. *The challenge of fetal alcohol syndrome: Overcoming secondary disabilities*. Seattle, WA: University of Washington Press; 1997. p 64-77.
  126. Soh DW, Skocic J, Nash K, Stevens S, Turner GR, Rovet J. Self-regulation therapy increases frontal gray matter in children with fetal alcohol spectrum disorder: evaluation by voxel-based morphometry. *Front Hum Neurosci* 2015;9:108.
  127. Wozniak JR, Fuglestad AJ, Eckerle JK, Kroupina MG, Miller NC, Boys CJ, et al. Choline supplementation in children with fetal alcohol spectrum disorders has high feasibility and tolerability. *Nutr Res* 2013;33:897-904.
  128. Wozniak JR, Fuglestad AJ, Eckerle JK, Fink BA, Hoecker HL, Boys CJ, et al. Choline supplementation in children with fetal alcohol spectrum disorders: a randomized, double-blind, placebo-con-

- trolled trial. *Am J Clin Nutr* 2015;102: 1113-25.
129. Coles CD, Kable JA, Keen CL, Jones KL, Wertenleki W, Granovska IV, et al. Dose and timing of prenatal alcohol exposure and maternal nutritional supplements: Developmental effects on 6-month-old infants. *Matern Child Health J* 2015;19:2605-14.
130. Who. International Classification of Functioning Disability and Health. Tillgänglig från [http://apps.who.int/iris/bitstream/10665/43737/1/9789241547321\\_eng.pdf](http://apps.who.int/iris/bitstream/10665/43737/1/9789241547321_eng.pdf). Nedladdad 2016-12-20. 2007.
131. Doig JL, McLennan JD, Urchuk L. 'Jumping through hoops': parents' experiences with seeking respite care for children with special needs. *Child Care Health Dev* 2009;35:234-42.
132. Carlsson P. "Hälsoekonomi får allt större roll för sjukvårdens prioriteringar". *Läkartidningen* 2006;103:3617-20, 3622-3.
133. TLV. Tandvårds- och Läkemedelsförmånsverket. Allmänna råd. Tillgänglig från <http://www.tlv.se/tlv/regelverk/allmanna-rad/>. Nedladdad 2016-06-14.
134. Burd L, Klug MG, Bueling R, Martsolf J, Olson M, Kerbeshian J. Mortality rates in subjects with fetal alcohol spectrum disorders and their siblings. *Birth Defects Res A Clin Mol Teratol* 2008;82:217-23.
135. SMER. ADHD – etiska utmaningar. Statens medicinsk-etiska råd. Smer rapport 2015:2. ISBN 978-91-38-24388-6. ISSN 1101-0398.
136. Juth N. Genetic Information-Values and Rights. The morality of presymptomatic genetic testing, Göteborg University; 2005; 9173465348.
137. Zadunayski A, Hicks M, Gibbard B, Godlovitch G. Behind the screen: legal and ethical considerations in neonatal screening for prenatal exposure to alcohol. *Health Law J* 2006;14:105-27.
138. Zizzo N, Di Pietro N, Green C, Reynolds J, Bell E, Racine E. Comments and reflections on ethics in screening for biomarkers of prenatal alcohol exposure. *Alcohol Clin Exp Res* 2013;37: 1451-5.
139. Price KJ, Miskelly KJ. Why ask why? Logical fallacies in the diagnosis of fetal alcohol spectrum disorder. *Ethics Behav* 2015;25:418-426.
140. Todorow M, Paris K, Fantus E. Ethical considerations when communicating a diagnosis of a fetal alcohol spectrum disorder to a child. *J Popul Ther Clin Pharmacol* 2012;19:e361-8.
141. Miller AR. Diagnostic nomenclature for foetal alcohol spectrum disorders: the continuing challenge of causality. *Child Care Health Dev* 2013;39: 810-5.
142. Lowe PK, Lee EJ. Advocating alcohol abstinence to pregnant women: Some observations about british policy. *Health Risk Soc* 2010;12:301-11.
143. Meurk C, Lucke J, Hall W. A bio-social and ethical framework for understanding fetal alcohol spectrum disorders. *Neuroethics* 2014;7: 337-44.
144. Hunting G, Browne AJ. Decolonizing policy discourse: Reframing the 'problem' of fetal alcohol spectrum disorder. *Womens Health Urban Life* 2012; 11:35-53.
145. Armstrong EM, Abel EL. Fetal alcohol syndrome: the origins of a moral panic. *Alcohol Alcohol* 2000;35:276-82.
146. Institute of Medicine. Fetal alcohol syndrome: Diagnosis, epidemiology, prevention, and treatment. Washington, DC, The National Academies Press; 1996; ISBN 978-0-309-07675-3.
147. Swart S, Hall WA, McKee WT, Ford L. Caregivers' management of schooling for their children with fetal alcohol spectrum disorder. *Qual Health Res* 2014; 24:1540-52.
148. Poth C, Pei J, Job JM, Wyper K. Toward intentional, reflective, and assimilative classroom practices with students with FASD. *Teacher Educator* 2014;49:247-64.



149. Reid N, Dawe S, Shelton D, Harnett P, Warner J, Armstrong E, et al. Systematic Review of Fetal Alcohol Spectrum Disorder Interventions Across the Life Span. *Alcohol Clin Exp Res* 2015;39:2283-95.



# Bilaga 1

## **Beskrivning av inkluderade studier/Characteristics of included studies**

**Table 1.1** Physical and functional disabilities, and social situation – FAS.

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Bell et al 2010 [1] Canada	Study of Medical records	n=15 <sup>1</sup> <b>Age</b> 2–49 <b>Gender</b> Female: 40, male: 60 <b>Diagnostic criteria and methods</b> Clinically assessed [2] <b>Demographic background</b> <b>Socioeconomics</b> NR  <b>Family circumstances</b> NR  <b>Ethnic group</b> NR  <b>Exposure to other drugs</b> NR	<b>Prevalence of Epilepsy and Seizures</b> <b>%, 95% CI (LL, UL) (n/N)</b> <b>No seizures</b> 80%, CI (60, 100), (12/15)  <b>More than, or equal to 1 seizure episode(s)</b> 20%, CI (–0.2, 40.2), (3/15)  <b>Epilepsy</b> 0%, (0/15)  <b>All seizures</b> 20%, CI (–0.2, 40.2), (62/339)	Moderate Mostly FASD Difficult to separate outcomes in this study

*The table continues on the next page*

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Church et al 1997 [3] USA	Medical records reviews	N=22 <b>Age</b> 3–26 <b>Gender</b> Female: 14, male: 8 <b>Diagnostic criteria and methods</b> Clinically assessed, using Rosett diagnostic criteria <b>Demographic background</b> <b>Socioeconomics</b> NR  <b>Family circumstances</b> NR  <b>Ethnic group</b> 14/22 Afro-American 8/22 Caucasian  <b>Exposure to other drugs</b> NR Other	Hearing, language and speech disorders in children with FAS  <b>Central hearing disorder</b> 12/22  <b>Language disorder</b> 19/22  <b>Speech pathology</b> 18/22	Moderate

The table continues on the next page

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Connor et al 2000 [4] USA	Clinic-based study <b>Measures</b> The Wechsler Adult Intelligence Scale-Revised (WAIS-R)	FAS, n=15 <sup>2</sup> <b>Diagnostic criteria and methods</b> Clinically assessed [5] <b>Age in years</b> 18–24.9: n=10 25–39: n=5 <b>Gender</b> Female: 0, male: 15 <b>Demographic background</b> <b>Socioeconomics</b> NR  <b>Family circumstances</b> NR  <b>Ethnic group etc.</b> NR  <b>Exposure to other drugs</b> NR	<b>IQ</b> Mean (SD) Full scale IQ 83.9 (12.9)	Moderate

The table continues on the next page

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Egeland et al 1998 [6] USA	<b>Study design</b> Medical record study  <b>Methods used to measure outcome</b> Medical record study of paediatric evaluation of prevalence of deficits	n=145  <b>Birth years</b> 1973–1992  <b>Gender</b> NR  <b>Diagnostic criteria and methods</b> Assessment of FAS from medical records  <b>Demographic background</b> <b>Socioeconomics</b> NR  <b>Family circumstances</b> NR  <b>Ethnic group</b> 83% Alaska natives 12% Caucasian 4% Afro-American  <b>Exposure to other drugs</b> 39% tobacco use 8% marijuana 8% cocaine Other	<b>Central nervous system impairment %, 95% CI (LL, UL)</b>  <b>Developmental delay (e.g. speech and motor)</b> 76% CI (68.9, 82.8)  <b>Learning disability or intellectual disability</b> 20% CI (13.5, 26.5)  <b>Seizures</b> 20% CI (13.5, 26.5)  <b>Strabismus</b> 23% CI (15.9, 29.6)  <b>Congenital heart disease</b> 18% CI (11.7, 24.2)	Moderate

The table continues on the next page

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Elgen et al 2007 [7] Norway	<b>Study design</b> Clinical assessments	n=25 <sup>3</sup> <b>Mean age in years (SD)</b> NR <b>Gender</b> Female: 13, male: 12 <b>Diagnostic criteria and methods</b> Clinically assessed, using CDC (Canadian Diagnostic Guidelines, diagnostic criteria [2]) <b>Demographic background</b> <b>Socioeconomics</b> NR <b>Family circumstances</b> NR <b>Ethnic group</b> NR <b>Exposure to other drugs</b> NR Other	<b>Mental health status</b> <b>Referred child psychiatry</b> 9/23 <b>ADHD</b> 22/23 <b>Prescribed methylphenidate (for symptoms of ADHD)</b> 10/23 <b>Intellectual disability</b> 13/23	Low

The table continues on the next page



Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Famy et al 1998 [8] USA	<b>Study design</b> Structural interviews for DSM-IV in adults with FAS	n=11 <sup>4</sup> <b>Mean age in years</b> 28.8 Range 19–51 <b>Gender</b> Female: 5, male: 6 <b>Diagnostic criteria and methods</b> NR <b>Demographic background</b> <b>Socioeconomics</b> NR <b>Family circumstances</b> NR <b>Ethnic group</b> NR <b>Exposure to other drugs</b> NR Other	<b>DSM diagnoses in adults with FAS</b> <b>Alcohol or drug dependence</b> 6/11  <b>Major depressive disorder</b> 4/11  <b>Psychotic disorders</b> 5/11  <b>Brief psychotic disorder</b> 5/11  <b>Bipolar I disorder</b> 1/11  <b>Anxiety disorders</b> 2/11  <b>Eating disorders</b> 2/11  <b>Dysthymic disorder</b> 1/11	Low

The table continues on the next page

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Fuglestad et al 2014 [9] USA	<p><b>Study design</b> A study examining the overweight of children with FASD 2005 and 2013</p> <p><b>Methods used to measure outcome</b> University of Minnesota FAS clinic or International Adoption clinic</p>	<p>n=64<sup>§</sup></p> <p><b>Mean age in years (SD)</b> 9.5 (4.9)</p> <p><b>Gender</b> Female: 36%, male: 64%</p> <p><b>Diagnostic criteria and methods</b> Assessment FAS and IQ at the University of Minnesota FAS clinic or International Adoption clinic. Diagnosis IOM criteria at Institute of Medicine [10]</p> <p><b>Demographic background</b> <b>Socioeconomics</b> NR</p> <p><b>Family circumstances</b> NR</p> <p><b>Ethnic group</b> NR</p> <p><b>Exposure to other drugs</b> NR Other</p>	<p>IQ and BMI</p> <p><b>Mean full IQ (SD)</b> 81 (16)</p> <p><b>Weight and BMI</b> <b>95% CI (LL, UL)</b></p> <p><b>Underweight</b> 17% CI (6.7, 24.5)</p> <p><b>Healthy weight</b> 69% CI (57.4, 80.1)</p> <p><b>Overweight</b> 6% CI (0.3, 12.2)</p> <p><b>Obese</b> 8% CI (12.2, 14.4)</p> <p><b>BMI percentile</b> Mean 37.8 (SD 32.1)</p>	<p>Moderate</p> <p>34% among those with FASD were obese which is not different from the US prevalence. Socio-economic factors, education and childhood nutrition, etc. are of great importance for presence of obesity, regardless of FASD</p>

The table continues on the next page

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Kvigne et al 2004 [11] USA	Two retrospective case-control studies of Northern Plains American-Indian children, identified from 1981 to 1993. Study of Medical records	n=43 FAS Diagnostic criteria and methods: the International Classification of Diseases, Ninth Revision, Clinical Modification (ICD-9-CM), Code 760.71 Mean age: 10.0 Range: 4–21 years	<b>Outcomes % of the FAS-group</b> Hearing loss: 20.0 Behaviour problems: 90.7 Developmental delay: 74.4 Speech/language delay: 69.8 Seizures: 30.2 Attention deficit disorder: 20.9 Hyperactivity: 20.9 Short attention span: 18.6 Learning disabilities: 23.3 School failures: 16.3 Mental retardation: 14.0 Conduct/behaviour disorder: 11.6 Gross motor developmental delays: 46.5 Fine motor developmental delays: 46.5 Tremulousness: 27.9 Cleft palate: 7.0 Ever hospitalised: 90.7 Children removed from their home: 88.4 Microthalamia: 9.3 Ptosis: 9.3	Moderate

*The table continues on the next page*

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Landgren et al 2010 [12] Sweden	Assessment 5 years after adoption Paediatric, neuropsychological, and ophthalmologic evaluations on somatic health, growth, and structural development, neuropsychological features, and ophthalmologic features  <b>Measures</b> Wechsler Intelligence Scale for Children (WISC-III) Questionnaires from DM-IV Leiter Revised psychologist rating scale	FAS n=21 <sup>6</sup> <b>Diagnostic criteria</b> [10] <b>Diagnostic methods</b> Clinically assessed <b>Age in years (range)</b> 7.5 (4.8–10.5) <b>Gender</b> Female: 3, male: 40 <b>Demographic background</b> Adopted to Sweden from Eastern Europe  <b>Socioeconomics</b> NR  <b>Family circumstances</b> NR  <b>Ethnic group</b> NR  <b>Exposure to other drugs</b> NR	<b>Neurodevelopmental disorders</b> Full IQ, mean: 74  <b>Birth defects (i.e., skeletal, ocular, cardiac)</b> 9/21  <b>Intellectual disability</b> 8/21  <b>Cognitive dysfunction</b> 6/21  <b>Autism</b> 2/21  <b>ADHD</b> 13/21  <b>Conduct disorder</b> 2/21  <b>Developmental coordination disorder</b> 9/21  <b>Obsessive compulsive disorder</b> 1/21  <b>Oppositional-defiant disorder</b> 8/21  <b>Tic disorder</b> 3/21	Low

The table continues on the next page

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Lee et al 2016 [13] Korea	Korean children and adolescents from institutions and orphanages  <b>Diagnostic method</b> Hoyme et al. 2005	n=13 FAS Female: 2, male: 11 Mean age: 12.5 (SD 3.0)	Strabismus: 2/13 Ptosis: 0/13	Moderate
Mattson et al 2010 [14] USA and Finland	<b>Clinical assessments</b> USA and Finland  <b>Diagnostic method</b> Hoyme et al. 2005 and Astley  <b>Measures</b> Wechsler Intelligence Scale for Children (WISC-III) and Leiter Revised	n=41 FAS; 8 subjects from San Diego, California, and 33 from Helsinki, Finland Middle socioeconomic status levels Mean age: 13.7 (SD 3.47) Female: 24, male: 17	Full scale IQ mean: 91.6 (SD 14.37)	Low
May et al 2007 [15] South Africa	Intelligence and behavioural characteristics Diagnostic method: [10]	n=55 FAS First grade children Mean age: 8 years Female: 23, male: 32	Strabismus: 5.5% Ptosis: 18.2% Heart malformations: 1.8% Children in foster care or adoptive placement: 20.4 %	Low
May et al 2015 [16] USA	<b>Setting</b> Rocky Mountain Region City  <b>Diagnostic method</b> Hoyme et al. 2005  <b>Measures</b> Wechsler Abbreviated Scale of Intelligence (WASI; Wechsler, 1999)	n=7 FAS First grade children: Female: 5, male: 2 Mean age: 7 years Predominantly middle class, with average economic indicators similar to small cities and counties in the region	Full scale IQ mean 87.0 (SD 8.25)	Moderate
May et al 2011 [17] Italy	First grade children  <b>Diagnostic method</b> Hoyme et al., 2005 Clinical screening in schools	n=8 FAS Mean age: 6.5 Female: 5, male: 3	Strabismus: 12.5% Ptosis: 0.0%	Low

The table continues on the next page

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Rangmar et al 2015 [18] Sweden	Follow up study on psychosocial outcomes in national registers in Sweden	N=79 <b>Diagnostic criteria and methods</b> Clinically assessed [19] <b>Age</b> 32 (range 18–47) <b>Gender</b> Female: 37%, male: 63% <b>Demographic background</b> NR <b>Exposed to other drugs</b> NR	<b>Psychosocial outcomes %, 95% CI (LL, UL) (n/N)</b> <b>Placed in out-of-home care</b> 81% CI (72.4, 89.7) (64/79) <b>Special education</b> 25% CI (15.5, 35.2) (19/75) <b>Completed</b> Secondary education 46% CI (31.5, 53.9) (32/75) <b>Income and compensation</b> Employed 49% CI (28.9, 51.1) (30/75) <b>Disability pension</b> 31% CI (15.5, 35.2) (19/75) <b>Social welfare</b> 28% CI (13.2, 32.1) (17/75) <b>Educational allowance</b> 0% CI (0.0, 0.0) (0/75)  <i>Variables &amp; outcomes continues on the next page</i>	Low

The table continues on the next page

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Rangmar et al 2015 [18] Sweden			<p><b>Family constellation</b>  <b>Single parent</b>                      4% CI (-0.4, 8.4), (3/75)</p> <p><b>Cohabiting with child</b>                      16% CI (7.7, 24.3), (12/75)</p> <p><b>Biological child</b>                      32% CI (22.7, 44.0), (25/75)</p> <p><b>Criminal acts and sanctions</b>  <b>Record of court conviction</b>                      28% CI (19.0, 39.6), (22/75)</p> <p><b>Convicted of severe crime</b>                      6% CI (1.0, 12.3), (5/75)</p> <p><b>Hospital care due to:</b></p> <p><b>Alcohol disorders</b>                      9% CI (2.6, 15.1), (7/79)</p> <p><b>Illicit drug abuse</b>                      6% CI (1.0, 11.7), (5/79)</p> <p><b>Psychiatric disorder</b>                      33% CI (22.5, 43.3), (26/79)</p> <p><b>Self-inflicted injury/poisoning</b>                      6% CI (1.0, 11.7), (5/79)</p> <p><b>Psychotropic drug prescription</b>                      57% CI (46.1, 68.5), (43/75)</p>	
<i>Continued</i>				

The table continues on the next page

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Rangmar et al 2015 [20] Sweden	Neuropsychological study <b>Measures</b> Sense of coherence	N=20 Diagnostic criteria and methods: Jones et al 1973, partly clinically assessed Partly NR <b>Mean age in years (SD)</b> 30 (8, range 18–41) <b>Gender</b> Female: 13, male: 7 <b>Demographic background</b> <b>Primary school (9 years, including special education)</b> 3/20  <b>Secondary education (including special education)</b> 17/20  <b>Post-secondary education</b> 0/20  <b>Employed</b> 6/20	<b>Sense of coherence</b> Total 112.0 (Max score is 203)  <b>Manageability</b> 36.0 (Max score is 70)  <b>Comprehensibility</b> 34.0 (Max score is 77)  <b>Meaningfulness</b> 37.5 (Max score is 56)	Low

The table continues on the next page



Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Steinhausen et al 2002 [21] Germany, Switzerland	<p><b>Study design</b> A study on behavioural phenotypes in individuals with four different mental retardation: FAS, PWS, FRAX and TSC</p> <p><b>Methods used to measure outcome</b> Diagnostic criteria [22]  Developmental Behaviour Checklist (DBC) Performed in a German paediatric centre</p>	<p>FAS n=387</p> <p><b>Gender</b> Female: 19, male: 19</p> <p><b>Mean age in years (SD)</b> 6.3 (2.7) Range 4–12</p> <p><b>Diagnostic criteria and methods</b> Intelligence testing possible for 24 children with FAS.  "Normal intelligence" in 9/24 children Intellectual disability in 6/24 children  FAS assessment according to the criteria from the Research society on Alcoholism [22]</p> <p><b>DBC</b> 96 behavioural items and 6 subscales</p> <ol style="list-style-type: none"> <li>1. Disruptive</li> <li>2. Self-absorbed</li> <li>3. Communication disturbance</li> <li>4. Anxiety</li> <li>5. Autistic relating</li> <li>6. Antisocial</li> </ol> <p><i>Population continues on the next page</i></p>	<p><b>Behavioural abnormalities</b> <b>Total DBC mean score (SD)</b> 54.1 (31.1) Range 3–133</p> <p><b>Subscale 1 – Disruptive % %, 95% CI (LL, UL) (n/N)</b></p> <p><b>Noisy or boisterous</b> 78.9% CI (66.0, 91.9), (30/38)</p> <p><b>Overly attention-seeking</b> 78.9% CI (66.0, 91.9), (30/38)</p> <p><b>Subscale 2 – Self-absorbed Chews or mouths objects, or body parts</b> 57.9% CI (42.2, 73.6), (22/38)</p> <p><b>Overactive restless, unable to sit still</b> 78.9% CI (66.0, 91.9), (30/38)</p> <p><b>Subscale 3 – Communications disturbance Repeats back what others say like an echo</b> 52.6% CI (36.8, 68.5), (20/38)</p> <p><b>Thoughts are unconnected</b> 52.6% CI (36.8, 68.5), (20/38)</p> <p><i>Variables &amp; outcomes continues on the next page</i></p>	Low

The table continues on the next page

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
<i>Continued</i>				
Steinhausen et al 2002 [21] Germany, Switzerland		<b>Demographic background</b> <b>Socioeconomics</b> NR  <b>Family circumstances</b> NR  <b>Ethnic group etc.</b> NR  <b>Exposure to other drugs</b> NR Other	<b>Subscale 4 – Anxiety</b> <b>Fears particular things or situations</b> 63.2% CI (47.8, 78.5), (24/38)  <b>Subscale 5 – Autistic relating</b> <b>Avoids eye contact</b> 36.8% CI (21.5, 52.2), (14/38)  <b>Laughs or giggles for no obvious reason</b> 39.5% CI (23.9, 55.0), (15/38)  <b>Subscale 6 – Antisocial</b> <b>Hides things</b> 52.6% CI (36.8, 68.5), (20/38)  <b>Further items</b> <b>Cannot attend to one activity for any length of time, poor attention span</b> 81.6% CI (69.3, 93.9), (31/38)  <b>Easily distracted from task</b> 97.4% CI (92.3, 102.5), (37/38)	

The table continues on the next page

Table 1.1 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Viljoen et al 2005 [23] South Africa	4 two-person teams (one expert paediatric dysmorphologist and a physician being trained in FAS diagnosis) worked independently but simultaneously, using standardised assessment criteria	n=64 FAS From 13 elementary schools More than 90% of the children in this study were Afro-Americans; the remainder either Afro-Americans or Caucasians Mean age: 6.5 years Female: 34, male: 30	Hyperactivity: 3.1% Strabismus: 3.1% Ptosis: 6.3% Foster care or adopted: 17.5%	Low

- <sup>1</sup> A subset (FAS n=15) of the total number of participants in the study (N=425).
- <sup>2</sup> A subset (FAS n=15) of the total number of participants in the study (FASD N=30).
- <sup>3</sup> A subset (FAS n=25) of the total number of participants in the study (FASD N=47).
- <sup>4</sup> A subset (FAS n=11) of the total number of participants in the study (FASD N=25).
- <sup>5</sup> A subset (FAS n=64) of the total number of participants in the study (N=445).
- <sup>6</sup> A subset (FAS n=21) of the total number of participants in the study (FASD N=71).
- <sup>7</sup> A subset (FAS n=38) of the total number of participants with various syndromes in the study (N=145).

**CI** = Confidence interval; **DBC** = Developmental Behaviour Checklist; **FRAX** = Fragile X syndrome; **LL** = Lower limit; **N** = Number; **NR** = Not reported; **PWS** = Prader-Willi syndrome; **SD** = Standard deviation; **TSC** = Tuberosclerosis; **UL** = Upper limit

**Table 1.2** Physical and functional disabilities, and social situation – pFAS.

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes*	Risk of bias Comments
Bell et al 2010 [1] Canada	Study of Medical records	n=71 <sup>1</sup> <b>Diagnostic criteria and methods</b> Clinically assessed [2] <b>Age</b> 2–49 <b>Gender</b> Female: 40, male: 60 <b>Demographic background</b> <b>Socioeconomics</b> NR <b>Family circumstances</b> NR <b>Ethnic group</b> NR <b>Exposure to other drugs</b> NR	<b>Prevalence of Epilepsy and Seizures</b> <b>%, 95% CI (LL, UL) (n/N)</b> <b>No seizures</b> 85.9%, CI (78, 94), (61/71) <b>More than, or equal to 1 seizure episode(s)</b> 9.9%, CI (2.9, 16.8), (7/71) <b>Epilepsy</b> 4.2%, CI (–0.5, 8.9), (3/71) <b>All seizures</b> 14.1%, CI (6, 22.2), (10/71)	Moderate Mostly FASD. Difficult to separate outcomes in this study

*The table continues on the next page*

Table 1.2 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes*	Risk of bias Comments
Carr et al 2010 [24] Canada	<p><b>Study design</b> A secondary data analysis. Assessment 2004–2006</p> <p><b>Methods used to measure outcome</b> Canadian guidelines</p> <p>Short Sensory Profile (SSP) Adaptive Behaviour Assessment System (ABAS-II) Wechsler Intelligence Scale IV, WPPSI-III</p>	<p>n=15<sup>2</sup></p> <p><b>Diagnostic criteria and methods</b> Assessment according to Canadian Guidelines for FASD diagnosis at the Foetal Alcohol Spectrum Disorder clinic, (North Western Ontario), including a formal assessment for ADHD</p> <p><b>Mean age in years (SD)</b> 8 (3.1)</p> <p><b>Range</b> 3–14</p> <p><b>Gender</b> Female: 6, male: 9</p> <p><b>Demographic background Socioeconomics</b> NR</p> <p><b>Family circumstances</b> 8 lived with foster parents 5 lived with parents 2 lived with grandparents</p> <p><b>Ethnic group</b> Aboriginal Canadian: 15 (100%)</p> <p><b>Exposure to other drugs</b> NR</p>	<p><b>Sensory processing and adaptive behaviour deficits</b> Short Sensory Profile (SSP)</p> <p><b>Total mean (SD)</b> 135.3 (SD 20.1), range 102–170</p> <p><b>Tactile sensitivity</b> 28.2 (SD 6.4), range max 35, min 15</p> <p><b>Taste/smell sensitivity</b> 15.0 (SD 5.1), range max 20, min 7</p> <p><b>Movement sensitivity</b> 14.5 (SD 1.6), range max 15, min 9</p> <p><b>Under responsive/seeking sensation</b> 18.9 (SD 4.9), range max 28, min 12</p> <p><b>Auditory filtering</b> 15.6 (SD 5.0), range max 25, min 7</p> <p><b>Low energy</b> 25.1 (SD 6.7), range 30, min 12</p> <p><b>Visual Auditory</b> 19.5 (SD 3.5), range max 25, min 15</p> <p><i>Variables &amp; outcomes continues on the next page</i></p>	<p>Moderate</p> <p>Small group, twice as many boys as girls, the age difference was huge but well documented</p>

The table continues on the next page

Table 1.2 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes*	Risk of bias Comments
<i>Continued</i>				
Carr et al 2010 [24] Canada			<b>Full scale IQ Mean (SD)</b> 71.3 (8.4) Range 57–89  <b>Verbal IQ Mean (SD)</b> 68.3 (9.3) Range 55–87  <b>Perceptual IQ Mean (SD)</b> 84.6 (10.9) Range 63–104  <b>ABAS: General Adaptive Composite scores; Adaptive behaviour</b> 69.9 (10.7), range max 84, min 54  <b>Conceptual</b> 71.3 (SD 12.8), range max 92, min 53  <b>Social</b> 71.1 (SD 8.8), range max 84, min 59  <b>Practical</b> 77.5 (SD 12.4), range max 99, min 53	

The table continues on the next page

Table 1.2 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes*	Risk of bias Comments
Fuglestad et al 2014 [9] USA	<p><b>Study design</b> A study examining the overweight of children with FASD 2005–2013</p> <p><b>Methods used to measure outcome</b> University of Minnesota FAS clinic or International Adoption clinic</p>	<p>n=165<sup>3</sup></p> <p><b>Mean age in years (SD)</b> 11.5 (4.8)</p> <p><b>Gender</b> Female: 43%, male: 57%</p> <p><b>Diagnostic criteria and methods</b> Assessment FAS and IQ at the University of Minnesota FASD clinic or International Adoption clinic. Diagnosis IOM criteria at Institute of Medicine</p> <p><b>Demographic background</b> <b>Socioeconomics</b> NR</p> <p><b>Family circumstances</b> NR</p> <p><b>Ethnic group</b> NR</p> <p><b>Exposure to other drugs</b> NR Other</p>	<p><b>IQ and BMI</b></p> <p><b>Mean full IQ (SD)</b> 81 (12)</p> <p><b>Weight and BMI %</b>, 96% CI (LL, UL)</p> <p><b>Underweight</b> 7% CI (2.9, 10.5)</p> <p><b>Healthy weight</b> 53% CI (45.1, 60.3)</p> <p><b>Overweight</b> 22% CI (15.5, 28.1)</p> <p><b>Obese</b> 18% CI (12.2, 24.1)</p> <p><b>BMI percentile</b> Mean 66.0 (SD 30.7)</p>	<p>Moderate</p> <p>34% among those with FASD were obese, which is not different from the US prevalence. Socio-economic factors, education and childhood nutrition, etc. are of great importance for presence of obesity, regardless of FASD</p>

The table continues on the next page

Table 1.2 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes*	Risk of bias Comments
Landgren et al 2010 [12] Sweden	Assessment 5 years after adoption Paediatric, neuropsychological, and ophthalmologic evaluations on somatic health, growth, and structural development, neuropsychological features, and ophthalmologic features  <b>Measures</b> Wechsler Intelligence Scale for Children (WISC-III) Questionnaires from DSM-IV Leiter Revised psychologist rating scale  <b>Diagnostic criteria</b> [10] <b>Diagnostic methods</b> Clinically assessed	n=10 <sup>4</sup> <b>Age in years (range)</b> 7.5 (4.8–10.5) <b>Gender</b> Female: 31, male: 40 <b>Demographic background</b> Adopted to Sweden from Eastern Europe  <b>Socioeconomics</b> NR  <b>Family circumstances</b> NR  <b>Ethnic group</b> NR  <b>Exposure to other drugs</b> NR	Full IQ, mean: 97  <b>Birth defects (i.e., skeletal, ocular, cardiac)</b> 2/10  <b>Intellectual disability</b> 0/10  <b>Cognitive dysfunction</b> 4/10 Autism: 0/10 ADHD: 6/10  <b>Conduct disorder</b> 0/10  <b>Developmental coordination disorder</b> 3/10  <b>Obsessive compulsive disorder</b> 0/10  <b>Oppositional-defiant disorder</b> 3/10  <b>Tic disorder</b> 0/10	Low
May et al 2007 [15] South Africa	South Africa  <b>Diagnostic method</b> Hoyme et al. 2005  <b>Diagnostic criteria and methods</b> Hoyme et al. 2005	n=18 pFAS First grade children Mean age: 8 years Female: 7, male: 11	Strabismus: 0% Ptosis: 5.6% Heart malformations: 5.6% Children in foster care or adoptive placement: 33.3%	Low

The table continues on the next page



Table 1.2 continued

First author Year Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes*	Risk of bias Comments
May et al 2015 USA [16]	<b>Setting</b> Rocky Mountain Region City  <b>Diagnostic method</b> Hoyme et al. 2005  <b>Measures</b> Wechsler Abbreviated Scale of Intelligence (WASI; Wechsler, 1999)	n=19 pFAS First grade children Female: 7, male: 12 Mean age: 7.5 years Compared to the US population, the study community was more Caucasians (+10.8%), less Afro-Americans (-12.1%), more American Indian (+3.8%) and less Hispanic (-13.7%) Predominantly middle class, with average economic indicators similar to small cities and counties in the region	Full scale IQ mean 88.3 (SD 13.14)	Low
May et al 2011 Italy [17]	First grade children Lazio region, Rome  <b>Diagnostic method</b> Hoyme et al, 2005  Clinical screening in schools	n=36 pFAS Mean age: 6.5 Female: 17, male: 19	Strabismus: 5.6% Ptosis: 8.3%	Low

<sup>1</sup> A subset (pFAS n=71) of the total number of participants in the study (N=445).  
<sup>2</sup> A subset (pFAS n=15) of the total number of participants in the study (FASD N=46).  
<sup>3</sup> A subset (pFAS n=165) of the total number of participants in the study (N=445).  
<sup>4</sup> A subset (pFAS n=10) of the total number of participants in the study (FASD N=71).

CI = Confidence interval; DSM-IV = Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, 4th edition; N = Number; NR = Not reported; SD = Standard deviation

**Table 1.3** Physical and functional disabilities, and social situation – ARND/ND-PAE.

First Author Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Bell et al 2010 [1] Canada	Study of Medical records	n= 339 <sup>1</sup> <b>Diagnostic criteria and methods</b> Clinically assessed [2] <b>Age</b> 2–49 <b>Gender</b> Female: 40, male: 60 <b>Demographic background</b> <b>Socioeconomics</b> NR <b>Family circumstances</b> NR <b>Ethnic group</b> NR <b>Exposure to other drugs</b> NR	<b>Prevalence of Epilepsy and Seizures %, 95% CI (LL, UL) (n/N)</b> <b>No seizures</b> 82%, CI (77.6, 85.8), (277/339) <b>More than, or equal to 1 seizure episode(s)</b> 12%, CI (8.4, 15.2), (40/339) <b>Epilepsy</b> 7%, CI (3.9, 9.1), (22/339) <b>All seizures</b> 18%, CI (14.2, 22.4), (62/339)	Moderate Mostly FASD. Difficult to separate outcomes in this study

*The table continues on the next page*

Table 1.3 continued

First Author Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Carr et al 2010 [24] Canada	<p><b>Study design</b> A secondary data analysis Assessment 2004–2006</p> <p><b>Methods used to measure outcome</b> Canadian guidelines Short Sensory Profile (SSP) Adaptive Behaviour Assessment System (ABAS-II) Wechsler Intelligence Scale IV, WPPSI-III</p>	<p>n=16<sup>2</sup></p> <p><b>Diagnostic criteria and methods</b> Assessment according to Canadian Guidelines for FASD diagnosis at the Foetal Alcohol Spectrum Disorder clinic, (North Western Ontario), including a formal assessment for ADHD</p> <p><b>Facial phenotype</b> Rank 1: 10 (62%) Rank 2: 6 (38%)</p> <p><b>Age</b> 3–14</p> <p><b>ARND</b> 8 (2.6) Max age: 11, Min age: 3</p> <p><b>Gender</b> ARND; Female: 5 (31%), male: 11 (69%)</p> <p><b>Socioeconomics</b> NR</p> <p><i>Population continues on the next page</i></p>	<p><b>Sensory processing and adaptive behaviour deficits</b> Short Sensory Profile (SSP)</p> <p><b>Total mean (SD)</b> 132.1 (SD 18.7)</p> <p><b>Tactile sensitivity</b> 26.6 (SD 4.6), range max 35, min 17</p> <p><b>Taste/smell sensitivity</b> 12.0 (SD 5.8), range max 20, min 4</p> <p><b>Movement sensitivity</b> 14.4 (SD 1.4), range max 15, min 13</p> <p><b>Under responsive/seeks sensation</b> 21.4 (SD 4.0), range max 29, min 16.</p> <p><b>Auditory filtering</b> 15.6 (SD 4.9), range max 28, min 8</p> <p><b>Low energy</b> 21.5 (SD 7.3), range 30, min 10</p> <p><b>Visual Auditory</b> 20.6 (SD 3.6), range max 25, min 13</p> <p><i>Variables &amp; Outcomes continues on the next page</i></p>	<p>Moderate</p> <p>Small group, twice as many boys as girls, the age difference was huge</p>

*The table continues on the next page*

Table 1.3 continued

First Author Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
<i>Continued</i>				
Carr et al 2010 [24] Canada		<p><b>Family circumstances</b> Majority foster parents 10 (62%)</p> <p><b>Ethnic group etc.</b> Aboriginal Canadian 13 (81%)</p> <p><b>Exposure to other drugs</b> NR Other NR</p>	<p><b>Full scale IQ Mean (SD)</b> 86.7 (13.1), range max 110, min 68</p> <p><b>ARND</b> <b>Verbal IQ</b> 80.6 (SD 14.2), range max 104, min 56</p> <p><b>Perceptual IQ</b> 101.2 (SD 14.3), range max 133, min 75</p> <p><b>ABAS: General Adaptive</b> <b>Composite scores</b> 63.4 (10.3), range max 77, min 45</p> <p><b>Conceptual</b> 66.8 (SD 12.9), range max 89, min 48</p> <p><b>Social</b> 67.2 (SD 10.3), range max 89, min 48</p> <p><b>Practical</b> 70.6 (SD 16,6), range max 109, min 46</p>	

*The table continues on the next page*

Table 1.3 continued

First Author Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Fuglestad et al 2014 [9] USA	<p><b>Study design</b> A study examining the overweight of children with FASD 2005–2013</p> <p><b>Methods used to measure outcome</b> University of Minnesota FAS clinic or International Adoption clinic  Diagnosis IOM criteria at Institute of Medicine [10]</p>	<p>n= 216<sup>3</sup></p> <p><b>Age range in years</b> 2–19</p> <p><b>Gender</b> Female: 39%, male: 61%</p> <p><b>Diagnostic criteria and methods</b> Assessment FAS and IQ at the University of Minnesota FASD clinic or International Adoption clinic</p> <p><b>Socioeconomics</b> NR</p> <p><b>Family circumstances</b> NR</p> <p><b>Ethnic group</b> NR</p> <p><b>Exposure to other drugs</b> NR Other</p>	<p>IQ and BMI</p> <p><b>Mean full IQ (SD)</b> 93 (19)</p> <p><b>Weight and BMI %, 95% CI (LL, UL)</b></p> <p><b>Underweight</b> 5% CI (2.2, 8.0)</p> <p><b>Healthy weight</b> 59% CI (52.2, 65.4)</p> <p><b>Overweight</b> 19% CI (13.8, 24.2)</p> <p><b>Obese</b> 17% CI (12.1, 22.2)</p> <p><b>BMI percentile</b> Mean 66.7 (SD 29.5)</p>	<p>Moderate</p> <p>34% among those with FASD were obese which is not different from the US prevalence. Socio-economic factors, education and childhood nutrition, etc. are of great importance for presence of obesity, regardless of FASD</p>

*The table continues on the next page*

Table 1.3 continued

First Author Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Landgren et al 2010 [12] Sweden	Assessment 5 years after adoption Paediatric, neuropsychological, and ophthalmologic evaluations on somatic health, growth, and structural development, neuropsychological features, and ophthalmologic features <b>Measures</b> Wechsler Intelligence Scale for Children (WISC-III) Questionnaires from DSM-IV Leiter Revised psychologist rating scale <b>Diagnostic criteria</b> [10] Diagnostic methods: Clinically assessed	n =6 <sup>4</sup> <b>Age in years (range)</b> 7.5 (4.8–10.5) <b>Gender</b> Female: 31, male: 40 <b>Demographic background</b> Adopted to Sweden from Eastern Europe <b>Socioeconomics</b> NR <b>Family circumstances</b> NR <b>Ethnic group</b> NR <b>Exposure to other drugs</b> NR	Full IQ, mean: 69 WISC III Later revised: 82 <b>Birth defects (i.e., skeletal, ocular, cardiac)</b> 0/6 <b>Intellectual disability</b> 0/6 <b>Cognitive dysfunction</b> 1/6 <b>Autism</b> 0/6 <b>ADHD</b> 2/6 <b>Conduct disorder</b> 0/6 <b>Developmental coordination disorder</b> 4/6 <b>Obsessive compulsive disorder</b> 0/6 <b>Oppositional-defiant disorder</b> 4/6 <b>Tic disorder</b> 2/6	Low

The table continues on the next page

Table 1.3 continued

First Author Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
O'Connor et al 2002 [25] USA	<p><b>Measures</b></p> <p>Clinical examinations</p> <p>Wechsler Intelligence Scale for Children (WISC-III)</p> <p>Child Behaviour Checklist (CBCL)</p> <p>The Foetal Alcohol Behaviour Scale (FABS)</p> <p>The Child Symptom Inventory-4 and The Conners' Rating Scale (CPRS-48)</p>	<p>n = 17<sup>s</sup></p> <p><b>Diagnostic criteria and methods</b></p> <p>Clinically assessed [26]</p> <p><b>Gender</b></p> <p>Female: 5, male: 18</p> <p><b>Demographic background</b></p> <p>6 in foster care</p> <p>14 adopted</p> <p>3 living with biological parents</p> <p>7 Afro-American</p> <p>14 Caucasian</p> <p>1 Latino</p> <p>1 Mixed ethnicity</p> <p><b>Socioeconomics</b></p> <p>NR</p> <p><b>Exposure to other drugs</b></p> <p>NR</p> <p>ARND n = 17</p> <p>Age: Mean age: 8 years and 10 months</p> <p>SD: 2 years and 4 months</p> <p>23 children</p> <p>FAS: 2</p>	<p><b>IQ and psychiatric illness</b></p> <p>IQ mean: 86.12, SD=13.38</p> <p><b>Major depressive disorder</b></p> <p>3/17</p> <p><b>Adjustment disorder/depression</b></p> <p>2/17</p> <p><b>Total depressive disorders</b></p> <p>5/17</p> <p><b>Bipolar disorder</b></p> <p>6/17</p> <p><b>Total mood disorders</b></p> <p>11/17</p> <p><b>ADHD</b></p> <p>1/17</p> <p><b>Reactive attachment disorder</b></p> <p>1/17</p> <p><b>Pervasive developmental disorder</b></p> <p>1/17</p> <p><i>Variables &amp; outcomes continues on the next page</i></p>	<p>Moderate</p> <p>Only children with IQ equal to, or greater than 70, were included in the sample</p>

The table continues on the next page

Table 1.3 continued

First Author Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
<i>Continued</i>			<b>Anxiety disorders</b> 0/17	
O'Connor et al 2002 [25] USA			<b>Psychotic disorder</b> 0 /17	
			<b>No diagnosis</b> 3 /17	

- <sup>1</sup> A subset (ARND n=339) of the total number of participants in the study (N=425).  
<sup>2</sup> A subset (ARND n=15) of the total number of participants in the study (FASD N=46).  
<sup>3</sup> A subset (ARND n=216) of the total number of participants in the study (N=445).  
<sup>4</sup> A subset (ARND n=6) of the total number of participants in the study (FASD N=71).  
<sup>5</sup> A subset (ARND n=17) of the total number of participants in the study (FASD N=23).

**ARND** = Alcohol-related neurodevelopmental disorder; **CI** = Confidence interval; **DSM-IV** = Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, 4th edition; **F** = Female; **LL** = Lower limit; **M** = Male; **N** = Number; **NR** = Not reported; **SD** = Standard deviation; **UL** = Upper limit



**Table 1.4** Physical and functional disabilities, and social situation – ARBD.

First Author Reference Country	Study design Methods used to measure outcome Follow-up time	Population	Variables & Outcomes	Risk of bias Comments
Landgren et al 2010 [12] Sweden	<p>Assessment 5 years after adoption</p> <p>Paediatric, neuropsychological, and ophthalmologic evaluations on somatic health, growth, and structural development, neuropsychological features, and ophthalmologic features.</p> <p><b>Measures</b> Wechsler Intelligence Scale for Children (WISC-III) Questionnaires from DM-IV Leiter Revised psychologist rating scale</p> <p><b>Diagnostic criteria</b> [10]</p> <p><b>Diagnostic methods</b> Clinically assessed</p>	<p>n =8<sup>1</sup></p> <p><b>Age in years (range)</b> 7.5 (4.8–10.5)</p> <p><b>Gender</b> Female: 31; male: 40</p> <p><b>Demographic background</b> Adopted to Sweden from Eastern Europe</p> <p><b>Socioeconomics</b> NR</p> <p><b>Family circumstances</b> NR</p> <p><b>Ethnic group</b> NR</p> <p><b>Exposure to other drugs</b> NR</p>	<p>Full IQ, mean: 69 WISC III</p> <p>Later revised: 82</p>	<p>Low</p> <p>Mostly FASD. Difficult to separate outcomes in this study</p>

<sup>1</sup> A subset (ARBD n=8) of the total number of participants in the study (FASD N=71).

**DSM-IV** = Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, 4th edition; **NR** = Not reported

Table 2 Interventions for children and families.

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
Adnams et al 2007 [27] South Africa	RCT, pilot study. Children assigned to treatment or control  Non-alcohol exposed group for comparison  <b>Diagnosis guide</b> IOM 1996 [10]	<b>Diagnoses</b> FAS (27/36), pFAS (8/36) N=36  <b>Gender</b> 52.8% male  <b>Age</b> 9–10 years	Scholastic and language and literacy tests at baseline + post intervention	<b>Intervention</b> Language and literacy intervention program:  Half an hour twice per week during 9 months (38 h). Administered during school time to groups of five. Program focusing on language therapy, phonological awareness, literacy training  <b>Control</b> Not described	General scholastic tests: n.s. differences post intervention between groups  Language and literacy test (PAELT): mean gain for intervention group 0.31 to 1.2 SD above the increase in score over time in control group	Moderate

*The table continues on the next page*

Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
Coles et al 2007 [28] USA	Randomisation into two groups receiving one of two different interventions	<p><b>Diagnoses</b> FAS or partial FAS based on standardised criteria (Stratton et al, 1996)</p> <p>N=32</p> <p><b>Age</b> 4–10 years (mean 6.92, SD 1.788)</p> <p><b>Gender</b> 65.6% male</p> <p>Cognition in the borderline range</p>	<p>Assessments of safety skills performed for both groups and both kinds of intervention</p> <p>Correct response at pre- and post-test and 1 week follow-up</p>	<p>Computer games for teaching skills in fire and street safety; the children were allowed to play each game until mastery</p> <p>In each group, n=16, children performed both as experimental and control subjects</p>	<p><b>Post test</b> <b>Street % correct answer</b> <b>Take adult hand</b> F: 25; S: 37.5</p> <p><b>Look LRL</b> F: 62.5; S: 56.3</p> <p><b>Check for cars</b> F: 12.5; S: 25</p> <p><b>Stay in lines</b> F: 0; S: 25</p> <p><b>Fire % correct answer</b> <b>Move away</b> F: 18.8; S: 12.5</p> <p><b>Walk out of house</b> F: 68.8; S: 31.3</p> <p><b>Go to meeting place</b> F: 43.8; S: 0</p> <p><b>Sit and wait</b> F: 31; S: 0</p> <p><b>Follow-up</b> <b>Street % correct answer</b> <b>Take adult hand</b> F: 25; S: 50</p> <p><i>Results, Missing data continues on the next page</i></p>	Moderate

*The table continues on the next page*

Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
<i>Continued</i>					<b>Look LRL</b> F: 62.5; S: 50	
Coles et al 2007 [28] USA					<b>Check for cars</b> F: 6.3; S: 43.8	
					<b>Stay in lines</b> F: 0; S: 0	
					<b>Fire % correct answer Move away</b> F: 25; S: 25	
					<b>Walk out of house</b> F: 68.8; S: 31.3	
					<b>Go to meeting place</b> F: 56.3; S: 0	
					<b>Sit and wait</b> F: 38; S: 0	
					<b>% performing 3–4 steps correctly Immediately</b> F: 87.5; S: 81.3	
					<b>One week post</b> F: 81.3; S: 75.1	

The table continues on the next page

Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
Coles et al 2009 [29] USA	Randomisation into two groups receiving intervention or TAU  6-month follow-up	<i>Same sample as Kable [30]</i>  <b>Diagnoses</b> FAS or partial FAS based on standardised criteria (Stratton et al, 1996)  N=54  <b>Age</b> Intervention group (IG): 6.5, SD 2.0 TAU: 6.2, SD 2.1  <b>Gender</b> IG: 57.1% male, TAU: 65.4% male	Child Behaviour Checklist (rated by caregivers)  Teacher Report Form (teachers)  Math achievement, primarily Test of Early Math Ability  Pretest, post-test 2 at 6 months	<i>Same as Kable [30]</i>  <b>Intervention</b> Math interactive learning experience (MILE) program for alcohol-affected children, 6 weeks of extra math training in addition to TAU. Parent training workshops, extra support for learning readiness  <b>Control</b> TAU: Standard psycho- educational program, including development of individual learning plan	<b>Caregiver rating</b> Significant reduction in behavioural disturbances  F (1.46)=37.98, p<0.000, d=0.452  <b>Teacher rating</b> Significant reduction in behavioural disturbances F(1.38)=5.40, p<0.026, d=0.124. No significant differences between groups  <b>Math treatment effect</b> Significant higher gains in intervention group F(1.51)=5.4, p<0.02, greater proportion clinically significant gains: 68.4% vs. 38.5% in TAU group (X2 (1)=3.6, p<0.05)	Moderate

The table continues on the next page

Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
Kable et al 2015 [31] USA	Randomisation into three groups receiving different intervention conditions	<b>Diagnoses</b> FAS or partial FAS based on standardised criteria (Stratton et al, 1996) or alcohol-related dysmorphia N=60 <b>Age</b> Mean 6–7 years, only presented per group <b>Gender</b> 44.4–53.3% male	Math achievement, assessed with three instruments: Bracken, TEMA and Handwriting measure. Group effects measured pre- and post-test Instructor satisfaction – not presented here Parent satisfaction with program – not presented here	<b>Intervention</b> Math interactive learning experience (MILE) program for alcohol-affected children  <b>Group 1</b> Information on FAS and instructions for math learning at home to parents  <b>Group 2</b> Information on FAS to parents + MILE program at research centre. 15 weeks of tutorial services  <b>Group 2</b> Information on FAS to parents + MILE program in the community setting, 15 weeks of extra math training over 1 year	Math outcome: Significant time by treatment group effect, MILE intervention groups more positive gains than parent instruction only group F(2,41)=3.4, p<0.04, partial eta-squared=0.139	Moderate

The table continues on the next page

Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
Kable et al 2007 [30] USA	Randomisation into two groups receiving intervention or TAU	<b>Diagnoses</b> FAS or partial FAS based on standardised criteria (Stratton et al, 1996)  N=61 <b>Age</b> Intervention group (IG): 6.5, SD 2.0 TAU: 6.2, SD 2.1 <b>Gender</b> IG: 51.7% male, TAU: 65.4% male	Child Behaviour Check List (CBCL, rated by caregivers)  Math achievement, primarily Test of Early Math Ability  Pre- and post-test	<b>Intervention</b> Math interactive learning experience (MILE) program for alcohol-affected children, 6 weeks of extra math training in addition to TAU. Parent training workshops, extra support for learning readiness  <b>Control</b> TAU: Standard psycho-educational program, including development of individual learning plan	Intervention group significantly fewer behaviour problems at post-test  Internalising problem behaviour F(1.50)=8.1, p<0.006, Externalising F(1.50)=21.9, p<0.000, Total F(1.50)=15.4, p<0.000 <b>Math treatment effect</b> Significant improvement in both groups, significant higher in intervention group F(3.43)=2.97, p<0.04	Moderate
Kable et al 2012 [32] USA	Randomisation into three groups receiving parent education  1. Community standard/informational packet (C)  2. Group workshop (W)  3. Internet training (I)	<b>Diagnoses</b> FAS, pFAS or significant levels of alcohol-related dysmorphia  N=59 <b>Age</b> Mean (SD) C=6.17 (2.9) years W=6.72 (3.4) years I=7.34 (2.7) years <b>Gender</b> Male C=66.7% W=43.5% I= 33.3%	Improvement behaviour (parental judgements)  Pre- and post-test	<b>Intervention</b> Parent education C, W, I  <b>Control</b> Before and after	Caregiver knowledge (parent questionnaires): significant gains in all groups  Child behavioural functioning (pre- to post-test)  Total problem behaviour W (t (1.21) =2.7 p<0.014, partial eta squared =0.254	High (High dropout rate in the internet group)

The table continues on the next page

Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
Kable et al 2016 [33] USA	RCT	<p><b>Diagnosis</b> FASD (FAS or pFAS or alcohol related physical features)</p> <p>Age child 5–10 years, mean 6.8–7.4 years (Caregiver mean 46.8–52.6 years)</p> <p>Mean age varies within the groups n=28</p> <p>Male 40–77.8% Female 60–22.2%</p>	Disruptive behaviour (average temper tantrums per day, frustration level, aggression, impulsivity, destructiveness, poor sustained mental effort)	<p><b>Intervention</b> Group 1: Child: GoFAR game Group 2: Faceland game, 5 sessions 1 hour long Both groups: Caregiver, 5 sessions and 9 homework assessments with learning goals</p> <p><b>Control</b> Time elapsed control group no intervention</p>	<p>Parent questionnaire concerning behaviour problems (The Disruptive Behaviour Record Form, developed for the study): no multivariate group effect was found</p> <p>Indication that children in GoFAR group had a reduction in frustration level relative to both other groups (p=0.05)</p> <p>For one of 6 variables (sustained mental effort), a treatment effect in favour of the GoFAR intervention compared to the group with computer game that was not congruent with the parent education, i.e. not intended to increase self-regulation in the child F(1.7)=5.85 p=0.027, <math>\eta^2=0.26</math></p>	High Pilot study

*The table continues on the next page*



Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
Keil et al 2010 [34] USA	Quasi-experimental: consecutive set of 14/15 children received either intervention or delayed treatment	<b>Diagnosis</b> FAS (11%), pFAS (43%), ARND (46%) (N=100)  Diagnosis guide [35]  All documented PAE, social skills deficits, low IQ  <b>Age</b> 6–12 years (mean 8.59, SD 1.69)  <b>Gender</b> 51% male	Hostile attributions (provocation, group entry)  Children presented with cartoon vignettes of social situations, rated if actors were hostile  Proportions of hostile attributions measured pre- post- and 3 months after intervention  <b>Controls</b> Baseline, at 12 weeks, post-intervention	<b>Intervention</b> Based on Children's Friendship Training (CFT). 12 sessions of social skills training during 3 months, parents assisting. Topics: How to start/enter play at school or home, how to avoid conflict  Group training, instructions, feedback, home assignments  <b>Control</b> Delayed treatment	<b>Provocation</b> n.s. F (1.93) =0.02, p=0.88  <b>Group entry</b> Intervention group (SD)/ delayed control (SD) T1: 0.59 (0.31)/0.54 (0.33) T2: 0.41 (0.41)/0.54 (0.31) T3: 0.44 (0.31)/0.45 (0.33)  Significant treatment effect, F(1.93)=4.70, p<0.05, d=0.42	High  Training program previously tested with ADHD, autism, conduct disorder  Study design other than RCT
Loomes et al 2008 [36] Canada	Experimental design with matched control group  No information of randomisation procedure	<b>Diagnoses</b> FASD, guidelines not specified  <b>Age</b> 4–11 years, Mean: 7.5 years N=33, 14 females/19 males 19/33 aboriginal origin	Improved memory for numbers  Measured by percentage of correctly repeated number series  Pre-test, after 15 minutes of rehearsal training, follow-up at 10 days	Experimenter read a series of single-digit numbers, children were asked to repeat after 10 seconds. Maximum seven digits in a series  Children in experiment group instructed to whisper numbers to themselves for rehearsal	Significant effect of session in experimental group F(2.32)=5, p=0.01  More children in the experimental group showed behavioural evidence of rehearsal	High  Study design other than RCT

The table continues on the next page

Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
Nash et al 2015 [37] Canada	Quasi-experimental: alternating-sequence assignment to immediate or delayed treatment	N=25, age 8–12 years (mean 10.3)  All with FASD, following Canadian Diagnostic Guidelines system or Washington Four- digit code system  Additional diagnoses ADHD, ODD, learning disabilities	Cognitive and socio- affective executive functions, measured in children by selected subtests from a number of neuropsychological tests (NEPSY-II, TEA-Ch, CANTAB and others)  Baseline + 12 week posttreatment/ wait period  Caretaker ratings: BRIEF, CBCL (Child Behavior Check List), SSIS (Social Skills Improvement System). Baseline + posttreatment + 6-month follow-up (treatment group only)	Special clinic at children's hospital  <b>Intervention</b> Alert Program for Self- Regulation, provided on an individual basis, 12 one-hour sessions  <b>Control</b> Delayed treatment	<b>Cognitive executive functions</b> One of seven measured subscales (Inhibition-Naming) revealed significant treatment effect $F(2.20)=6.12$ , $p=0.001$  Socio-affective executive function: One of five measured subscales (Affect Recognition) revealed significant treatment effect $F(2.21)=4.82$ , $p=0.05$  <b>Caregiver ratings</b> Significant treatment effect in one of eight measures: the Behavioral Regulation Index, $F(2.21)=22.6$ , $p=0.01$ , sustained after 6 months	High  Small group ( $n=12+13$ )  Study design other than RCT

The table continues on the next page

Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
O'Connor et al 2006 [38] USA	Quasi-experimental consecutive set of 14/15 children received either intervention or delayed treatment	<i>Same sample as Keil [34]</i> <b>Diagnoses</b> FAS 11% pFAS 43% ARND 46% (N=100) <b>Diagnosis guide</b> Astley 2004. All documented PAE, social skills deficits, low IQ <b>Age</b> 6–12 years (mean 8.59, SD 1.69) <b>Gender</b> 51% male	<b>Children</b> Test of Social Skills Knowledge (17 items) was read to each child <b>Parents and teachers</b> Social Skills Rating System, divided into Social Skills and Problem Behaviours Three measurements: Baseline, post- and 3 months after intervention <b>Controls</b> Baseline, at 12 weeks, post-intervention	<i>Same as Keil [34]</i> <b>Intervention</b> Based on Children's Friendship Training (CFT). 12 sessions of social skills training during 3 months, parents assisting Topics: How to start/enter play at school or home, how to avoid conflict. Group training, instructions, feed- back, home assignments <b>Control</b> Delayed treatment	<b>Children's report</b> Intervention group (SD)/ delayed control (SD) T1: 11.08 (2.42)/11.22 (02.37) T2: 15.02 (1.97)/12.26 (2.35) T3: 15.32 (1.42)/14.87 (2.09) Significant treatment effect, $F(1.90)= 56.52$ , $p<0.001$ , $d=1.28$ <b>Parent report</b> <b>Social skills</b> Intervention group (SD)/ delayed control (SD) $F(1.93)=5.03$ , $p<0.03$ , $d=0.52$ T1: 75.22 (14.33)/72.33 (11.63) T2: 84.39 (14.71)/77.0 (13.54) T3: 89.40 (17.38)/85.24 (15.95)  <i>Results, Missing data continues on the next page</i>	High Study design other than RCT

*The table continues on the next page*

Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
<i>Continued</i>						
O'Connor et al 2006 [38] USA					<p><b>Problem behaviour</b> F(1.93)=4.05, p&lt;0.05, d=0.40 T1: 122.80 (14.63)/ 124.55 (13.28) T2: 116.63 (15.51)/ 122.55 (14.08) T3: 115.05 (15.82)/ 118.6 (13.52)</p> <p><b>Significant treatment effect</b> F(1.93)=5.03, p&lt;0.05, d=0.40</p> <p><b>Teacher report</b></p> <p><b>Social skills, problem behaviour</b> n.s. 3-month follow-up (intervention group only)</p> <p><b>Children's report</b></p> <p><b>Social skills</b> T1–T3 t(48)=11.83, p&lt;0.0001, d=1.73</p>	

*The table continues on the next page*

Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
O'Connor et al 2012 [39] USA	Quasi-experimental: Consecutive set of 14/15 children received either intervention or standard care	<p><b>Diagnoses</b> FAS: None pFAS 11.8% ARND 22.4%</p> <p><b>Diagnosis guide</b> Astley 2004</p> <p>Prenatal alcohol exposed: 37%, "externalising behaviour" as diagnosed by specialist centre: 62.4%</p> <p>N=85 of which 67 completed the study</p> <p><b>Age</b> 6–12 years (mean 8.77, SD 1.62) IQ 94.92, SD 12.43</p> <p><b>Gender</b> 77.6% male</p>	<p>Children's report of social skills knowledge (TSSK), Self-concept scale (Piers-Harris 2). Parent report: Social skills behaviours (SSRS-P)</p> <p>Pre- and post-test for both treatment groups</p>	<p><b>Intervention</b> Children's Friendship Training (CFT). 12 x 90 minutes sessions of social skills training over 3 months, parents assisting</p> <p>Topics: How to start/enter play at school or home, how to avoid conflict. Group training, instructions, feedback, home assignments</p> <p><b>Control</b> Standard of Care (SOC) at specialist centre. 12 x 90 minutes over 3 months. Group sessions, discussions on topics chosen by adults</p> <p>No parental participation</p>	<p>TSSK: Children in CFT group significantly improved knowledge of social skills compared to SOC group F(1.62)=21.34, p &lt;0.0001</p> <p>Piers-Harris 2: Children in CFT group significantly improved overall self-concept compared to SOC group F=4.21 (1.62), p &lt;0.05</p> <p><b>Parent report</b> No significant condition effect in overall social skills</p>	<p>High CFT program equally effective for children with prenatal alcohol exposure (PAE) as for those without PAE</p> <p>Study design other than RCT</p>

*The table continues on the next page*

Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
O'Connor et al 2016 [40] USA	Observational (controlled)  Adolescents divided into 4 groups according drinking patterns: Intervention + Abstinent/infrequent (n=15) or Control + Abstinent/ infrequent (n=21) or Intervention + light/ moderate (n=11) and control + light/ moderate (n=7)	<b>Diagnosis</b> FAS/pFAS 85.2% ARND 14.8% IQ of $\geq 70$  <b>Age</b> 13–18 years, mean 15.7 years n=54 44.4% male and 55.6% female	Alcohol consumption and complications: Alcohol use Disorders identification test (AUDIT)  Rutgers alcohol problem index (RAPI)  CRAFFT  Measured pre-, post- and 3 month after intervention	<b>Intervention</b> Step up intervention modified/6 sessions each for adolescents and caregivers  <b>Control</b> Completed pre and post intervention and the follow-up assessments	Abstinent/infrequent drinkers in I and C groups: no difference in outcome measures at post-intervention or at 3-month follow-up  Light/Moderate group  AUDIT: significant after post intervention F 2.33 Cohen's d 95% CI 1.08 (0.07, 1.49)  N.s. after 3 month follow-up F 0.75 Cohen's d 95% CI 0.76 (–0.60, 1.43)  RAPI: significant after post intervention F 2.93 Cohen's d 95% CI 0.99 (0.27, 1.71)  Significant after 3 month follow-up F 2.13 Cohen's d 95% CI 0.83 (0.001, 1.49)	High  Pilot study  Study design other than RCT

The table continues on the next page

Table 2 continued

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
Wells et al 2012 [41] USA	Randomised controlled study	N=78, age 6–12 years FAS: n=21 PFAS: n=10 ARND: n=47 Guidelines followed for diagnosis: Astley and Clarren (FAS), Chasnoff (ARND) Treatment group (tg) n= 40, 67.5% male, control group (cg) n=38, 68.4% male Therapy group: Mean age 8.12± 1.48, Control group: Mean age 9.24±1.36 All in foster care or adopted Approximately 50% in medical treatment for ADHD	Executive functioning skills and emotional regulation related to the children's home and school environment <b>Measurement methods Children</b> Robert's Apperception Test for Children (RATC) at baseline + 7 months after inclusion <b>Caretakers</b> Behavior Rating Inventory of Executive Function (BRIEF) at baseline + 7 months after inclusion	Specialist facility. Neurocognitive habilitation programme, components of the Alert Program incorporated as well as occupational therapy and family psychoeducation 12 sessions of 75 minutes once per week, parallel for children and caregivers <b>Control</b> No treatment	RATC, children's ratings (emotional problem solving): Significant interaction effect group x time, F(7.52)=2.92, p=0.12 BRIEF, caregivers' ratings of executive function: Significant interaction effect group x time, F(8.57)=3.09, p=0.006 Results vaguely described	Moderate. Unclear how to interpret results

**ARND** = Alcohol-related neurodevelopmental disorder; **C** = Community; **CANTAB** = the Cambridge Neuropsychological Test Automated Battery; **CI** = Confidence interval; **CRAFFT** = Car, relax, alone, forget, family or friends, trouble – a behavioural health tool; **F** = Fire; **FAS** = Fetal alcohol spectrum disorder; **h** = Hour; **I** = Internet; **LRL** = Left, right, left; **NEPSY-II** = Neuropsychological Assessment; **n.s** = Not stated; **PAE** = Prenatal alcohol exposure; **pFAS** = Partial FAS; **RCT** = Randomised controlled trial; **SD** = Standard deviation; **t** = t test; **TAU** = Treatment as usual; **TEA-Ch** = the Test of Everyday Attention for Children; **TSSK** = Test of Social Skills Knowledge; **W** = Workshop

Table 3 Family support interventions.

Author Year Reference Country	Study design	Population	Outcome	Intervention Control/comparison	Results Missing data	Risk of bias Comments
Pelech et al 2013 [42] Canada	Quasi-experimental area based design with matching on key variables	Diagnosed (38%) or suspected (62%) FASD Age 12 years, 57% boys 87% indigenous Canadians >90% in permanent guardianship outside home 74/70% in foster home, 13/2% in kinship care, 13/28% in group/other care, X <sup>2</sup> =11.8, p <0.01 47% had additional disabilities	Number of pre-study placement changes compared to number of placement changes during program implementation No follow-up 26% attrition, not reported per group, not analysed for baseline and placement changes	Within the Social Services in Alberta, Canada "Promising Practices" extended support to improve placement stability for children in care. A battery of services: Assessment for FASD, respite for families, collaborative support plans, frequent (>1/month) meetings with caseworkers + possible additional support. <b>Duration</b> 15 months pre-study and 15 months program implementation Resource use not reported Children in care in project group (four regions, n=98) compared to children in care in comparison group (one region, n= 84)	No of pre-study changes in project group was Mean=0.62, SD=1.11 (CI=0.38–86), changes during implementation was Mean=0.33, SD=0.91 (CI=0.13–0.53). In comparison group no of pre-study changes was Mean=0.89 SD=1.40 (CI=0.52–1.26) Changes during implementation was Mean=0.98 SD=1.43 (CI = 0.60–1.36) (F(1.132)=8.82, p=0.004) Placement changes decreased by 47%, Cohen's d =0.25, in project group and increased in comparison group Less case worker contact was the most important predictor of placement change, when pitted against respite, caregiver strain and child risk behaviours	High Study design other than RCT

CI = Confidence interval; F = Female; FASD = Fetal alcohol spectrum disorder; M = Mean; n = Number; SD = Standard deviation



**Table 4** Qualitative studies.

First author Year Reference Country	Method	Population Setting	Study themes/categories Relevant findings were summarized by review authors (when applicable)	Overall assessment of methodological limitation
Chamberlain et al 2016 [43] Australia	Phenomenological approach and thematic analysis (NVivo 10)	10 caregivers aged 47–69 years, out of which 9 were women  Foster parent: 4 Adoptive parent: 1 Child custody: 5  <b>Children</b> Age 7–12 years  All had at least on 4-digit diagnose and all but one had previous diagnoses as ADHD, ASD, GDD, ODD, PTSd and RAD  <b>Setting</b> Specialist service at Queensland Health Child Development Service	Three overarching themes:  • caregivers concerns about their child's future • caregivers knowledge of FASD and the level of knowledge in society • The caregivers direct experiences of the diagnostic process  1. Caregiver aspirations and actions to enhance their child's future 2. Increased caregiver uncertainty 3. Caregiver knowledge and understanding of FASD 4. Lack of societal knowledge and recognition of FASD 5. Assessment provided validation and understanding 6. Process of diagnosis as empowering	Moderate

*The table continues on the next page*

Table 4 continued

First author Year Reference Country	Method	Population Setting	Study themes/categories Relevant findings were summarized by review authors (when applicable)	Overall assessment of methodological limitation
Coons et al 2016 [44] Canada	Semi structured interview Interpretative phenomenological analysis	84 parents from 59 families 59 mothers, 26 fathers Children: aged 1–36 years, mean 14.29 <b>Characteristics of mothers</b> (n) 58 Average age (SD) 50.74 (11.27) Age range 27–71 <b>Relationship to child with disability</b> Biological (n) 12 Step-parent (n) 2 Adoptive (n) 39 Foster (n) 5 Married 67.2% <b>Characteristics of fathers</b> (n) 26 Average age (SD) 54.35 (11.39) Age range 32–71 <b>Relationship to child with disability</b> Biological (n) 4 Step-parent (n) 3 Adoptive (n) 16 Foster (n) 3 Married 80.8% <b>Setting</b> Ontario, Canada	Understanding FASD: "Get educated, get involved" Day-to-day adaptation: "I take it day to day, I don't think about tomorrow" Transformational outcomes: "I wouldn't change it for the world" Informal supports: "I have good support around me" Formal supports: "It's nice to know you're not alone"	Moderate

The table continues on the next page

Table 4 continued

First author Year Reference Country	Method	Population Setting	Study themes/categories Relevant findings were summarized by review authors (when applicable)	Overall assessment of methodological limitation
Doig et al 2009 [45] Canada	Constructivist grounded theory approach	10 parents of children mainly with FASD (suspected or verified) 7 mothers (biological, foster- or adoptive) 2 biological fathers, 1 grandmother Half were unemployed 8 Caucasians Caring for 1–7 children, aged 6 months to 17 years. Seven other disabilities were mentioned (ADHD, Tourette's syndrome etc.) Setting: Alberta, primarily urban. Two agencies with particular FASD-interest	Process of seeking and obtaining respite care emerged as a recurrent issue  <b>The breaking point</b> Jumping through hoops Navigating the system Meeting the requirements Getting help  <b>What we have and what we need</b>	Low
Gardner et al 2000 [46] USA	Content analysis	8 foster mothers, 1 Afro-American and 7 Caucasian women, 30–62 years, state licensed. Raising 17 children with diagnosis of FAS aged 2–16 years, 3 were Afro-American, 2 native American and 12 Caucasian All foster mothers had raised children without developmental delays Address the lack of knowledge regarding the daily realities of living with a child with FAS  <b>Setting</b> Not reported	<b>Effects on child</b> Cognitive concerns Diminished memory Lack of understanding consequences Absence of fear/judgment  <b>Behavioural management</b> Hyperactivity Aggressiveness Destructiveness High pain tolerance  <b>Effects on the foster parent</b> Coping with daily realities Coping strategies Fears for the child's future	Moderate

The table continues on the next page

Table 4 continued

First author Year Reference Country	Method	Population Setting	Study themes/categories Relevant findings were summarized by review authors (when applicable)	Overall assessment of methodological limitation
Granitsas 2004 [47] USA	Qualitative phenomenological approach "What has it been like for you to parent a child with FAS?"	5 adoptive parents of children with FAS Data about parents and children are not reported <b>Setting</b> A developmental clinic in Massachusetts	19 themes were identified, then collapsed into six essential themes: <ul style="list-style-type: none"> <li>• Feeling delight upon adoption</li> <li>• Not knowing</li> <li>• Identifying problems concerns and difficulties</li> <li>• Feeling frustrated</li> <li>• Feeling devoted</li> <li>• Feeling pride</li> </ul>	Moderate
Hagström & Lindberg (bachelor thesis) 2016 [48] Sweden	Semi structured telephone interview (Grounded theory)	7 parents to children with FAS/FASD aged 7–17 years. Mainly women <b>Setting</b> Sample from parental organisation/ interest group, Sweden	Socially and culturally accepted diagnosis Expectations about the diagnosis Diagnosis, an economic solution When partnerships work When partnerships doesn't work	Moderate
Johnston et al 2013 [49] Canada	Three semiformal interviews, participant observations Ethnographic analysis	8 aboriginal mothers, age 30–45 years Mothers of 17 children, age 14–17 years <b>Setting</b> British Columbia	"Mothering from the margins", the overarching cultural theme <ul style="list-style-type: none"> <li>• Intergenerational patterns</li> <li>• Adaptive mothering</li> </ul>	Low
Michaud et al 2013 [50] Canada	Participatory action research model (bringing together people to facilitate collaboration, advocacy and social change)	5 mothers (adoptive, foster or biological) Data about parents and children are not reported <b>Setting</b> Ontario	4 themes: <ul style="list-style-type: none"> <li>• Everything we have learned as parents does not apply when caring for child with FASD</li> <li>• Walking a fine line</li> <li>• The guilt of letting go</li> <li>• The future</li> </ul>	Moderate

*The table continues on the next page*

Table 4 continued

First author Year Reference Country	Method	Population Setting	Study themes/categories Relevant findings were summarized by review authors (when applicable)	Overall assessment of methodological limitation
Mukherjee et al 2013 [51] United Kingdom	Focus groups from advertising, randomly max 10 parents/group.  Mixed method, semi structured analysis method  Parental stress index and knowledge questionnaire  NVIVO	30 parents, mainly foster and adoptive parents and maybe a few biological parents (recruited from an educational question and answer session, n=66)  No data about the FASD children were reported  <b>Setting</b> FASD support charities in north west of England, London and Oxfordshire	8 broad themes identified <ul style="list-style-type: none"> <li>• Different from other children</li> <li>• Lack of information</li> <li>• Lack of knowledge among professionals</li> <li>• Having a fight for things</li> <li>• Feeling misunderstood and blamed</li> <li>• Family stress and benefits of one to one</li> <li>• Isolation</li> <li>• Concerns about the future</li> </ul>	Moderate
Poth et al 2014 [52] Canada	Qualitative analysis	6 caregivers (2 grandmothers, 3 foster mothers, 1 adoptive mother)  Years of caregiving experience 6–43, mean 17.8)  Children with FASD, 3–18 years  (The study comprised of 60 participants, mainly teachers, 31)  <b>Setting</b> Involvement in local FASD networks and programs	Understanding the whole student <ul style="list-style-type: none"> <li>• interacting with individuals</li> <li>• recognising positive behaviours</li> <li>• integrating choice with expectations</li> </ul> Responding within dynamic environments <ul style="list-style-type: none"> <li>• fostering an inclusive atmosphere</li> <li>• building home – school relationships</li> <li>• accessing individualised funding</li> </ul> Optimizing student centred programming <ul style="list-style-type: none"> <li>• matching support groups with need</li> <li>• addressing service gaps</li> </ul>	Moderate

*The table continues on the next page*

Table 4 continued

First author Year Reference Country	Method	Population Setting	Study themes/categories Relevant findings were summarized by review authors (when applicable)	Overall assessment of methodological limitation
Ryan et al 2006 [53] USA	Semi structured observations of students in classrooms, analysing documents (policy statements, education programs day to day performance data), informal e-mails or phone conversations coding  Authenticity and credibility: prolonged engagement in the field, triangulated data and external checks of the analysis "peer debriefing" of interviews and field notes to ensure authenticity	5 participants (students) with FASD Age: 3–19 years  Biological, adoptive and foster parents and other extended family members  Parent navigators, diagnostic team, child care workers, educator's principals and psychologist, social workers, counsellors, police officers, physicians, residential treatment staff, behaviour health counsellors  Total n=71  <b>Setting</b> FAS-diagnostic clinics. Rural and urban settings across Alaska	3 themes:  On, yet under the radar  I do not do anything different with Oscar  If I had known then what I know now  Because of serious nature of many of the children's behaviour (e.g. stealing, running away, using alcohol and marijuana) and the lack of local support their only options were residential treatment facilities	Moderate
Salmon et al 2012 [61] New Zealand	Unstructured interviews  Mixed method (transcendental phenomenology phase one and grounded theory in phase 2)	14 participants 6 Maori 6 New Zealand-European 1 American 1 Cook Islander  FAS: 7 FAE: 7  Age: 14 to 37 years  6 were ≤18 years  9 male (64%), 5 female (36%)  7 had additional diagnosis, 2 with ADHD  <b>Setting</b> 3 FASD-agencies throughout New Zealand	Daily challenges in the classroom  Daily challenges in the workplace  Coping with mental health issues  Memory problems  Socialisation difficulties  Involvement with the law and authority  <b>Phase 2</b> People with FASD feel under-supported in the social and health systems  People with FASD are seen to have criminal behaviours  People with FASD grow up and look back	Moderate

*The table continues on the next page*

Table 4 continued

First author Year Reference Country	Method	Population Setting	Study themes/categories Relevant findings were summarized by review authors (when applicable)	Overall assessment of methodological limitation
Salmon 2008 [54] New Zealand	Unstructured open ended questions  Analysis constant comparative method  Validity: triangulation, participant-checking and closeness of fit	8 biological mothers (age 29–64 years) who had nurtured or still living were living with affected offspring. The women were of middle to high socioeconomic status. Seven mothers experienced family breakdown. The women came from both islands  9 FASD children 8–30 years of age  4 FAS, 4 FAE, 1 pFAS + ADHD; 8 were diagnosed by a medical professional  <b>Setting</b> Hamilton, FASD-agency	15 sub-themes /4 key themes  Concerns about relating to health, social, educational, judicial system, lack of knowledge by professionals and problems in diagnosis to being oppressed and stigmatised  <b>Cognitive concerns</b> Attention deflect, absence of fear, diminished memory comprehension and inability to acknowledge and understand consequences  Other concerns: delayed millstones and numerous health problems  All mother stated that pregnancy, labour and delivery was different from other non- compromised pregnancies/labours/deliveries  1. Mothers fault  2. Medical health and professionals abandon the mothers  3. Birth mother and their children are unsupported in the educational system  4. Birth mothers are the cause of criminal behaviour  Doctors used medical language that they could not understand	Moderate

*The table continues on the next page*

Table 4 continued

First author Year Reference Country	Method	Population Setting	Study themes/categories Relevant findings were summarized by review authors (when applicable)	Overall assessment of methodological limitation
Sanders 2010 [55] Canada	<p>Interview using "unstructured format" to find out parents experiences and thoughts. After the interview, the parents summarise the interview in two phrases</p> <p>A phenomenological-hermeneutic approach and thematic analysis was used to analyse and organize the data into themes</p> <p>QSR Nvivo7 qualitative data analysis was used to help identify, categorize and compare the themes</p>	<p>11 parents (9 women and 2 men (32–59 years, mean age 45,8 years))</p> <p>7 adoptive parents, 3 biological parents and 1 foster parent</p> <p>10 of the parents were Caucasian and 1 was Native American</p> <p>Half of the parents were in a marital relationship at the time of the interview</p> <p>All of the adoptive parents had 1 child with FASD</p> <p>The foster parent cared for 3 children with FASD</p> <p>The biological parents had 1 or 2 children with FASD, respectively</p> <p>Age range of the FASD individuals were 5–21 years</p> <p><b>Setting</b> Urban Alberta city and environs Community agencies</p>	<p>9 major themes:</p> <ol style="list-style-type: none"> <li>1. Something's not right</li> <li>2. Receiving a diagnosis</li> <li>3. Attitudes toward birth parents</li> <li>4. Living in a war zone</li> <li>5. Understanding my child</li> <li>6. Getting support</li> <li>7. Re-defining success</li> <li>8. Lifelong parenting</li> <li>9. My child's gifts</li> </ol> <p>Most of these themes are divided into two or more subthemes</p>	Moderate

*The table continues on the next page*



Table 4 continued

First author Year Reference Country	Method	Population Setting	Study themes/categories Relevant findings were summarized by review authors (when applicable)	Overall assessment of methodological limitation
Stade et al 2011 [56] Canada	In depth interview (phenomenological)	22 participants 9 Canadian, 11 Euro-Canadians 1 Jamaican-Canadian, 1 Romanian-Canadian <b>Age</b> 6–8 years: 6 9–11 years: 6 12–14 years: 5 15–18 years: 5 10 female (45.5%), 12 male (54.5%) ARND: 11 (PFAS 6, FAS 5) Relation: 3 biological, 2 kinship, 12 adoptive, 5 foster <b>Setting</b> Urban and rural communities across Canada	<b>Common theme</b> Knowing the disability <ul style="list-style-type: none"><li>• Understanding the limitation of the disability</li><li>• Experiencing the unfairness of the FASD etiology</li><li>• Feeling alone-feeling supported</li><li>• Feeling alone with other kids</li></ul> Feeling supported by parents <ul style="list-style-type: none"><li>• Overcoming the disability</li><li>• Feeling different</li></ul> The experience of living with FASD	Moderate

The table continues on the next page

Table 4 continued

First author Year Reference Country	Method	Population Setting	Study themes/categories Relevant findings were summarized by review authors (when applicable)	Overall assessment of methodological limitation
Swart et al 2014 [57] Canada	Grounded theory	17 caregivers responsible for day-to-day care of school aged children with suspected or confirmed FASD  <b>Children characteristics</b> Fetal alcohol: 52.9% (9) Fetal alcohol syndrome: 11.7% (2) Fetal alcohol effects: 5.9% (1) Alcohol-related neurodevelopmental disorder: 29.5% (5) Fetal alcohol spectrum Grades 1–6: 94.2% (16) Grade 7: 5.9% (1)  <b>Age</b> Children  <b>Mean (range)</b> 9 (6–12)  <i>Population, Setting continues on the next page</i>	<b>Core category</b> Intertwining to fit in Regulating the relationship The strategies: orchestrating schooling and keeping up appearances Hitting the rock bottom Islands of calm Re-engaging	Moderate

*The table continues on the next page*

Table 4 continued

First author Year Reference Country	Method	Population Setting	Study themes/categories Relevant findings were summarized by review authors (when applicable)	Overall assessment of methodological limitation
<i>Continued</i>	<b>Caregiver characteristics</b>			
Swart et al 2014 [57] Canada	Biological parent: 52.9% (9) Step parent: 5.9% (1) Adoptive parent: 29.5% (5) Foster parent: 11.7% (2) Single: 64.7% (11) Married/Common-law: 35.3 (6)  Full time employment: 5.9% (1)  Part time employment: 35.3% (6) Unemployed: 41.2% (7) Student: 17.7% (3)  High school or less: 41.2% (7) Some postsecondary: 41.2% (7) University degree: 17.6% (3)  Parents: 42.9 years (28–54) Grandparents: 59.5 years (58–61)			
	<b>Setting</b>			
	The recruitment was made through a web site of a provincial on line resource in British Columbia			

The table continues on the next page

Table 4 continued

First author Year Reference Country	Method	Population Setting	Study themes/categories Relevant findings were summarized by review authors (when applicable)	Overall assessment of methodological limitation
Watson et al 2013 [58] Canada	Interpretative phenomenological analysis	31 parents of all sorts of children with FASD (age 1–36). Comparison with parents of children with autism Children mean age: 16.51 <b>Setting</b> Across northern Ontario Disability support organisations	It's just frustrating: the search for a diagnosis It's like hitting a brick wall: the FASD diagnostic process If you don't have a label, people aren't gonna know what's wrong with her: a family's need for a label Challenging behaviours The importance of structure I do it all: the multiple roles that parents play	Low
Watson 2013 [59] Canada	Qualitative interviews	Out of 57 parents or guardians of FASD children (birthparents, foster parents, adoptive parents, step parents, and custodial grandparents who participated in the quantitative study part) 31 family members participated in the interview. The whole group consisted of 42 mothers, 15 fathers and 68 children with FASD <b>Setting</b> Disability support organisations throughout Canada	Thoughts regarding their child's: <ul style="list-style-type: none"> <li>• Lack of independence</li> <li>• Marriage and family</li> <li>• Education and employment</li> <li>• Harm to their child</li> <li>• Hope for their future</li> </ul>	Moderate
Whitehurst 2012 [60] United Kingdom	Interpretative phenomenological approach	Birth (1) and adoptive mothers (3) with one or several children with FAS or ARND Children: 6 FAS, 1 ARND Male 8, 9 and 24 years old Female 4, 5, 9, 13 years old <b>Setting</b> Not reported	First becoming aware something is wrong Experiencing the disorder as a challenge Experiencing difference Experiencing emotional conflict Experiencing disability Experiencing support	High

**ADHD** = Attention deficit hyperactivity disorder; **ARND** = Alcohol related neurodevelopmental disorder; **ASD** = Autism spectrum disorder; **FAS** = Fetal alcohol syndrome; **GDD** = Global developmental delay; **pFAS** = Partial fetal alcohol syndrome; **NVIVO** = A software that supports qualitative and mixed methods research; **ODD** = Oppositional defiant disorder; **PTSD** = Post-traumatic stress syndrome; **RAD** = Reactive attachment disorder

# References

1. Bell SH, Stade B, Reynolds JN, Rasmussen C, Andrew G, Hwang PA, et al. The remarkably high prevalence of epilepsy and seizure history in fetal alcohol spectrum disorders. *Alcohol Clin Exp Res* 2010;34:1084-9.
2. Chudley AE, Conry J, Cook JL, Looock C, Rosales T, LeBlanc N. Fetal alcohol spectrum disorder: Canadian guidelines for diagnosis. *Cmaj* 2005;172:S1-s21.
3. Church MW, Eldis F, Blakley BW, Bawle EV. Hearing, language, speech, vestibular, and dentofacial disorders in fetal alcohol syndrome. *Alcohol Clin Exp Res* 1997;21:227-37.
4. Connor PD, Sampson PD, Bookstein FL, Barr HM, Streissguth AP. Direct and indirect effects of prenatal alcohol damage on executive function. *Dev Neuropsychol* 2000;18:331-54.
5. Clarren SK, Smith DW. The fetal alcohol syndrome. *Lamp* 1978;35:4-7.
6. Egeland GM, Perham-Hester KA, Gessner BD, Ingle D, Berner JE, Middaugh JP. Fetal alcohol syndrome in Alaska, 1977 through 1992: an administrative prevalence derived from multiple data sources. *Am J Public Health* 1998;88:781-6.
7. Elgen I, Bruaroy S, Laegreid LM. Complexity of foetal alcohol or drug neuroimpairments. *Acta Paediatr* 2007;96:1730-3.
8. Famy C, Streissguth AP, Unis AS. Mental illness in adults with fetal alcohol syndrome or fetal alcohol effects. *Am J Psychiatry* 1998;155:552-4.
9. Fuglestad AJ, Boys CJ, Chang PN, Miller BS, Eckerle JK, Deling L, et al. Overweight and obesity among children and adolescents with fetal alcohol spectrum disorders. *Alcohol Clin Exp Res* 2014;38:2502-8.
10. Hoyme HE, May PA, Kalberg WO, Kodituwakku P, Gossage JP, Trujillo PM, et al. A practical clinical approach to diagnosis of fetal alcohol spectrum disorders: clarification of the 1996 institute of medicine criteria. *Pediatrics* 2005;115:39-47.
11. Kvigne VL, Leonardson GR, Neff-Smith M, Brock E, Borzelleca J, Welty TK. Characteristics of children who have full or incomplete fetal alcohol syndrome. *J Pediatr* 2004;145:635-40.
12. Landgren M, Svensson L, Stromland K, Andersson Gronlund M. Prenatal alcohol exposure and neurodevelopmental disorders in children adopted from eastern Europe. *Pediatrics* 2010;125:e1178-85.
13. Lee HS, Jones KL, Lee HK, Chambers CD. Fetal alcohol spectrum disorders: Clinical phenotype among a high-risk group of children and adolescents in Korea. *Am J Med Genet A* 2016;170:19-23.
14. Mattson SN, Roesch SC, Fagerlund A, Autti-Ramo I, Jones KL, May PA, et al. Toward a neurobehavioral profile of fetal alcohol spectrum disorders. *Alcohol Clin Exp Res* 2010;34:1640-50.
15. May PA, Gossage JP, Marais AS, Adnams CM, Hoyme HE, Jones KL, et al. The epidemiology of fetal alcohol syndrome and partial FAS in a South African community. *Drug Alcohol Depend* 2007;88:259-71.
16. May PA, Keaster C, Bozeman R, Goodover J, Blankenship J, Kalberg WO, et al. Prevalence and characteristics of fetal alcohol syndrome and partial fetal alcohol syndrome in a Rocky Mountain Region City. *Drug Alcohol Depend* 2015;155:118-27.
17. May PA, Fiorentino D, Coriale G, Kalberg WO, Hoyme HE, Aragon AS, et al. Prevalence of children with severe fetal alcohol spectrum disorders in communities near Rome, Italy: new estimated rates are higher than previous estimates. *Int J Environ Res Public Health* 2011;8:2331-51.
18. Rangmar J, Hjern A, Vinnerljung B, Stromland K, Aronson M, Fahlke C. Psychosocial outcomes of fetal alcohol syndrome in adulthood. *Pediatrics* 2015;135:e52-8.
19. Jones KL, Smith DW. Recognition of the fetal alcohol syndrome in early infancy. *Lancet* 1973;302:999-01.

20. Rangmar J, Sandberg AD, Aronson M, Fahlke C. Cognitive and executive functions, social cognition and sense of coherence in adults with fetal alcohol syndrome. *Nord J Psychiatry* 2015;69:472-8.
21. Steinhausen HC, Von Gontard A, Spohr HL, Hauffa BP, Eiholzer U, Backes M, et al. Behavioral phenotypes in four mental retardation syndromes: fetal alcohol syndrome, Prader-Willi syndrome, fragile X syndrome, and tuberous sclerosis. *Am J Med Genet* 2002;111:381-7.
22. Sokol RJ, Clarren SK. Guidelines for use of terminology describing the impact of prenatal alcohol on the offspring. *Alcohol Clin Exp Res* 1989;13:597-8.
23. Viljoen DL, Gossage JP, Brooke L, Adnams CM, Jones KL, Robinson LK, et al. Fetal alcohol syndrome epidemiology in a South African community: a second study of a very high prevalence area. *J Stud Alcohol* 2005;66:593-604.
24. Carr JL, Agnihotri S, Keightley M. Sensory processing and adaptive behavior deficits of children across the fetal alcohol spectrum disorder continuum. *Alcohol Clin Exp Res* 2010;34:1022-32.
25. O'Connor MJ, Shah B, Whaley S, Cronin P, Gunderson B, Graham J. Psychiatric illness in a clinical sample of children with prenatal alcohol exposure. *Am J Drug Alcohol Abuse* 2002;28:743-54.
26. Astley SJ, Bailey D, Talbot C, Clarren SK. Fetal alcohol syndrome (FAS) primary prevention through fas diagnosis: II. A comprehensive profile of 80 birth mothers of children with FAS. *Alcohol* 2000;35:509-19.
27. Adnams CM, Sorour P, Kalberg WO, Kodituwakku P, Perold MD, Kotze A, et al. Language and literacy outcomes from a pilot intervention study for children with fetal alcohol spectrum disorders in South Africa. *Alcohol* 2007;41:403-14.
28. Coles CD, Strickland DC, Padgett L, Bellmoff L. Games that "work": using computer games to teach alcohol-affected children about fire and street safety. *Res Dev Disabil* 2007;28:518-30.
29. Coles CD, Kable JA, Taddeo E. Math performance and behavior problems in children affected by prenatal alcohol exposure: intervention and follow-up. *J Dev Behav Pediatr* 2009;30:7-15.
30. Kable JA, Coles CD, Taddeo E. Socio-cognitive habilitation using the math interactive learning experience program for alcohol-affected children. *Alcohol Clin Exp Res* 2007;31:1425-34.
31. Kable JA, Taddeo E, Strickland D, Coles CD. Community translation of the Math Interactive Learning Experience Program for children with FASD. *Res Dev Disabil* 2015;39:1-11.
32. Kable JA, Coles CD, Strickland D, Taddeo E. Comparing the effectiveness of on-line versus in-person caregiver education and training for behavioral regulation in families of children with FASD. *Int J Ment Health Addict* 2012;10:791-803.
33. Kable JA, Taddeo E, Strickland D, Coles CD. Improving FASD Children's Self-Regulation: Piloting Phase 1 of the GoFAR Intervention. *Child Fam Behav Ther* 2016;38:124-41.
34. Keil V, Paley B, Frankel F, O'Connor MJ. Impact of a social skills intervention on the hostile attributions of children with prenatal alcohol exposure. *Alcohol Clin Exp Res* 2010;34:231-41.
35. Astley SJ. Fetal alcohol syndrome prevention in Washington State: evidence of success. *Paediatr Perinat Epidemiol* 2004;18:344-51.
36. Loomes C, Rasmussen C, Pei J, Manji S, Andrew G. The effect of rehearsal training on working memory span of children with fetal alcohol spectrum disorder. *Res Dev Disabil* 2008;29:113-24.
37. Nash K, Stevens S, Greenbaum R, Weiner J, Koren G, Rovet J. Improving executive functioning in children with fetal alcohol spectrum disorders. *Child Neuropsychol* 2015;21:191-209.
38. O'Connor MJ, Frankel F, Paley B, Schonfeld AM, Carpenter E, Laugeson EA, et al. A controlled social skills training for children with fetal alcohol spectrum disorders. *J Consult Clin Psychol* 2006;74:639-48.
39. O'Connor MJ, Laugeson EA, Mogil C, Lowe E, Welch-Torres K, Keil V, et al.

- Translation of an evidence-based social skills intervention for children with pre-natal alcohol exposure in a community mental health setting. *Alcohol Clin Exp Res* 2012;36:141-52.
40. O'Connor MJ, Quattlebaum J, Castaneda M, Dipple KM. Alcohol intervention for adolescents with fetal alcohol spectrum disorders: Project Step Up, a treatment development study. *Alcohol Clin Exp Res* 2016;40:1744-51.
  41. Wells AM, Chasnoff IJ, Schmidt CA, Telford E, Schwartz LD. Neurocognitive habilitation therapy for children with fetal alcohol spectrum disorders: an adaptation of the Alert Program(R). *Am J Occup Ther* 2012;66:24-34.
  42. Pelech W, Badry D, Daoust G. It takes a team: Improving placement stability among children and youth with fetal alcohol spectrum disorder in care in Canada. *Child Youth Serv Rev* 2013;35:120-27.
  43. Chamberlain K, Reid N, Warner J, Shelton D, Dawe S. A qualitative evaluation of caregivers' experiences, understanding and outcomes following diagnosis of FASD. *Res Dev Disabil* 2016. Article in press.
  44. Coons KD, Watson SL, Schinke RJ, Yantzi NM. Adaptation in families raising children with fetal alcohol spectrum disorder. Part I: What has helped. *J Intellect Dev Disabil* 2016;41:150-65.
  45. Doig JL, McLennan JD, Urichuk L. 'Jumping through hoops': parents' experiences with seeking respite care for children with special needs. *Child Care Health Dev* 2009;35:234-42.
  46. Gardner J. Fetal Alcohol Syndrome. *MCN Am J Matern Child Nurs* 2000;25:252-57.
  47. Granitsas J. Experiences of adoptive parents of children with fetal alcohol syndrome. *Clin Excell Nurse Pract* 2004;8:22-8.
  48. Hagström, E, Lindberg, E. Det är inget påhittat, inget som går över och det kan inte medicineras bort – En studie om föräldrars och skolkuratorers upplevelser kring hur barn med alkoholskador bemöts av samhället. Kandidatuppsats. Göteborgs universitet. Available from <https://gupea.ub.gu.se/handle/2077/44575>. Nedladdad 2016-08-23. 2016
  49. Johnston S, Boyle JS. Northern British Columbian Aboriginal mothers: raising adolescents with fetal alcohol spectrum disorder. *J Transcult Nurs* 2013;24:60-7.
  50. Michaud D, Temple V. The complexities of caring for individuals with fetal alcohol spectrum disorder: The perspective of mothers. *J Dev Disabil* 2013;19:94-101.
  51. Mukherjee R, Wray E, Commers M, Hollins S, Curfs L. The impact of raising a child with FASD upon carers: findings from a mixed methodology study in the UK. *Adoption & Fostering* 2013;37:43-56.
  52. Poth C, Pei J, Job JM, Wyper K. Toward intentional, reflective, and assimilative classroom practices with students with FASD. *Teacher Educator* 2014;49:247-64.
  53. Ryan S, Ferguson DL. On, yet under, the radar: students with fetal alcohol syndrome disorder. *Except Child* 2006;72:363-79.
  54. Salmon J. Fetal alcohol spectrum disorder: New Zealand birth mothers' experiences. *Can J Clin Pharmacol* 2008;15:e191-213.
  55. Sanders JL, Buck G. A long journey: Biological and non-biological parents' experiences raising children with FASD. *J Popul Ther Clin Pharmacol* 2010;17:e308-e322.
  56. Stade B, Beyene J, Buller K, Ross S, Patterson K, Stevens B, et al. Feeling different: the experience of living with fetal alcohol spectrum disorder. *J Popul Ther Clin Pharmacol* 2011;18:e475-85.
  57. Swart S, Hall WA, McKee WT, Ford L. Caregivers' management of schooling for their children with fetal alcohol spectrum disorder. *Qual Health Res* 2014;24:1540-52.
  58. Watson SL, Hayes SA, Coons KD, Radford-Paz E. Autism spectrum disorder and fetal alcohol spectrum disorder. Part II: a qualitative comparison of parenting stress. *J Intellect Dev Disabil* 2013;38:105-13.

59. Watson S, Hayes S, Radford-Paz E, Coons K. 'I'm hoping, I'm hoping...' Thoughts about the future from families of children with autism or fetal alcohol spectrum disorder in Ontario. *J Dev Disabl* 2013;19:76-93.
60. Whitehurst T. Raising a child with foetal alcohol syndrome: Hearing the parent voice. *Br J Learn Disabil* 2012;40:187-93.
61. Salmon JV, Buetow SA. An exploration of the experiences and perspectives of New Zealanders with fetal alcohol spectrum disorder. *J Popul Ther Clin Pharmacol* 2012;19:e41-50.



# Bilaga 2.

## **Upplevelser och erfarenheter bland individer med FASD och deras föräldrar/ Experiences among individuals with FASD and their parents**

**Table 1**  
 Overview of first, second  
 and third level themes:  
 Experiences among  
 individuals with FASD.

Experiences among individuals with FASD		
First level theme	Second level theme (assessed by CERQual)	Third level theme
Persons with FASD understand the limitations tied to their disabilities [1]		
Persons with FASD feel different when comparing themselves to other children		
Persons with FASD experience memory problems [2]		
Persons with FASD experience various mental health issues such as anxiety, depression, alcohol and drug dependence [2]	Persons with FASD experience that their cognitive- and mental health as well as social difficulties regarding friends, school and work, limit their daily life and make them feel different from others	
Persons with FASD experience difficulties in socializing such as establishing and maintaining friendship [1,2]		
Children with FASD experience daily challenges in keeping up with school work and paying attention		
Adults with FASD experience daily challenges in the workplace, such as staying focused on a given task [1,2]		Difficulties experienced by persons with FASD
Children with FASD experience unfairness relating to the ethology of FASD. The children understand the cause of FASD and it is preventable [1]	Children with FASD experience unfairness relating to the ethology of FASD. The children understand the cause of FASD and it is preventable	
Children with FASD try hard to overcome disabilities in daily life activities [1]	Children with FASD try hard to overcome limitations of the disabilities in daily life activities [1]	
The use of alcohol and drugs as an attempt to cope with mental health and social issues affected virtually all areas of the participants' lives [2]	Persons with FASD exhibit destructive behaviour such as criminal activities and use of alcohol and drugs, as a way of coping with mental and social difficulties	
Adults with FASD exhibit criminal behaviours and have a tendency to get involved in illegal activities [2]	Children with FASD experience that they get a lot of support and care from their parents	Experiences by persons with FASD of how their difficulties are met by others
Children with FASD experience that they get a lot of support and care from their parents [1]		
Adults with FASD feel under-supported by the social and health systems [2]	Adults with FASD feel under-supported by the social and health systems	

**Table 2** Study information/data, first level themes within the third level theme: experiences among individuals with FASD.

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Persons with FASD understand the limitations tied to their disabilities [1]</b>                      All of the children understood the nature of the disability and how it affected their day-to-day life. Responses suggested that the participants attempted to understand the nature of their disability by identifying specific attributes that limited them or how FASD impacted on their daily functioning. Children spontaneously discussed issues such as learning problems, attention and behavioural problems, motor disabilities, and social difficulties associated with FASD.</p> <p>An 18-year-old stated: <i>"It's hard dealing with work because of attention and stuff with friends. I say things they (his friends) wouldn't. ... (I) can't keep focused"</i>. When asked how FASD affects his day to day life, a 14-year-old stated: <i>"Sometimes I have trouble concentrating. I am concentrating on one (activity), then I get distracted"</i>.</p> <p>A 6-year-old stated: <i>"My hands (his fine motor skills) don't work as well as other kids"</i>. A 10-year-old girl aware of the impact that prenatal exposure to alcohol had on her day-to-day learning stated: <i>"Learning is hard. The teachers don't explain things (in a manner that allows her to understand)"</i>.</p> <p>An 8-year-old understood the nature of his disability: <i>"(It's) hard, hard to keep out of trouble, and I am not that smart. I have to think. Like when I want to push a little kid. I have to stop and think."</i> [1].</p>	<p>Persons with FASD experience that their cognitive- and mental health as well as social difficulties regarding friends, school and work, limit their daily life and make them feel different from others</p>	<p>Difficulties experienced by persons with FASD</p>
<p><b>Persons with FASD feel different when comparing themselves to other children</b>                      Feeling different emerged as an overarching construct in this study. For all of the 22 participants, the ongoing experience of living day-to-day with Fetal Alcohol Spectrum Disorder meant feeling different than other children. Feeling different was central to the children's experience and encompassed the three dominant themes. For example, as the children gained knowledge of their disability they compared their behaviours and performance to other healthy children.</p> <p>In their comparison of themselves to other children, there was an awareness of <i>feeling different</i>. Feeling different was also evidenced in the children's experience of feeling alone with other kids despite their connection to parents. Within the experience of feeling different these children struggled to overcome their disability, and not to use their disability as an excuse for not trying. All children implicitly talked about how they felt different than others. For example, when asked, <i>"How does having FAS make you feel?"</i>, or <i>"What does FAS mean to you?"</i> the children talked about how they were different than other children in <i>"concentrating"</i>, in <i>"focusing"</i> and in <i>"dealing with things (other people and situations)"</i>.</p> <p>Other children were more explicit in describing how they felt different. For example, an 8-year-old describing how he had no friends to play with at school stated: <i>"I think differently from everyone. Everybody makes fun of me."</i></p> <p>An 18-year-old stated: <i>"They (teachers, employers) expected me to do things I couldn't. I have a hard time doing some things." Others (kids his age) do things easier, get through work ..."</i></p> <p>Descriptions of feeling different were often accompanied by feelings of frustration, sadness, and anger. For example, one boy talking about his experience of living with FASD stated with frustration and anger: <i>"In the world it (FASD) is a mental disability. FAS is an unfair thing."</i></p> <p>A 9-year-old boy talked about how he was in a special class in school, and stated very quietly: <i>"I don't feel smart."</i> Finally, an 8-year-old, talking about feeling different, both in his ability to think and his ability to attract friends, stated very poignantly: <i>"It (the effects that FASD has on his life) is very sad."</i> [1].</p>		

*The table continues on the next page*

Table 2 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Persons with FASD experience memory problems [2]</b> All participants reported daily forgetfulness. For example: <i>“My memory blocks itself out so that everything to me is new. Every day is a new day, everything that I do is a new thing and even though I might have done it a thousand times before, it’s still new. My long-term memory is the one that reminds me of the things that I’ve done before”</i> (ID10). Some participants forgot to make appointments, whilst others commented that they repeat similar mistakes since they do not learn from past experiences [2].</p>		
<p><b>Persons with FASD experience various mental health issues such as anxiety, depression, alcohol and drug dependence [2]</b> Mental health issues were on-going with many participants taking medication. Their lived experiences of failure, marginalisation, oppression and violence underlay their poor mental health as reflected in mood swings, anxiety and feeling insecure. Depression appeared to be linked to losing a job, despair over childhood abuses, lack of hope for the future and excessive drinking. One person stated: <i>“At times I get run down. I get very pissed. I miss my kids”</i>. The use of alcohol and drugs was another common mental health concern. The same person disclosed: <i>“I’d go and drink to cope. That was my only relaxant”</i>; so alcohol was a cause and consequence of mental ill-health. These experiences affected virtually all areas of the participants’ lives, including their employment, education, family and other social relationships (e.g. custody of children). Impulsive thoughts appeared the most challenging mental health issue for all participants. Unable to process information and follow rules, they reported acting without thinking. ID14 explained: <i>“You get these impulses and you act on them. You know they’re wrong, but you can’t control it”</i>. As a consequence, some of the participants reported difficulty in managing money; others spoke of their anger problems, borne of frustration or gullibility. D13 was: <i>“...as gullible as hell and I’ve been ripped off many times. Then I get frustrated and take it out on the closest person to me”</i>. Anger could quickly turn to rage fuelled by alcohol use: <i>“I would drink to get drunk and then try to fight people”</i>. Impulsivity also led to stealing with one person acknowledging: <i>“If I saw something that I liked and there was nobody around, it was mine”</i>. Stealing cars gave the eldest male: <i>“an adrenaline rush and an addictive thrill”</i>. One person said: <i>“I’d think of the consequences, but it didn’t matter”</i>. The youngest participant, when bored, <i>“would light fires”</i>. Also reported was suicidal ideation: <i>“I used to cut my wrists when I can’t handle [life] any more”</i>. [2]</p>		

The table continues on the next page

Table 2 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Persons with FASD experience difficulties in socializing such as establishing and maintaining friendship [1,2]</b></p> <p>Socialization difficulties included communication problems as ID13 confessed: <i>"I'm not very good at getting out what's in here [pointing at head]. I find that what's in here and what I want to say are two different things. People take it the wrong way"</i>. As a result people with FASD frequently feel socially excluded, lonely and desperate for friendship and intimate relationships. Many participants described how they chose the 'wrong' people to associate with and the friendships they made seldom lasted.</p> <p>The participants attributed their difficulty in making and keeping valued friendships to others seeing them as 'different.' ID9 explained: <i>"People don't realize that I have stuff going on with me until I've told them and it's changed their perception of me totally! Then they don't want anything to do with me. It's almost like they think it's contagious"</i>. ID10 added: <i>"Every partner I've had, it's turned into disaster. I'm too high maintenance"</i>. Socially and emotionally much younger than their years, they tend to intrude on others' personal space. Learning difficulties, faulty information processing, impulsivity and poor decision-making skills add to their socialization difficulties.</p> <p>There was an increased risk of others exploiting their on-going pursuit for friendship. Wrong choices of peers led to inappropriate activities with them.</p> <p><i>"I seem to be attracted to the wrong type of people. I was hanging out with the bad guys and went on the drink when I was 17"</i>, stated ID8. ID13 added, <i>"I bent over backwards to make people like me and they just turn round and shit on you"</i>. However, ID2 chose her friends wisely since she <i>"...would not mix with the naughty crowd"</i>. [2]</p> <p>For children in this study, difficulty in making and keeping friends was demonstrated in the subtheme "Feeling Alone with Other Kids." This subtheme implicitly emerged through the course of the interviews. All of the participants said they had friends, but no child in the course of the in-depth interview spontaneously described a close relationship with friends.</p> <p>Interviewing techniques consistent with the phenomenological method, such as restating the informant's exact words, were used to encourage the children to describe friendships, but no friendships were described. Nor did any child describe situations which included interactions with friends. Even when the researcher stepped away from the phenomenological method and asked the children to describe their friends, only one 8-year-old boy offered a name of a child who he liked and could talk to. Four (4) children did explicitly state that living with FASD meant feeling alone with other kids.</p> <p>For example, An 8-year-old stated: <i>"No one likes me. There's... no one plays with me at recess."</i> A 9-year-old stated: <i>"I don't think I will ever have a friend like the other kids have."</i> An 18-year-old talked about his difficulty in social situations with friends. He stated that unlike himself: <i>"Others (kids his age) ...socially deal with it, coping at (social interactions)... they are socially fit."</i></p> <p>A 10-year-old boy stated: <i>"Even if they (the other children in his neighbourhood) don't play with me, I have my brother. (His brother was 16-years old). My brother really likes me."</i> [1]</p>		

The table continues on the next page

Table 2 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Children with FASD experience daily challenges in keeping up with school work and paying attention [2]</b> Facing many challenges during their school years because of cognitive, attention and motor-performance difficulties, participants looked for ways to cope. The most frequently reported learning problems were [lack of] attention and repeatedly incomplete school-work as confirmed by ID9: <i>"I've got school reports that said 'I would do well if I finished my work'"</i>.</p> <p>Schooling appeared not to be valued. For example: <i>"If someone wrote something on the board and said 'You've got to write this down and understand it', I'd write it down alright and then I'd close my book. It was never important to me" (ID10)</i>. Completing high school was a big challenge. One reason was being in trouble with the teachers. ID12 shared: <i>"I was always naughty. I was always in trouble with the teachers"</i>.</p> <p>Believing they were seen as 'different' from their peers, participants said they were 'picked on' and did not have friends. ID7 stated: <i>"I didn't have any friends. Nobody wanted to be my friend because I was different...they were bullying me hard"</i>. ID11 commented: <i>"I started getting bad grades and I'd skip classes because I was afraid of the students"</i>. Struggling with class-work, feeling insecure and lacking self-confidence and self-esteem, many of the participants thus became truants or dropouts, were expelled from school or sought solace in isolation.</p>		
<p><b>Adults with FASD experience daily challenges in the workplace, such as staying focused on a given task [1,2]</b> An 18-year-old stated: <i>"It's hard dealing with work because of attention and stuff with friends"</i> [1]</p> <p>Cognitive and behavioural difficulties throughout their schooling were carried into the workplace. ID9 shared: <i>"Holding down a stable job is difficult; my attention goes very quickly. If I'm interested in something, I can hold my attention"</i>. The search for meaningful activity therefore, was a driving force in their work lives as in their schooling. ID10 was <i>"...always having to ask the same thing over and over again"</i>.</p> <p>Many people with FASD also tire easily from having to think and concentrate harder than others. As a consequence they can generally only work part-time. ID8 stated: <i>"If I work more than 15 hours, I lose it. Then I get fired"</i>. Other participants got 'fired' for not turning up for work, having frequently to be reminded of how to do the job or being too slow. ID14 disclosed: <i>"I've got fired for not turning up and speaking my mind when I'm frustrated"</i>.</p> <p>Some older participants also reported experiencing discrimination by employers and colleagues, ID13 recounting: <i>"...passed the drug test, got eight weeks into the job and then they found out that I had a criminal record. They said: 'Your work ethics good, your work is top-notch, but we can't keep you on'"</i>. In response, participants suggested that doing things differently was a solution, not merely a problem, because it allowed them to overcome some difficulties. ID14 said: <i>"I think outside the square to make things easier for me"</i>, which he used to explain why he had generally managed to find paid work that gave him value and self-esteem [2].</p>		

The table continues on the next page

Table 2 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Children with FASD experience unfairness relating to the ethology of FASD. The children understand the cause of FASD and that it is preventable [1]</b></p> <p>For all but one, knowing the disability meant experiencing the unfairness of the etiology of FASD. These participants understood that FASD was caused by prenatal exposure to alcohol, and were aware of the significant impact of drinking in pregnancy.</p> <p>An 18-year-old stated: <i>"It's totally preventable (people have) freedom, think about drinking during pregnancy. She (his biological mother) didn't stop. Didn't know (she was pregnant)... and she stopped when she knew"</i>. Later the same boy when talking about his experience living with FASD stated: <i>"I realize it was not a choice. It was not a choice I could have made. (His exposure to alcohol before birth). It is a choice I had made for me."</i> He demonstrated his frustration when he very poignantly stated: FAS is an unfair thing. Seeing normal kids do things that are hard for me to do [1].</p>	<p>Children with FASD experience unfairness relating to the ethology of FASD. The children understand the cause of FASD and that it is preventable</p>	
<p><b>Children with FASD try hard to overcome disabilities in daily life activities [1]</b></p> <p>Overcoming the disability was a major theme in this study. All of the participants talked about how they tried to participate in life, despite their disability. A 12-year-old stated that having FAS <i>"effects my concentration. If I concentrate on something. I can get distracted. But for me it feels normal."</i> He then went on to describe how he participates in art, games and school despite problems in concentration. Similarly, a 9-year-old, despite significant cognitive and behavioural sequelae of prenatal exposure to alcohol, told about how he likes to participate in sports. <i>"I like to play hockey. It's, I play on a team."</i> An 11-year-old stated: <i>"I ask my brother to help me with my homework. Uh, I am not going to look stupid. If I try and he helps me it really helps."</i> A 9-year-old stated: <i>"FASD is being sick a long, long time. But I can try and have a very great life"</i> [1].</p>	<p>Children with FASD try hard to overcome the limitations of the disabilities in daily life activities [1]</p>	

The table continues on the next page

Table 2 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>The use of alcohol and drugs as an attempt to cope with mental health and social issues affected virtually all areas of the participants' lives [2]</b></p> <p>The use of alcohol and drugs was another common mental health concern. The same person disclosed: <i>"I'd go and drink to cope. That was my only relaxant"</i>; so alcohol was a cause and consequence of mental ill-health. These experiences affected virtually all areas of the participants' lives, including their employment, education, family and other social relationships (e.g. custody of children). Anger could quickly turn to rage fuelled by alcohol use: <i>"I would drink to get drunk and then try to fight people"</i> said ID10.</p> <p>All participants in the middle and older age groups reported mental health behaviours from alcohol and recreational drug usage. Pain and anxiety relief, boredom, addiction and impulsivity were major reasons. For five individuals marijuana calmed them down: <i>"I was pretty stressed when I was younger. When I had a smoke, it used to go away. It was my pain-killer in a way,"</i> said ID10.</p> <p>Hyper-reactivity to stress may contribute to this drug use which can lead to the development of psychiatric and behaviour problems as well as to legal system trouble. They begin abusing tobacco, marijuana and alcohol at an early age, perhaps because these substances have been part of their prenatal environment and biologically predetermine them to 'self-medicate' to feel normal.</p> <p>ID 13 confirmed: <i>"My mother let me have a cigarette to put me off them when I was two years old. Apparently, I smoked it like I'd been smoking for years!"</i> Keeping oneself occupied is a means by which one can quit drinking.</p> <p>ID10 recounted: <i>"When it comes to the alcohol side-of-things, I really need to stop, but I find it hard to do when boredom kicks in"</i>. Through its consumption, anger resulted: <i>"I got so wound up, I stormed out of the house, stormed up the road, got 3-4 kilometres, when a cop grabbed me. I turned round and beat the shit out of him!"</i> exclaimed ID13. It is thought that the problems of adolescence subside when young people with FASD enter their late twenties. [2]</p>	<p>Persons with FASD exhibit destructive behaviour such as criminal activities and use of alcohol and drugs, as a way of coping with mental and social difficulties</p>	

The table continues on the next page



Table 2 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Adults with FASD exhibit criminal behaviours and have a tendency to get involved in illegal activities [2]</b></p> <p>Most of the participants had been in trouble with the law, but only one had been incarcerated. He said: <i>"I've had everything from community work to jail. I'm not scared of any of it"</i> (ID10).</p> <p>ID14, suffering voyeurism, was <i>"...into cars, shops and burglaries. I've got an extensive record, but I've never been to jail"</i>. ID12 was still at school when she encountered the law: <i>"I got done for shoplifting in a school uniform"</i>. ID9 who stole, felt: <i>"I was more intelligent than the law cause I never got caught"</i>.</p> <p>The 17 and 30 year old females were the only participants who said that they had never stolen (ID2; 11). ID13 and ID12 mentioned drink driving related offences; the former admitting: <i>"I've got about 46-odd driving-related charges and nine drink driving charges"</i>. The latter confessed: <i>"I'm coming up to my fourth DIC"</i> (drunk in charge). Authority for ID8 meant 'the law' – <i>"When someone asked me something (judges), I wanted to say it the right way, 'cause I don't want to get in trouble"</i>. Many of the participants expressed their dislike for authority: <i>"When it came to the police and the court system and anyone else who would try and put that authority in my face, I didn't want to know"</i> said ID10.</p> <p>Four others exclaimed individually: <i>"I don't like being told what to do"</i> (ID7; 9; 10; 14). That difficulty is common among people with FASD.<sup>27</sup> Frustration with and truancy from school, workplace difficulties, relationships with peers involved in crime and impulsive behaviour all appear contributing risk factors.</p> <p>A few older participants became involved with the justice and/or legal system, e.g. through sentencing, assessment of fitness to stand trial and dealing with people working within the justice system. They reported that the police were uninterested in them having FASD. ID13 commented: <i>"As far as they were concerned, I was just drunk and disorderly and they were going to subdue me however. I was charged with assaulting police"</i>. ID10 added: <i>"All the police care about is making sure they've got a conviction. It's for the judge to decide if he cares: even then, they've got my report. I don't expect to be getting off with a slap on the wrist, but they don't offer any help"</i>.</p> <p>The principles of sentencing are based on cognitive functioning and reasoning abilities that may not be present in people with FASD<sup>31</sup> as ID8 discovered: <i>"The courts had to examine me to see if I was fit to stand trial because I didn't know what was 'yes' and 'no'"</i>. These individuals appear to others to understand more than they do. For them to receive fair treatment and appropriate support, their disabilities need to be accommodated within the criminal justice system.</p> <p>Of note is that only four individuals were reared or being reared by their biological mothers. Ten individuals had been in trouble with the law, twelve individuals dropping out of or being expelled from school. This disrupted school experience may help to account for their involvement with the criminal justice system. [2]</p>		

The table continues on the next page

Table 2 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Children with FASD experience that they get a lot of support and care from their parents [1]</b></p> <p>For all children in this study, feeling supported by parents was a central feature of their experience of living with Fetal Alcohol Spectrum Disorder, and they spontaneously reported feeling supported and cared for by the parents. For example, An 11-year-old stated: <i>"They love me and help me all the time."</i> When talking about people in his life, another young boy with significant cognitive disabilities, stated: <i>"Oh yeah, my parents. They are great."</i> He talked about how his mom and dad helped him <i>"concentrate and join things (play activities)."</i> Similarly, a 10-year-old girl stated: <i>"My dad and mom are great. My mom plays with me and my dad takes me fishing."</i></p> <p>Participants often attributed success in handling their disability to the parent. For example, a 13-year-old boy stated: <i>"I am glad I am on Dexedrine. It was my dad who thought of that (of using Dexedrine). It's good and helps me to focus. My dad helps me the most."</i></p> <p>A 6-year-old stated: <i>"She (his mother) won't let them (teachers and other kids) be mean to me. She talks to them and loud, and I do better at school. She's my mum."</i></p> <p>Although children with FASD felt a special connection with the parent, and felt supported, they were also aware of the negative effects that their disability had on their parents. One 11-year-old boy who described himself as being very close to his mother, stated very seriously and somewhat sadly: <i>"It (FASD) affects my family too. When I do something wrong, it emotionally bothers them."</i> Similarly, a 9-year-old, after talking about the love he felt for his parents stated: <i>"I argue too much with my mom" [1].</i></p>	Children with FASD experience that they get a lot of support and care from their parents	Experiences by persons with FASD of how their difficulties are met by others
<p><b>Adults with FASD feel under-supported by the social and health systems [2]</b></p> <p>Older participants raised concerns with the social and health systems and their professionals in respect of their reported attitudes towards them. In one reported case of discrimination, an offspring had been removed from the care of his biological parents by a social agency. As ID7 stated: <i>"They are discriminating against us because we have a disability"</i>. The chronic stress, unpredictability and isolation produced by this perceived social stigma of people on the margins of society added to their difficulty in functioning as parents with FASD. ID13 reported near-poverty issues: <i>"I was finding it so hard to get by. I owed the landlords two and a half thousand dollars in rent"</i>.</p> <p>Receiving a professional diagnosis of FASD also appeared difficult. <i>"It is of no help"</i> was the reason that ID10 believed he was not initially diagnosed. Some participants felt that they could not trust the health professionals because of negative comments and stigmatisation. ID9 commented: <i>"When someone tells me that you can't do that and it's a negative thing, I'm like, 'Yeah, I can do that'".</i> Perhaps doctors' negative remarks were intended to motivate their patients into proving otherwise.</p> <p>Incorrect medication and lack of knowledge by doctors, as perceived by the participants, further eroded their trust. ID12 elaborated, <i>"I've taken this medication and I've been going to pits. The psychiatrist put me on these. I don't think he knows much about fetal alcohol"</i>.</p> <p>Many had been prescribed Ritalin (methylphenidate), which is generally prescribed for attention-deficit hyperactivity disorder (ADHD) and experiencing side effects, gave it up. ID10 exclaimed <i>"Made me more psycho, so I stopped taking it"</i>.</p>	Adults with FASD feel under-supported by the social and health systems	

**Table 3** GRADE-CERQual Evidence Profile for each finding. Experiences among individuals with FASD.

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	Reference
Persons with FASD experience that their cognitive- and, mental health as well as social difficulties regarding friends, school and work, limit their daily life and make them feel different from others	<i>Minor to moderate methodological limitations</i> 2 studies with minor to moderate limitations (lack of information about researcher reflexivity)	<i>Minor concerns about adequacy</i> 2 studies offered moderately rich data overall 36 persons aged 6–37 years	<i>No or very minor concerns about coherence</i> Data consistent within and across both studies	<i>No concerns about relevance</i> 2 studies geographical spread: from Canada and New Zealand	Moderate confidence	2 studies with minor to moderate methodological limitations and minor concerns about adequacy	[1,2]
Children with FASD experience unfairness relating to ethology FASD	<i>Moderate methodological limitations</i> 1 study with moderate limitations (lack of information about researcher reflexivity)	<i>Moderate concerns about adequacy</i> The finding is based on one theme from on study. 22 persons, aged 6–18 years	<i>No concerns about coherence</i>	<i>Minor concerns about relevance</i> 1 study from Canada	Very low confidence	1 study with moderate concerns regarding methodological and adequacy as well as minor concerns regarding relevance	[1]
Children with FASD try hard to overcome the limitations of the disabilities in daily life activities	<i>Moderate methodological limitations</i> 1 study with moderate limitation (lack of information about researcher reflexivity)	<i>Serious concerns about adequacy</i> The finding is based on one theme from one study. 22 persons, aged 6–18 years)	<i>No concerns about coherence</i>	<i>Minor concerns about relevance</i> 1 study from Canada	Very low confidence	1 study with moderate concerns regarding methodological limitations and adequacy as well as minor concerns regarding relevance	[1]

*The table continues on the next page*

Table 3 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	Reference
Persons with FASD exhibit destructive behaviour such as criminal activities and use of alcohol and drugs, as a way of coping with mental and social difficulties	<i>Moderate methodological limitations</i> 1 study with moderate limitations (lack of information about researcher reflexivity)	<i>Serious concerns regarding adequacy of data</i> 1 study, 14 persons, aged 14–37 years	<i>No or very minor concerns about coherence</i> Data consistent within the study	<i>Minor concerns about relevance</i> 1 study from New Zealand	Very low confidence	1 study with moderate concerns regarding methodological limitations, serious concerns regarding adequacy, as well as minor concerns regarding relevance	[2]
Children with FASD experience that they get a lot of support and care from their parents	<i>Moderate methodological limitations</i> 1 study with moderate limitations (lack of information about researcher reflexivity)	<i>Serious concerns regarding adequacy of data</i> The finding is based on one theme from on study. 22 persons, aged 6–18 years	<i>No concerns about coherence</i>	<i>Minor concerns about relevance</i> 1 study from Canada	Very low confidence	1 study with moderate concerns regarding methodological limitations and adequacy as well as minor concerns regarding relevance	[1]
Young adults and adults with FASD feel under-supported by the social and health systems	<i>Moderate methodological limitations</i> 1 study with moderate limitations (lack of information about researcher reflexivity)	<i>Serious concerns about adequacy</i> 1 study, 14 persons, aged 14–37 years	<i>No concerns about coherence</i>	<i>Minor concerns about relevance</i> 1 study from New Zealand	Very low confidence	1 study with moderate concerns regarding methodological limitations, serious concerns regarding adequacy, as well as minor concerns regarding relevance	[2]

**FASD** = Fetal alcohol spectrum syndrome

Parents' experiences regarding their child's disabilities	
First level theme	Second level theme
Parents describe that their child has a diminished memory [3–6]	
Foster parents describe that their children have a diminished comprehension [6]	
Foster parents describe that their children lack understanding of the consequences of his/her actions [5]	
Foster parents describe that their children exhibit aggressive behaviour [3,5,7]	Parents experience that their children show various combinations of cognitive and physical disabilities
Foster parents describe that their children exhibit a destructive behaviour [5]	
Foster parents describe that their children are hyperactive [5]	
Foster parents describe that their children have a high pain tolerance [5]	
Foster parents experience that their children lack fear and judgment [5,8]	
Parents describe that their children exhibit various somatic problems [2,7,9]	
Parents describe that their children exhibit behavioural problems [7,10]	
Parents describe their child's difficulties with forming friendship [3,8,11]	
Parents describe their children possess difficulties with school attendance and maintaining employment [3,11,12]	Parents experience substantial social disadvantages associated with the child's characteristic linked to FASD
Parents describe their children possess difficulties with school attendance and maintaining employment [3,11]	
Parents describe that their children are likely taken advantage of [3]	
Parent describe their child's naivety [3]	
Parents describe the tendency for the child to end up in the wrong social environment [3,13]	

**Table 4**  
Overview of first and second level themes regarding the third level theme: Parents' experiences regarding their child's disabilities.

**Table 5** Study information/data, first level themes within the third level theme: parents' experiences regarding their child's disabilities.

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents describe that their child has a diminished memory [3–6]</b> Ellen described Elizabeth's tendency to forget simple tasks, such as putting on socks, as <i>"here today, gone tomorrow."</i> This theme describes parents' perceptions of the learning and memory challenges their children experience. Several of these children often require frequent cueing, reminding, and re-learning of even simple tasks. Christine explained that, <i>"it's frustrating because you get mad telling your kid the same thing a million and one times but you know he doesn't remember."</i> [3]</p> <p>One child remembered to do his homework, but never remembered to hand it in. Another child, at the age of seven, could never remember to catch the bus to school. All women stated that their offspring suffered memory problems [4]</p> <p>All of the foster parents described their FAS child's lack of memory skills as the child's inability to retain information after it was taught. One foster parent stated that when her child needed to retrieve information she was "oblivious" to what they discussed earlier. It's like I had not said a thing". Another parents described her FAS children's memory, stating: <i>"The tasks that you teach them today, when they go to bed tonight, it's like there must be a big black hole that it falls into. You have to reteach them every day!"</i> [5]</p> <p><i>"I tried to explain to them though that this is not how this condition [FAS] works. it's just not (.) yes you do work really well with other children but her [child's] particular disability is very different and one day she will be really good, you know, and the next day she'll forget things and that's not because she is being lazy, this is just what will happen"</i> [6]</p>	Parents experience that their children show various combinations of cognitive and physical disabilities	Parents' experiences regarding their child's disabilities
<p><b>Foster parents describe that their children have a diminished comprehension [6]</b> The parents also discussed their children's diminished comprehension. One of the foster parents described her 7 year old daughter's lack of comprehension like this: <i>"She held the book and looked at it. She couldn't read a word of it so she shock the book really hard and she got really frustrated and she said. Mama, I cannot read. She just kept shaking the book and trying to read"</i> [5].</p> <p><i>"And with [child] the way she is, the whole thing is really affecting her in a big way, because she doesn't know how to deal with it (...) because she can't organize stuff in her brain and she can't think about things, so she just keeps lashing out"</i> [6].</p>		
<p><b>Foster parents describe that their children lack understanding of the consequences of his/her actions [5]</b> Most of the parents reported that their foster children were unable to understand the consequences of their action. One foster parent explained it this way: <i>"Since they don't understand consequences, they will never avoid being put in situations that might have a negative consequence, from tearing up a toy at home, to wondering off with a stranger that could hurt them. They don't understand"</i> [5].</p>		

The table continues on the next page

Table 5 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Foster parents describe that their children exhibit aggressive behaviour [3,5,7]</b></p> <p>The foster parents described the children as being extremely aggressive. One foster parent described a situation like this way: <i>"She was mauling them, wrapping her arms and legs around them"</i>. Another parent explained the behaviour of her two children when they were two and three years old: <i>"I thought they were going to kill each other. I thought they would bite each other's fingers off. They were ripping hair out"</i> [5].</p> <p>Frances described how Fraser seemed "out of character" when he was seven years-old: <i>"Well that's when things started falling apart when he was 7...he just became very aggressive and he became quite delusional. He became extremely impulsive...he also made this suicidal gesture that he had a tensor bandage and he kind of wrapped it around his neck and it wouldn't have worked but at 7 years old I don't think he necessarily knew that. So he was in a lot of distress and he was aggressive it was totally out of character and that's when we really knew there was something wrong"</i> [3].</p> <p>Parents noted that their children were developmentally delayed. One parent of an older child reflected on her child's early years saying... <i>"She had weak sucking ability. She was tremulous in her muscle tone overall. Her sleep/wake circle was normal. She walked a little late...more than 18 months old. A second parent also noted developmental delay stating: "I mean he was 5 years old, still in a high chair, still in diapers...couldn't put more than two words together in a sentence..."</i></p> <p>One mother recalled <i>"She had esotropia...strabismus...ptosis. She had lots of skin problems. She had excavatum, the slightly sunken ribcage. She had heart murmur. She had bipolar disease..."</i> [7].</p>		
<p><b>Foster parents describe that their children exhibit a destructive behaviour [5]</b></p> <p>The foster parents described the FAS childrens' behaviour as being very destructive, and were discouraged that they could not seem to prevent the destructiveness. Many foster parents described a "picking" behaviour. Several parents reported that their child continually picked wallpapers off the walls. <i>"He eventually got that entire wallpaper strip off piece by piece..."</i> [5]</p>		
<p><b>Foster parents describe that their children are hyperactive [5]</b></p> <p>All the foster parents described the challenges of "constant motion" and "hyperactivity". One foster parent summed it up like this: <i>"He is fitting so bad, he doesn't have time to stop and concentrate. He is not able to sit and he is not learning"</i> [5]</p>		
<p><b>Foster parents describe that their children have a high pain tolerance [5]</b></p> <p>Seven of the eight foster parents expressed concerns about their children's high pain tolerance. One foster parent explained the following: <i>"This child never ever complains of an ear infection. You know how I tell? She can't hear you, or you see drainage. She doesn't feel pain"</i>. [5]</p>		

The table continues on the next page

Table 5 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Foster parents experience that their children lack fear and judgment [5,8]</b> Most of the parents reported that their FAS children did not exhibit fear and displayed a lack of judgement. The foster parents worried about their child's safety. One foster parent described it this way: <i>"One day a man walked by the house walking his dog. I turned my back and she is halfway down the street holding his hand and talking to him. A man she had never seen before. She did not know him."</i> [5]</p> <p>Parents observed that some of the issues around illegal behaviour stemmed from their child's tendency to make poor judgments in making friends.... She always chums with people who are in trouble, or on drugs. <i>"Being influenced by others contributed to illegal behaviours"</i> [8]</p>		
<p><b>Parents describe that their children exhibit various somatic problems [2,7,9]</b> Mother B began to suspect there were problems: <i>"... it was the floppiness of her arms and her legs.... I was petrified....I was petrified at that stage because I was thinking there is definitely, definitely something not right. Similarly, the birth mother knew from the moment her son was born: I guess from day one when he was born I did think then, that when I looked at him he had no flesh on him, you know, on his little bottom, there was just no flesh, it was just bone and I remember looking at him and thinking my goodness, what have I done to you .....he didn't have any muscle tone, and sometimes he'd go really, really rigid and arch his back and throw his head back....I think he was having fits, that's what I've learned since but generally his muscle tone was really floppy, his little legs just used to hang there, he couldn't hold his head up..."</i> [9].</p> <p>The present study revealed that one child could not see properly, most babies had a 'lazy' suck, one child was asthmatic as well as having extensively chalky teeth and one child had a high pain threshold to the extent of having a tooth capped without anaesthetic. Seven of the children experienced delayed milestones, five children experienced delayed speech/language, so that verbal communication was problematic.</p> <p>Two children suffered hearing problems. Six children suffered problems getting to sleep whilst others slept for extensive periods of time and had to be woken up to be fed. Other children did not like certain foods in their mouth [4].</p> <p>Adoptive parents noted that their children were developmentally delayed. In addition to developmental problems, parents noted that their children had medical problems. One parent recalled, <i>"she had estropia...strabismus... ptosis. She had a lot of skin problems. She had a heart murmur. She had bipolar disorder"</i> [7].</p>		
<p><b>Parents describe that their children exhibit behavioural problems [7,10]</b> Part of the difficulty that children with FAS have in school may result from poor behaviour. For example, one parent commented, <i>"I think she then started another parochial school and essentially had so many behavioural problems that she couldn't succeed there"</i>. Another recalled the difficult behaviour of her two children with FAS, <i>"She pushes and pushes until now it's no longer fun.... She doesn't know when to turn the limits off"</i> [7].</p> <p>The families also shared many stories about the children's problem behaviour, which ranged from daily annoyances (e.g., not doing chores, lying, not doing homework) to serious crises (stealing, setting fires to buildings, running away, using drugs or alcohol). [10]</p>	<p>Parents experience substantial social disadvantages associated with the child's characteristic linked to FASD</p>	

The table continues on the next page



Table 5 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents describe their child's difficulties with forming friendship [3,8,11]</b>                      All the participants described difficult situations in trying to raise their adolescents with FASD that included ....problems with friendships [11].</p> <p>Related to challenges creating and maintaining friendships, children with FASD in this study were often "taken advantage of" by peers. Some parents explained that their children had no "true" friends, while other children became connected with negative peer relationships. [3]</p> <p>Parents observed that some of the issues around illegal behaviour stemmed from their child's tendency to make poor judgments in making friends. ... She always chums with people who are in trouble, or on drugs. <i>"Being influenced by others contributed to illegal behaviours"</i> [8].</p>		
<p><b>Parents describe their children possess difficulties with school attendance and maintaining employment [3,11,12]</b>                      Parents described their children's challenges with maintaining school attendance and finding and maintaining employment. Jane related that Jeremy was kicked out of multiple school districts and several parents, such as Deidre, had to deal with multiple suspensions and sought out specialized school programs to meet their children's educational needs [3].</p> <p>All the participants described difficult situations in trying to raise their adolescents with FASD that included ... problems in school, problems with trying to get jobs [11].</p> <p>Hitting rock bottom occurred when children were not succeeding at school or in social relationships, caregivers were not keeping up appearances as parents, and caregivers were focusing a lot of energy and time on keeping children close. A specific incident could serve as a tipping point, as indicated by an adoptive mother: The difference between my son and the "in" group just got stronger and stronger and more set. He had an opportunity to go and play and jump on the trampoline of one of the children of the "in" group, who lives just next door. I noticed that he wasn't allowed on the trampoline. Then when the movie started almost all of the students from his class were there without their parents, and they would not let him sit with them. And that's after three years of putting the goal of social integration on his individual education plan, to make any kind of integration meaningful. So, it was a watershed moment [12].</p>		
<p><b>Parents describe that their children are likely taken advantage of [3]</b>                      Related to challenges creating and maintaining friendships, children with FASD in this study were often "taken advantage of" by peers. Jane described how Jeremy created friendships, <i>"He started to steal money and buy friends. He would buy cigarettes for his friends and that's how he made friends"</i> [3].</p>		

The table continues on the next page

Table 5 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parent describe their child's naivety [3]</b> Gloria described Gavin's social immaturity at school: <i>"He loves people, but he's so naive. We won't let him take valuable things to school, but he really wanted to take a basketball to school, and then it got 'lost', and then he got a book that was stolen"</i> [3].</p>		
<p><b>Parents describe the tendency for the child to end up in the wrong social environment [3,13]</b> "He's been involved in gangs, we know that. But because he doesn't understand things the way other people do, they will give him drugs to sell, and he'll sell the drugs and then spend the money himself. So we've had several instances where there have been gang hits on him, so it's either we pay the debt and free him up, or we risk having him killed...[4]. They recognized that their care and concern could be seen as judgmental in the eyes of their children. They worried that this might force their children out of safe relationships with them and into relationships with others who could be more accepting of their choices [13].</p>		

**Table 6** GRADE-CERQual Evidence Profile for each finding. Third level theme: parents' experiences regarding their child's disabilities.

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parents experience that their children show various combinations of cognitive and physical disabilities	<p><i>Moderate methodological limitations</i></p> <p>1 study with minor and 5 studies with moderate limitations</p> <p>Data analysis performed by one author and/or lack of reporting on researcher reflexivity</p> <p>1 study with serious lack of reporting on researcher reflexivity, unclear methodological description</p>	<p><i>Minor concerns about adequacy</i></p> <p>7 studies that together offered moderately rich data overall</p> <p>Biological-, adoptive- and foster parents were represented</p> <p>The number of participants in each study varied from 4 to 31</p> <p>In total 77 individuals</p>	<p><i>No concerns about coherence</i></p>	<p><i>No concerns about relevance</i></p> <p>7 studies contributed to this finding</p> <p>2 from USA, 1 from UK, 1 from New Zealand, 1 from Australia, 2 from Canada</p>	Moderate confidence	<p>We have moderate confidence that parents experience that the children show various combinations of cognitive and physical disabilities</p> <p>7 studies with moderately rich data contributed to this finding:</p> <p>2 from USA, 1 from UK, 1 from New Zealand, 1 from Australia, 2 from Canada</p> <p>The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations and minor concerns regarding adequacy of data</p>	[2,3,5–7,9,15]

*The table continues on the next page*

Table 6 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parents experience substantial social disadvantages associated with the child's characteristic linked to FASD	<i>Minor to moderate methodological limitations</i> 3 studies with minor and 5 studies with moderate limitations Data analysis performed by one author and/or lack of reporting on researcher reflexivity	<i>No concerns about adequacy</i> 8 studies that together offered rich data overall In total 90 individuals, 5–31 individuals in each study	<i>No concerns about coherence</i>	<i>Minor concerns about relevance</i> Concerns as to what extent the finding differ from a Swedish context 8 studies from 3 countries contributed to this finding: 5 from Canada, 2 from USA, 1 from New Zealand Biological-, adoptive- and foster parents were represented	Moderate confidence	We have moderate certainty that parents experience various substantial social disadvantages associated with the child's characteristic linked to FASD. 8 studies with rich data contributed to this finding: 5 from Canada, 2 from USA, 1 from New Zealand The reasons for rating down are minor to moderate concerns with regards to methodological limitations as well as relevance	[3,7,8,10–13]

Parents' experiences of parenthood in relation to FASD	
First level theme	Second level theme
Parents describe grief, regret and guilt following their child's FASD diagnosis [3,9]	Parents experience a variation of feelings following their child's FASD diagnosis
Parents felt relieved when their child was diagnosed [3,4,6]	
Parents feel socially judged because their adoptive child is diagnosed with FAS [9]	
Parents describe the importance of getting a formal diagnosis in order to get proper help from society [4,6,11,14,15]	Parents describe the importance of getting a formal diagnosis in order to get proper help from society
Parents experience joy, pride and devotion to their children (in spite of all difficulties) [6,7]	Parents express positive feelings such as joy, pride and devotion to their children (in spite of all difficulties)
Parents feel devoted to their child [7,10,13]	
Parents describe their children their recognition of their child's gifts and talents [3,6]	
Parents experience frustration and emotional conflict regarding their child [9]	Parents experience burdens such as stress and social isolation
Parents become burned out [12,13]	
Parents feel isolated [16]	
Parents experience that FASD puts stress on the family and makes family life difficult [9,16]	Parents experience that living with a child with FASD burdens the whole family
Parents experience that living with a child with FASD is a constant struggle and are sometimes comparing the experience with living in a war zone [3,10]	
Parents experience that other family members suffer from living with a child with FASD [3]	
Parents experience that their family has become socially isolated because of the difficulties with the child [3,16]	
Parents describe their experience of adapting to the special circumstances of raising a child with FASD [13]	Parents experience that they have to adapt their parenting strategies to their child's specific needs
Foster parents describe their strategies to cope when facing the difficulties that are associated with raising a child with FASD [5]	
Foster parents describe that getting to understand their child is one of the steps towards more successful parenting [5]	
Parents experience that providing structure and consistency for their child is an important strategy [5,15,17,18]	
Parents describe that controlling the child's environment is a way of protecting their child [3,13]	
Parents experience that their child functions best in a one-to-one situation [10,16]	
Parents experience that raising children with FASD is different from raising other children, requiring other approaches to parenting [16]	
Parenting experience a difficult balance between maintaining responsibility for and control over their child and giving them space to make their own choices and mistakes [13]	
Parents express fear and concern for their future as parents [13]	
Parents express concern for their child's future [5-7,16]	
Parents express concerns regarding what level of independence their child will achieve [3,5]	Parents express concern for their child's future and their own expected lifelong parenting
Parents express concern regarding their child's educational future [16]	
Parents expect lifelong challenges associated with their children's disabilities – and a lifelong need for parenting [15]	
Parents experience that they had to advocate their children, as well as having to fulfil multiple roles [6,15,17]	Parents experience that they have to advocate their children in multiple ways
Parents experience that they have had to fight in order to get help for their children from society [16]	

**Table 7**  
Overview of first and second level themes regarding the third level theme: Parents' experiences of parenthood in relation to FASD.

**Table 8** Study information/data, first level themes within the third level theme: parents' experiences of parenthood in relation to FASD.

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents describe grief, regret and guilt following their child's FASD diagnosis [3,9]</b>            Receiving a diagnosis of FASD seemed like a double-edged sword for many parents in this study. Birth mothers experienced grief and guilt for drinking during pregnancy. In addition, biological and non-biological parents expressed regret for "mishandling" situations before they were aware that their children were impacted by prenatal alcohol exposure [3].</p> <p>In addition to living with these struggles and fears, the birth parent also expressed her feelings of guilt in relation to the situation: <i>"I think all the time I was trying to find out if this was what was wrong I was able to put a lot of my personal stuff aside because I was fighting so hard for him but when you actually get that diagnosis it's like, oh my, oh boy, what have I done?... it's very hard to forgive yourself when you've actually damaged someone's life, irrevocably, you know, you can't turn the clock back... I've said sorry to him so many times and said I really, really wouldn't have wanted this life for you and I really am so sorry...but all I can do is be there for you to help you get through it, you know"</i> [9].</p>	Parents experience a variation of feelings following their child's FASD diagnosis	Parents' experiences of parenthood in relation to FASD
<p><b>Parents felt relieved when their child was diagnosed [3,4,6]</b>            Although parents experienced feelings of regret and grief, receiving a diagnosis also provided relief and validation as they came to understand the source of their children's challenges better. Ellen felt "a great comfort" when she received the diagnosis. Allison said that receiving a diagnosis provided insight regarding what to expect of Andrew [3].</p> <p>When the women did receive what they believed to be the correct diagnosis for their child, they expressed much relief, because as well as knowing what was actually wrong with the child, it also made sense of confusing behaviours they had observed and had thought were the consequences of their own poor mothering skills [4].</p> <p><i>"On reflection, now that we've found out he's got Fetal Alcohol it's a lot easier to manage him, when you know he actually can't understand what you're talking about (...) I just thought he was being naughty"</i> [6].</p>		
<p><b>Parents feel socially judged because their adoptive child is diagnosed with FAS [9]</b>            Having a child with a diagnosis of FAS positioned participants differently as mothers. Two adoptive parents found that if they told people their child had FAS, this raised questions about the disability and led to people making assumptions about them as mothers. To counter this, both parents felt they had to explain that the child was adopted, which for some is not a position that they would have chosen to be placed in [9].</p>		

*The table continues on the next*

Table 8 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents describe the importance of getting a formal diagnosis in order to get proper help from society [4,6,11,14,15]</b></p> <p>Although a diagnosis paved the way for participants to receive assistance money for their children, it also brought the potential of labels perceived as damaging by both the mothers and their children [11].</p> <p>Parents explain their hope to get proper help if their child receives a diagnosis. One parents explains: <i>"Then we can hopefully receive help in a right way and with the right intervention. Then we can inform the kindergarten that it is FAS...it is nothing that we have made up, it won't pass, and it cannot be medicated, it is just there"</i> [14].</p> <p>Parents of children with FASD expressed the need for a formal diagnosis for their child in order to "get some help" and increase understanding of their child's unique needs. While recognizing the necessity of a name for the behavioural and/or cognitive challenges, the need for a label was strictly a means to an end for most families [15].</p> <p>For appropriate recognition and intervention strategies to occur, the child with FASD requires to be diagnosed correctly, which also bodes well for the future, reducing the risk for later secondary disabilities, such as dependent living, confinement, addiction and mental health concerns [4].</p> <p><i>"Well they currently see a psychologist now, (...) she said she can tailor anything that we need to see her for. Now she's got those diagnoses she can tailor things to a more individual program for them"</i> [6].</p>		<p>Parents describe the importance of getting a formal diagnosis in order to get proper help from society</p>
<p><b>Parents experience joy, pride and devotion to their children (in spite of all difficulties) [6,7]</b></p> <p>All participating parents expressed deep pride in their children's accomplishment. One mother recalled her proudest moment <i>"She worked with homeless children ... and did a good job. She was always wonderful with children"</i>. Another parent proudly stated <i>"It was very difficult, but I have to say, the first two terms of sixth grade for her, she made the honor roll"</i>. The parents of a medically challenged 2-year-old exclaimed, <i>"he's just come so far! The medical, staff, you know, is just kind of awe!"</i></p> <p>A common theme, which was rather interesting, was the parents 'pride in their children's natural music ability [7].</p> <p><i>"We adore him and we love him and I know that children have normal behaviour patterns but there was just something more. Because I have four older children and I've worked with special needs children, and I could just see something that wasn't right"</i> [6].</p>		<p>Parents express positive feelings such as joy, pride and devotion to their children (in spite of all difficulties)</p>
<p><b>Parents feel devoted to their child [7,10,13]</b></p> <p>Parents expressed feelings of complete devotion to their children. <i>"I figured love conquers a lot. It doesn't conquer everything, but it conquers a lot, and the most important thing was a stable, loving, nurturing environments"</i> [7].</p> <p>Richard adopted Oscar after his girlfriend (Oscar's mother) died. Richard shared that he and Oscar "go to fish camp, hunt caribou and moose, and dog mush. Oscar is my right-hand man" [10].</p> <p>The women expressed joy and gratitude at having the opportunity to get to know and love their children... <i>"This is so beautiful, but what is at the end? And is there an end, what is that going to mean? I love being a parent and it is so awesome. But I have control of my kids now and I don't know what that is going to look like when they are 18, 20's and having [their own] children"</i> [13].</p>		

The table continues on the next

Table 8 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents describe their recognition of their child's gifts and talents [3,6]</b>            Many parents also discussed their children's gifts. Mary and Becky are gifted artistically. Jeremy is "an amazing musician, a gifted athlete, a loyal friend." Gavin is "warm and friendly. He always tries his best, and he wants to make others happy." Makayla is "a little ham." Andrew can be "a real kind and sweet person", and Dylan is "compassionate and forgiving." Karen explained that although the effects of prenatal alcohol exposure have negatively impacted Kevin's behaviour, having FAS is part of "who he is" [3].</p> <p><i>"Without the behaviours, he was a very persevering, clever little boy. I would say 'One day you are going to be an actor', because he just has this canny, canny way with him. He just makes people laugh" [6].</i></p>		
<p><b>Parents experience frustration and emotional conflict regarding their child [9]</b>            A great deal of emotional conflict was experienced by parents. Parents felt that they experienced life as a battle and they experienced anxiety and fear, with the birth parent adding her experiences of guilt. Experiencing life as a continual battle on behalf of their child was an experience expressed by all participants. This often positioned a parent in a way which was incongruous with their instinctive parenting behaviour [9].</p>	Parents experience burdens such as stress and social isolation	
<p><b>Parents become burned out [12,13]</b>            Parents become burned out by their children's behaviour and there are few, if any, supports available for intact families. The emotional stress is one of the unspoken problems in taking care of a person with FASD; the demands are constant and ever changing [13].</p> <p>When hitting rock bottom, caregivers focused on regulating their relationships rather than using strategies to fit their children into the school system and to fit in as parents. Because their children resisted going to school, they kept their children close and were vigilant about their behaviors in the hopes of getting them back into school. The caregivers disengaged and felt exhausted, angry, and drained. In some cases, they experienced guilt and grief, which made it difficult to stay intertwined with their children: <i>"For me it's not just the grief. It's the guilt too. It's just, like I go so far, you know, to overcome it. It's like I'm on my way to Italy and I get as far as Paris and then I end up back in Canada again. Like why can't I go, right? But that's FAS [fetal alcohol syndrome], right?" [12]</i></p>		
<p><b>Parents feel isolated [16]</b>            The families said that the difficulties they experienced with the children led them to become isolated. They were not able to go out socially, and this led to a restricted role that differed from their previous situation (e.g. prior to adoption) [16].</p>		
<p><b>Parents experience that FASD puts stress on the family and makes family life difficult [9,16]</b>            Families reported that the impact of feeling blamed and lack of support increased the pressure they felt. In at least one case, this led to marital breakdown:</p> <p><i>"We divorced five years ago. It was just ... the family just exploded, it was just, it broke down. Totally broke down" [16].</i></p> <p><i>"Every day I wake up and think what am I going to be faced with today? What's today going to be like? And that's hard on families (Mother B)" [9].</i></p>	Parents experience that living with a child with FASD burdens the whole family	

The table continues on the next



Table 8 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents experience that living with a child with FASD is a constant struggle and are sometimes comparing the experience with living in a war zone [3,10]</b>                      Living in a war zone" can create a chaotic home environment where "it's very hard to make a family seem like a family" "[3].                      Because of the serious nature of many of the children's behaviours (e.g., stealing, running away, using alcohol and marijuana) and the lack of local supports, many of the parents felt that their only options were residential treatment facilities. Alan's parents "sent him to an out-of-state lock-down facility" because "we just cannot take it anymore. We've received no help and Alan is disrupting our home life. We are not a family anymore" [10].</p> <p><b>Parents experience that other family members suffer from living with a child with FASD [3]</b>                      In the theme Collateral Damage, parents describe the impacts of this environment on family members' feelings, mental health, and relationships.                      Bob shared that fostering children with FASD has impacted his "social life significantly." Jane explains that her daughter was diagnosed with Post-Traumatic Stress Disorder as a result of Jeremy's violence in the home.                      Frances noted that her experience raising Fraser has tainted her perspective toward people affected by prenatal alcohol exposure: "I can't even say I can learn how to get along with a fetal alcohol kid because sometimes when he gets really aggressive, it's really hard to accept the behaviour. It's influenced my attitude" [3].</p>		
<p><b>Parents experience that their family has become socially isolated because of the difficulties with the child [3,16]</b>                      The families said that the difficulties they experienced with the children led them to become isolated. They were not able to go out socially, and this led to a restricted role that differed from their previous situation (e.g. prior to adoption): "<i>We're not doing any of the things that we thought we would be doing now when we adopted S. She doesn't get invited anywhere herself and we don't go with her anywhere, do we?</i>" [16].</p>		
<p><b>Parents describe their experience of adapting to the special circumstances of raising a child with FASD [13]</b>                      When discussing the challenges of parenting the way they were accustomed to operating before parenting children with FASD, one participant stated: "<i>[It is challenging] if you are a care giver and if you can't parent the same as what has been taught to you or [the way] you understand parenting. And so everything you know doesn't apply. Everything you have been taught or [that] Dr. Spock taught you, whatever child management, behaviour management, everything they teach you to do with kids doesn't work</i>" [13].</p>		Parents experience that they have to adapt their parenting strategies to their child's specific needs
<p><b>Foster parents describe their strategies to cope when facing the difficulties that are associated with raising a child with FASD [5]</b>                      Each foster parent had their own way of coping with their child. One parent stated that taking local classes that were offered for foster parents helped her to understand way children with FAS act the way they do. One foster parent expressed the importance of having a support system stating "<i>...with FAS kids it has to be a number one priority. If I didn't have people to call up when I am frustrated, or go to a friend's house for a while, I couldn't make it.</i>" One parent described her foster parent support group as her "life line" [5].</p>		

The table continues on the next

Table 8 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Foster parents describe that getting to understand their child is one of the steps towards more successful parenting [5]</b></p> <p>Foster parent explained that for in order for them to cope with the FAS child they needed to change their expectations and be more realistic about their child's potential. One foster parent expressed it like this <i>"They will never be just normal children. So once I got that into my mind, no matter how frustrated I got, I lowered my expectations. I call it letting go of the perfect picture"</i> [5].</p>		
<p><b>Parents experience that providing structure and consistency for their child is an important strategy [5,15,17,18]</b></p> <p>All of the foster parents discussed the importance for providing a consistent environment for their children. Any change in their daily routine was "difficult" and resulted in disequilibrium and chaos. One parent explained <i>"Even the change in a different jacket or different shoes can be particularly hard for him."</i> All of the foster parents discussed the necessity of a structured schedule: <i>"as soon as there is change in that daily schedule, he has lost it for the day. He is gone. He rages"</i> [5].</p> <p>"The routine is very important" this subtheme name came from an interview with Tamara, an adoptive mother to Jessica who has FASD. Parents in the current study spoke of the need to have a very structured home environment. As Karen, a foster mother to two daughters with FASD stressed: <i>"We stick to the same schedule like get up, you get dressed, you come and eat breakfast, and you brush your teeth. We get your lunch in the bag, you get your jacket and that on for school, and catch the bus ... Off days, by 11 o'clock it's horrible"</i> [15].</p> <p>Maintaining routines: "Everyday it's like the movie Groundhog Day" Living with them, it's like, ever see that movie Groundhog Day? Reminds me of that because these children...like normally any kids you have to tell them so many times so it sinks into their head. But these kids here, it's like every day you tell them and like, got erased during the night. Next day start over. Tell him again.</p> <p>It's taken us a while to adapt to having these kids ...so now that we're on a routine and understand that kids need that routine, it's easier for us now as well ...If you have everything as a routine, it's very simple [17].</p> <p><i>"...kids need to know who's in charge. They need to know they're safe and the way that they know that is by setting limits and consequences"</i> (Darlene caregiver) [18].</p>		
<p><b>Parents describe that controlling the child's environment is a way of protecting their child [3,13]</b></p> <p>The participants in this study felt that parenting could be challenging, but agreed that once they learned how to modify the environment for their children, rather than expect their children to change to fit the environment, it was easier [13].</p> <p>By "controlling" Jeremy's environment, Jane was able to help prevent her son being seriously hurt or killed. Because of their children's risk of social problems and learning deficits, many parents needed to find ways to control their children's environments to keep them from harm [3].</p>		

The table continues on the next

Table 8 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents experience that their child functions best in a one-to-one situation [10,16]</b>                      This sense of familial discord contrasts with the harmony reported when carers were on their own on a one-to-one basis with the children. Here the children were described as wonderful and great company: <i>"On a one-to-one he's fantastic. In a family unit it's a nightmare when we're all together [group agree] – an absolute nightmare. I love being with him on my own you know, we go out places or at home we do cooking, we do lots of stuff. He's great"</i> [16].                      Richard adopted Oscar after his girlfriend (Oscar's mother) died. Richard shared that he and Oscar <i>"go to fish camp, hunt caribou and moose, and dog mush. Oscar is my right-hand man"</i> [10].</p>		
<p><b>Parents experience that raising children with FASD is different from raising other children, requiring other approaches to parenting [16]</b>                      Families held the strong view that parenting a child with FASD was a very unique experience. In some families, other children with special needs and emotional difficulties had previously been fostered, yet the children with FASD were still considered to be exceptional [16].</p>		
<p><b>Parents experience a difficult balance between maintaining responsibility for and control over their child and giving them space to make their own choices and mistakes [13]</b>                      The participants realized that they could cause damage to the relationship with their child if they were not careful in this process of providing ongoing support, yet allowing their children to grow up. For example, one participant stated: <i>What if you alienate your child? What happens if you, at that stage, end up losing your child through that? Which I know could easily happen to me. You become the "society" that is giving him the secondary disability, because you just can't give up control</i> [13].</p>		
<p><b>Parents express fear and concern for their future as parents [13]</b>                      The women expressed joy and gratitude at having the opportunity to get to know and love their children, but they were fearful about their future as parents and their ability to maintain the current level of care when their children were adults. Many people with FASD will struggle to live on their own successfully and will need life-long supports [13].</p>		Parents express concern for their child's future and their own expected lifelong parenting

*The table continues on the next*

Table 8 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents express concern for their child's future [5–7,16]</b> All of the foster parents expressed fears for the future for their child [5].</p> <p>The theme of "not knowing" not only related to receiving no information or incomplete information about the adoptive child with FAS, but it also described another common feeling among these parents, "not knowing" about their child's future. The following statement is an example of this type of "not knowing": <i>"but you know she still has a long way to go. I don't know if she live independently, I really don't".</i></p> <p>A second parent expressed a similar sentiment "I wonder if he will have the propensity to alcoholism if he takes his first beer as a sophomore in high school with his buddies. I wonder about that. So we really don't know what to expect when he gets older. I suppose the concern is for the future. I seems very unpredictable [7].</p> <p>Further longer-term implications as an adult, for example, if the individual would be able to live independently, also caused worry: <i>"The professional said that we had no dreams or hopes for this child and I was putting him down and I said: "Yeah, he'll be really good at math and when he's living out on the streets rough, he'll be able to count how many cardboard boxes he's got to live in that night." [16]</i></p> <p><i>"I think, I just basically know what's going to happen. I can understand, I've seen other kids like [child] and what's happened to them. I don't know, it's hard to say if [child]'s going to get into trouble. [Child]'s going to be easily led because his brain doesn't work properly. [Child]'s going to be easily led and get into trouble. But I can only do the best that I can" [6].</i></p>		
<p><b>Parents express concern regarding what level of independence their child will achieve [3,5]</b> The lifelong parent represents parents' perceptions of lifelong challenges associated with their children's disabilities. It is suggested by them that their children will be dependent on some sort of support throughout their lives, and that their role as caregiver does not end when their children turn 18 years old. Interestingly, Jane's 18 year-old son Jeremy and Lorraine's 20 year-old son Larry telephoned their mothers during the interviews because they were in need of assistance. "[3].</p> <p>The theme of "not knowing" not only related to receiving no information or incomplete information about the adoptive child with FAS, but it also described another common feeling among these parents, "not knowing" about their child's future. The following statement is an example of this type of "not knowing". <i>"but you know she still has a long way to go. I don't know if she live independently, I really don't" [5].</i></p>		
<p><b>Parents express concern regarding their child's educational future [16]</b> The long-term implications, that's what everybody wants to know, you know what kind of life the child is going to have, what kind of difficulties that YOU are going to face. Our big issue again is now going to be secondary school. That's when we're really, really worried [16].</p>		

The table continues on the next

Table 8 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents expect lifelong challenges associated with their children's disabilities – and a lifelong need for parenting [15]</b></p> <p>Parents and caregivers of children with FASD acknowledged the lifelong challenges that interfere with their children's ability to live an independent adult life. In fact, most parents believe that their child (or children) will be unable to live without the assistance of a friend, mentor, or caregiver. Karen, a foster mother to a son with FASD, admitted, <i>"Patrick can never live on his own. Never. He needs structure, he needs support, and he needs someone to connect the dots for him... I don't even know how he'd survive."</i> Many parents of children with FASD worried that without their support, their child's future would involve homelessness, jail, or even death [15].</p>		
<p><b>Parents experience that they have had to advocate their children, as well as having to fulfil multiple roles [6,15,17]</b></p> <p>In addition to being caregivers, interview transcripts revealed that parents were also advocates, researchers, case managers, educators, therapists, employers, support workers, leaders, and students. Both parents of children with FASD identified having to advocate highly for their children, as well as having to fulfil multiple roles [15].</p> <p>I have become more of an advocate. Like writing the MP, writing letters to the editor and stuff like that. I worked hand in hand with the teacher last year, I gave him all the information, the pamphlets, everything, and he said...<i>"At first, Denise, I thought maybe it was just Hayley not wanting to listen and not wanting to..."</i> But he said, <i>"After reading all the stuff, you know, I understand better."</i> [17]</p> <p><i>"It's not their fault in any way, but if the education system and the parenting system is having difficulties, well then, by them being tested, it's up to us, me as the parent to take from it and the school to learn how we can change things and fine-tune things to suit them better"</i> [13].</p> <p><i>"It was my lack of qualifications. Yeah I am an annoying parent I guess because I would advocate. Even before we started at the school I was giving them the information (...) but it's kind of like [school saying] 'this is how we've done it for the last however many years at the school so this is how we will continue to do it'"</i> [6].</p>	Parents experience that they have to advocate their children in multiple ways	
<p><b>Parents experience that they have had to fight in order to get help for their children from society [16]</b></p> <p>The lack of perceived support led some respondents to assert that they had to struggle to obtain the support to which they felt they were entitled. They felt that too much of their time was spent trying to obtain the help needed for their families, often with little benefit. These struggles were often experienced with multi-professional groups.</p> <p><i>"I would want someone to say you're not going to have to fight social services, you're not going to have to fight education to get a placement, you're not going to have to argue with health over resources or whatever, and then I would have felt more confident about carrying on."</i></p> <p><i>"It's this brick wall I keep hitting, what is FAS, that's the brick wall I keep hitting all the time"</i> [16].</p>		

**Table 9** GRADE-CERQual Evidence Profile for each finding. Third level theme: parents' experiences of parenthood in relation to FASD.

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parents experience a variation of feelings following their child's FASD diagnosis	<i>Moderate methodological limitations</i> 2 studies with moderate limitations Data analysis performed by one author and/or lack of reporting on researcher reflexivity 1 study with serious lack of reporting on researcher reflexivity Unclear methodological description	<i>Minor concerns about adequacy</i> The finding is based on themes from three studies together offered moderately rich data overall Biological-, adoptive- and foster parents were represented Number of participants varied from 4 to 11, in total 23	<i>No concerns about coherence</i>	<i>No concerns about relevance</i> 3 studies contributed to this finding: 1 from Canada, 1 from New Zealand, 1 from UK	Moderate confidence	We have moderate confidence that parents experience a variation of feelings when their children is diagnosed with FASD 3 studies contributed to this finding: 1 from Canada, 1 from New Zealand, 1 from UK  The reasons for rating down are moderate concerns regarding methodological limitations as well as adequacy of data	[3,4,9]

*The table continues on the next page*

Table 9 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parents describe the importance of getting a formal diagnosis in order to get help from society	<p><i>Moderate methodological limitations</i></p> <p>1 study with minor and 4 studies with moderate limitations (lack of reporting on researcher reflexivity and/or limited information regarding data analysis)</p>	<p><i>Minor concerns about adequacy</i></p> <p>The finding is based on themes from five studies together offered moderately rich data overall</p> <p>Biological-, adoptive- and foster parents were represented</p> <p>Number of participants varied from 7 to 31, in total 64</p>	<p><i>No concerns about coherence</i></p>	<p><i>No concerns about relevance</i></p> <p>5 studies contributed to this finding:</p> <p>2 from Canada, 1 from New Zealand, 1 from Australia, 1 from Sweden</p>	Moderate confidence	<p>We have moderate confidence that parents describe the importance of getting a formal diagnosis in order to get help from society</p> <p>5 studies contributed to this finding:</p> <p>2 from Canada, 1 from New Zealand, 1 from Australia, 1 from Sweden</p> <p>The reasons for rating down are moderate concerns regarding methodological limitations and minor concerns regarding adequacy of data</p>	[4,6,11,14,15]
Parents express positive feelings such as joy, pride and devotion to their children (in spite of all difficulties)	<p><i>Moderate methodological limitations</i></p> <p>1 study with minor and 4 studies with moderate limitations</p> <p>Data analysis performed by one author and/or lack of reporting on researcher reflexivity</p>	<p><i>Minor concerns about adequacy</i></p> <p>5 studies, some, but not all with rich data</p> <p>Biological-, adoptive- and foster parents were represented</p> <p>Number of participants varied from 5 to 11, in total 36</p>	<p><i>No concerns about coherence</i></p>	<p><i>No to minor concerns about relevance</i></p> <p>5 studies contributed to this finding:</p> <p>2 from Canada, 1 from Australia, 2 from USA</p>	Moderate confidence	<p>We have moderate confidence that parents experience joy, pride and devotion to their children (in spite of all difficulties)</p> <p>5 studies contributed to this finding:</p> <p>2 from Canada, 1 from Australia, 2 from USA</p> <p>The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations as well as adequacy of data</p>	[3,6,7,10,13]

The table continues on the next page

Table 9 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parents experience burdens such as stress and social isolation	<i>Minor to moderate methodological limitations</i> 1 study with minor limitations, 2 studies with moderate limitations (lack of reporting on researcher reflexivity and limited information regarding data analysis), 1 study with serious limitations (lack of reporting on researcher reflexivity, unclear methodological description)	<i>Minor concerns about adequacy</i> 4 studies that together offered moderately rich data overall Biological-, adoptive- and foster parents were represented Number of participants varied from 4 to 30, in total 56	<i>No to minor concerns about coherence</i> Data reasonably consistent across the studies	<i>No concerns about relevance</i> 4 studies contributed to this finding: 2 from UK, 2 from Canada	Moderate confidence	We have moderate confidence that parents experience burdens such as emotional stress and social isolation 4 studies contributed to this finding: 2 from UK, 2 from Canada The reasons for rating down are minor to moderate concerns with regards to methodological limitations, as well as adequacy of data	[9,12,13,16]

The table continues on the next page



Table 9 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parents experience burdens such as stress and social isolation	<p><i>Minor to moderate methodological limitations</i></p> <p>1 study with minor limitations, 1 study with moderate limitations (lack of reporting on researcher reflexivity and limited information regarding data analysis</p> <p>1 study with serious limitations (lack of reporting on researcher reflexivity, unclear methodological description)</p>	<p><i>Minor concerns about adequacy</i></p> <p>3 studies that together offered moderately rich data overall</p> <p>Biological-, adoptive- and foster parents were represented</p> <p>Number of participants varied from 4 to 30, in total 39</p>	<p><i>No to minor concerns about coherence</i></p> <p>Data reasonably consistent across the studies</p>	<p><i>No concerns about relevance</i></p> <p>3 studies contributed to this finding:</p> <p>2 from UK, 1 from Canada</p>	Moderate confidence	<p>We have moderate confidence that parents experience burdens such as emotional stress and social isolation</p> <p>3 studies contributed to this finding:</p> <p>2 from UK, 1 from Canada</p> <p>The reasons for rating down are minor to moderate concerns with regards to methodological limitations, as well as adequacy of data</p>	[9,13,16]

The table continues on the next page

Table 9 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parents experience that living with a child with FASD burdens the whole family	<i>Moderate methodological limitation</i> 3 studies with moderate limitations (limited information regarding data analysis or data analysis performed by only one author and/or lack of reporting on researcher reflexivity) 1 study with serious limitations (lack of reporting on researcher reflexivity, unclear methodological description)	<i>Minor concerns about adequacy</i> 4 studies that together offered moderately rich data overall Biological-, adoptive- and foster parents were represented Number of participants varied from 4 to 30, in total 50	<i>No concerns about coherence</i>	<i>No concerns about relevance</i> 4 studies contributed to this finding: 2 from UK, 1 from USA, 1 from Canada	Moderate confidence	We have moderate confidence that parents experience that living with a child with FASD burdens the whole family 4 studies contributed to this finding: 2 from UK, 1 from USA, 1 from Canada  The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations and relevance, and minor concerns regarding adequacy	[3,9,10,16]

The table continues on the next page

Table 9 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parents experience that they have to adapt their parenting strategies to their child's specific needs	<i>Moderate methodological limitation</i> 1 study with minor and 7 studies with moderate limitations (limited information regarding data analysis or data analysis performed by only one author and/or lack of reporting on researcher reflexivity)	<i>No concerns about adequacy</i> 8 studies that together offered rich data overall Biological-, adoptive- and foster parents were represented Number of participants varied from 5 to 84, in total 180	<i>No concerns about coherence</i>	<i>No concerns about relevance</i> 8 studies contributed to this finding: 5 from Canada, 1 from UK, 2 from USA	Moderate confidence	We have moderate confidence that parents experience that they have to adapt their parenting strategies to their child's specific needs  8 studies contributed to this finding: 5 from Canada, 1 from UK, 2 from USA  The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations	[3,5,10,13, 15-17]

The table continues on the next page

Table 9 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parents express concern for their child's future and their own expected lifelong parenting	<i>Moderate methodological limitation</i> 1 study with minor limitations, 6 studies with moderate limitations (limited information regarding data analysis or data analysis performed by only one author and/or lack of reporting on researcher reflexivity)	<i>No concerns about adequacy</i> 7 studies that together offered rich data overall Biological-, adoptive- and foster parents were represented Number of participants varied from 5 to 31, in total 90	<i>No concerns about coherence</i>	<i>Minor concerns about relevance</i> Because of uncertainty as to what extent the contextual factors that effected the parents' concerns for the future differ from the Swedish context. This could for example be differences in how society deals with support to people who cannot manage an independent life 7 studies contributed to this finding: 3 from Canada, 2 from USA, 1 from Australia, 1 from UK	Moderate confidence	We have moderate confidence that parents express concern for their child's future and their own expected lifelong parenting 7 studies contributed to this finding: 3 from Canada, 2 from USA, 1 from Australia, 1 from UK The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations as well as minor concerns regarding relevance	[3,5–7,13,15,16]

The table continues on the next page

Table 9 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parents experience that they have to advocate their children in multiple ways	<i>Moderate methodological limitation</i> 4 studies with moderate limitations (limited information regarding data analysis or data analysis performed by only one author and/or lack of reporting on researcher reflexivity)	<i>Minor concerns about adequacy</i> Four studies that together offered moderately rich data overall Biological-, adoptive- and foster parents were represented Number of participants varied from 30 to 84, in total 155	<i>No concerns about coherence</i>	<i>No to minor concerns about relevance</i> Because of uncertainty as to what extent the contextual factors that effected the parents' need to advocate differed from the Swedish context) 4 studies contributed to this finding: 2 from Canada, 1 from UK, 1 from Australia	Moderate confidence	We have moderate confidence that parents experience that they have to advocate their children in multiple ways 4 studies contributed to this finding: 2 from Canada, 1 from UK, 1 from Australia The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations, and minor concerns regarding relevance and adequacy	[6,15–17]

**Table 10**  
Overview of first and second level themes regarding the third level theme: Parent's experiences regarding society in their role as parents to a child with FASD.

Parent's experiences regarding society in their role as parents to a child with FASD	
First level theme	Second level theme
Adoptive and foster parents were not given proper information that their child had FAS or FASD or what kind of consequences such diagnosis may bring [3,7,10,16]	When taking a child on board, adoptive and foster parents were not given enough information by social workers or the health care that their child had FAS/FASD or its potential impact
Biological mothers lacked information about harmful effects of alcohol use during pregnancy [4]	
Biological mothers experience that they are not listened to (or believed) by healthcare providers and social workers [4]	Biological mothers feel uninformed, blamed, not listened to and not taken seriously
Biological mothers experience that they are treated judgmentally by healthcare providers [4]	
Biological mothers experience that the police blame them for their child's behaviour [4]	
Biological parents recognize that patterns relating to "FASD" such as alcohol abuse are common across generations [11]	Biological parents recognise that FASD is related to sociocultural patterns
Parents whose children have been diagnosed with FASD experience that they had to struggle to receive this diagnosis [3,4,6]	Parents striving for a diagnosis experience this as a struggle
The process of getting a diagnosis is frustrating and stressful for parents [15]	
Biological mothers experience lack of support from the healthcare service [4]	Parents stress out the importance of support to children with FASD and their parents from professionals within health care, social care, and school
Parents lack help from the social service agencies [19]	
Biological mothers experience that teachers are ignoring their concerns for the child [4]	
Biological mother experience that schoolwork is not adjusted to suit the abilities of their children [4]	
Parents experience that their child is not included in the classroom [4,14]	
Parents who have received support describe appreciation when getting support [3,9,12,14,17,18]	
Parents experience a lack of knowledge about FASD, including related difficulties and problem behaviours, among professionals (doctors, social workers, and educators) [4,6,9,10,12,14,16,17]	Parents experience lack of understanding and knowledge about FASD among professionals and feel blamed for bad parenting
Biological mothers experience that there is little or no knowledge of the syndrome among the police [4]	

**Table 11** Study information/data, first level themes within the third level theme: parent's experiences regarding society in their role as parents to a child with FASD.

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Adoptive and foster parents were not given proper information that their child had FAS or FASD, or what kind of consequences such diagnosis may bring [3,7,10,16]</b>                      Of the three adoptive mothers involved in the study, only one had been informed at the outset prior to adoption of her daughter that there were indications of FAS [9].</p> <p>Parents reported (based on what they knew post adoption), that at the time of the pre-adoption interview, they had not been given enough information to allow for a truly informed decision [16].</p> <p>Following the feeling of delight in the adoption of their child or children, parents related that they had been given either no information, or incomplete information about their child's diagnosis [7].</p> <p><i>"After we signed the adoption papers, the social worker says 'by the way, we found out that his mom used to drink and do drugs', and that was it. That is all she mentioned. I didn't have a clue what FASD was" [3].</i></p> <p>The long-term impact of the disability was never conveyed by professionals nor fully realized by foster and adoptive parents [10].</p>	<p>When taking a child on board, adoptive and foster parents were not given enough information by social workers or the health care that their child had FAS/FASD or its potential impact</p>	<p>Parent's experiences regarding society in their role as parents to a "FASD"-child</p>
<p><b>Biological mothers lacked information about harmful effects of alcohol use during pregnancy [4]</b>                      All women had never heard of FASD prior to or during pregnancy. All women stated that had they have known about the disorder prior to or during pregnancy, they would never have drunk or continued to drink, alcohol [4].</p>	<p>Biological mothers feel uninformed, blamed, not listened to and not taken seriously</p>	
<p><b>Biological mothers experience that they are not listened to (or believed) by healthcare providers and social workers [4]</b>                      Because of the mothers' general lack of knowledge within the medical and health arenas, the mothers said that they were generally not listened to by the professionals. This appeared to be especially so when the mother encountered a health conversation with a male doctor. One mother became so frustrated with the negative conversations she had with her GP in relation to her offspring's disabilities.</p> <p>Another mother, recalling the extremely negative response from a social worker following her call because her daughter had been sexually abused at school by a boy pupil, stated: <i>"She didn't believe it – she thinks my daughter was making it all up. From November, when it happened, right through December, she made my daughter go to school with him and in late December, early January, she tried to take an overdose of pills here. I rang the social worker and asked her to come out and talk to my daughter two days before she did it. She came out and said to me "There's nothing wrong with the child – she's just attention-seeking!" [4].</i></p>		
<p><b>Biological mothers experience that they are treated judgmentally by healthcare providers [4]</b>                      Because the biological mother of the disabled child drank in pregnancy, they believed that the medical and health professionals with whom they came into contact, tended to view them judgmentally and with a somewhat negative attitude. Two women stated that they received negative remarks from their GP when consulted regarding their child with FASD, with one being regarded as "neurotic" and "to take a pill and go home" and the other as a "hypochondriac". [4]</p>		

*The table continues on the next page*

Table 11 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Biological mothers experience that the police blame them for their child's behaviour [4]</b> It is not uncommon for the child with FASD to participate in petty crime, for which the mother is blamed. The eldest mother, who was working full-time, recalled her encounter with the police: <i>"I'm trying to work and he was pinching my car and pinching my little scooter... Taking off at nine and of course, they said "Why aren't you watching him?" and I said "You have to sleep sometimes" [4].</i></p>		
<p><b>Biological parents recognize that patterns relating to "FASD" such as alcohol abuse are common across generations [11]</b> Intergenerational patterns exist for many reasons; in the case of the participants, the root causes are undoubtedly related to the historical and collective emotional injury Aboriginal peoples have experienced as a result of colonialism. This injury manifests itself in various behaviours, including the abuse of alcohol, which leads to FASD, among other problems. For example, individuals pass on unhealthy ways of behaving or coping that they use to protect themselves from their pain and trauma, such as abusing alcohol or drugs; these behaviours are modelled for their children, sometimes those involved even being aware of these dynamics [11].</p>	Biological parents recognise that FASD is related to sociocultural patterns	
<p><b>Parents whose children have been diagnosed with FASD experience that they had to struggle to receive this diagnosis [3,4,6]</b> All birthmothers had experienced great difficulty in obtaining a diagnosis for their child from a diagnostic medical professional, creating much frustration, as they were constantly fighting the system [4].  Several participants indicated that prenatal alcohol exposure was "not on (the doctor's) radar screen", and that aberrations in behaviour and development were dismissed as "nothing to worry about." Frances expressed frustration with the lack of awareness of FASD exhibited by some mental health professionals [3].  Process of diagnosis as empowering; All caregivers described similar experiences of negative past encounters with health professionals. <i>"Nobody was recognising, you know? They were saying she was delayed, yes. We went there [Child Development Service] and we were diagnosed. Hurrah! We know what's wrong and let's deal with it. It was really the staff, all of them were really wonderful" [6].</i></p>	Parents striving for a diagnosis experience this as a struggle	
<p><b>The process of getting a diagnosis is frustrating and stressful for parents [15]</b> "It's just frustrating": The search for a diagnosis. Parents expressed a strong desire to receive a formal diagnosis for their children, but despite the need to obtain a diagnosis, several parents described the process as being one of the most difficult periods of time associated with raising their child.  "It's like hitting a brick wall": The FASD diagnostic process. Parents of children with FASD identified three particular areas of the diagnostic process that were stressful: the need to travel to see specialists, the lack of confirmed maternal drinking, and the absence of distinctive facial features [15].</p>		

The table continues on the next page



Table 11 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Biological mothers experience lack of support from the healthcare service [4]</b>                      During pregnancy, labour, delivery and the postpartum period, the women found themselves in the midst of many different medical and health professionals. The women expected that these professionals would show empathy and support as well as knowledge. However, the women said that they did not experience this, being left to cope the best way they could with their 'different' child.                      All mothers said that they felt unsupported, with the health and medical professionals unable to meet the special needs of their children. The women were also unsupported because the medical professionals did not give any information or explanation for why certain things were happening to their children, especially when witnessing for the first time their child's unpredictable behaviour [4].</p>		<p>Parent stress out the importance of support to children with FASD and their parents from professionals within health care, social care, and school</p>
<p><b>Parents lack help from the social service agencies [10]</b>                      Many of the parents felt that they did not receive the help they needed from the social service agencies. The parents seemed to feel that once they made the decision to foster or adopt, they were "on their own without support" [10].</p>		
<p><b>Biological mothers experience that teachers are ignoring their concerns for the child [4]</b>                      The teachers took no interest in the child and could not be bothered to listen to the birth mothers. One mother recounted: "She (teacher) said "oh, well she doesn't look like a FASD child" and I said "well, I know she doesn't, but she's been in reading recovery since she started school" [4].</p>		
<p><b>Biological mothers experience that the schoolwork is not adjusted to suit the abilities of their children [4]</b>                      Because the teachers failed to recognize that the child's cognitive ability does not equate to the child's chronological age, the individual was given schoolwork which was not in keeping with his or her educational age. One mother stated: "They were sending her home with homework she couldn't do..."                      Another mother said of her daughter: "Just completely overwhelmed...she just can't do it. But to get her to sit down for that long anyway...is very hard". As the child said to her mother "It's too hard, Mum. I just can't read, I can't learn. It's too hard" [4].</p>		
<p><b>Parents experience that their child is not included in the classroom [4,14]</b>                      Because the disabled child appears not to fit into the classroom scene, he or she tends to become frustrated, a result of which, is that the individual is excluded by the teachers and the other children. Five mothers believed that their children were frustrated in mainstream schooling.                      One mother said: "He was in intermediate school and he was terribly tormented by these children and so frustrated at one stage – he was locked out of the classroom by other children". [4].                      Att barn inte får adekvat hjälp i skolan, utan att en del skolor väljer att förflytta barnen med "speciella behov" till en annan skola, innebär i en del fall att ansvaret läggs över på en annan aktör – något som i sig är ett exempel på en maktutövning [14].</p>		

The table continues on the next page

Table 11 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents who have received support describe appreciation when getting support [3,9,12,14,17,18]</b></p> <p>However, the picture was very different when professionals were knowledgeable about FAS or were prepared to accept that the diagnosis existed. We have a very good paediatrician who has been involved with her since she was born because, quite luckily actually, he's the paediatrician in the local Children's Centre but he's also the paediatrician whose on the adoption panel so he was the one that first said, when she was born and came into the adoption service, that we think she has FAS [9].</p> <p>Ellen described that successful school supports for Elizabeth may be in part due to Ellen's work in the disabilities field and her efforts in advocating for Elizabeth: She had great support through school, terrific support. Maybe that's [the school board], maybe it's what people thought I might know or who I might know in this kind of work, but she got terrific support. I felt kind of guilty because sometimes you see kids and they are struggling and they're not getting that support. Her siblings never got it either because nobody fought for them. I felt guilty that Elizabeth got more than anyone else, but I can't do anything about their kids. FASD specific strategies provided by personal and professional supports were beneficial for parents raising their children [3].</p> <p>Så den här nya då som han fick, assistenten, hon är ju jättebra! /.../ Hon är en erfaren pedagog och väldigt lugn... och liksom... tar det inte personlig när han är... ful i munnen eller nått sådär... och hon tar det i hans takt och hon har ju förstått det, har ju tagit allting på allvar /.../ hon är intresserad så hon läser allt hon kommer över själv. (förälder 5) [14].</p> <p>That was kind of the breakthrough point as far as finally getting a doctor who got it and was willing to work with us and Nicholas. She listened and she tried to get other people to... provide the proper supports for him and everything... Any help that she could offer us, she would, you know? [17].</p> <p>A caregiver who regularly attended a support group in her community described a place where she could fit in as a parent: <i>"It gives me comfort, just being at the group. I feel confident dealing with everyday life with me and my family. It makes me more confident. Yeah, I'm doing the right thing for my kids, actually."</i> When ideal long-term outcomes were not reached and hitting rock bottom happened frequently, caregivers described cycling backwards or losing ground: <i>"I guess my personal philosophy is if you're not moving forward you're actually going backwards. So I think without there being some sense of moving forward then we're in trouble, I guess. Either in trouble or we're going backwards"</i> [12].</p> <p>Caregivers pointed to the need for students with FASD to see caregivers and teachers as working together to reinforce consistent practices: <i>"I want school to work with me because with FASD kids, consistency is the key [across domains]... because a lot of kids think that school and home are separate and that mom doesn't know what goes on in the school and school doesn't know what goes on at home..."</i> [18].</p>		

The table continues on the next page

Table 11 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents experience a lack of knowledge about FASD, including related difficulties and problem behaviours, among professionals (doctors, social workers, and educators) [4,6,9,10,12,14,16,17]</b></p> <p><i>"All parents experienced the disability in terms of the lack of provision from professionals and services that understood the diagnosis and could support the needs of the families and their children."</i> [9].</p> <p><i>"Many of the families reported difficulties in getting appropriate and sufficient support from professionals they met. This included doctors, social workers and educators. This led to greater perceived difficulties and the impression that they had nowhere to turn to obtain answers about how to best support their children" "Often families reported that as a result of this lack of knowledge about FASD, they were blamed for poor parenting rather than supported by professionals"</i> [16].</p> <p>Caregivers living in poverty were less likely to be seen as adequate parents and more likely to be blamed when their children did not fit in at school. They did not have the resources to buffer the images seen by school personnel. A single father who indicated he was "on welfare, with five hundred and three dollars of support with two kids," described his difficulties: The principal that was there [said], "The kids [children] got dirty clothes." But listen what happened that time, okay. Upstairs, there was only one washer, two dryers for eighteen apartments. Now when you get family allowance you've got to be there early in the morning because, if you're not, you can't wash your clothes. Now me, two kids, it gets piled up there and then, okay, I got like Monday they sprayed my place there [for lice] three weeks in a row. I got still twelve loads of laundry to do but the laundry room is always busy.</p> <p>Do it at the laundromat? Do you know how much it costs at the laundromat? One dollar and fifty cents to wash, one dollar and fifty cents to dry. [12]</p> <p><i>"It was also common for the professionals to confuse FAS with Down syndrome (because of the similar facial characteristics) or ADHD."</i> [4]</p> <p><i>"The women said that since the teachers had little or no knowledge of FASD, the disabled child was labelled as lazy, naughty, spoiled, and dumb."</i> They appeared unable to comprehend that the child's behaviour was not of his or her own making [4].</p> <p>Unfortunately the majority of participants felt that doctors lacked knowledge of FASD and were therefore not very helpful [17].</p> <p>De (lärarna i grundskolan) tyckte det var beteendesvårigheter hela tiden å... De förstod inte hans svårigheter heller... /.../ sen fick han ju en till diagnos, och då fick han autism också. Han hade FAS och språkstörning från början, och så fick han Autism också och ADD... och då fick han ju komma till en liten grupp där de hade special utbildning och det var ju som... Så det var helt, det var helt en helt förvandlad kille, han blev tryggare liksom. (Förälder 6) [14].</p>		<p>Parents experience lack of understanding and knowledge about FASD among professionals and feel blamed for bad parenting</p>

*Study information/data continues on the next page*

*The table continues on the next page*

Table 11 continued

First level theme Study information/data	Second level theme	Third level theme
<i>Study information/data continued</i>		
<p>Many of the parents felt that they did not receive the help they needed from the social service agencies." – theme Limited or No Support.</p> <p><i>"Alan's parents expressed their frustration over the lack of support: "We are on our own. No one understands our situation, In fact, we feel like they blame us for Alan's behaviour. We call [the social service agency] and they say that there are no services for kids with FAS." [10]</i></p> <p><i>"We'd had a long battle with [child] at doctors and paediatricians (...) Yeah and you know all the doctors all fobbed it off saying 'No it will be right'. We went to occupational therapy for a bit and they said 'She'll be right, she'll be right'. But things were just not right.</i></p> <p><i>"But they [the school] didn't understand, when you withdraw the support (...), even though you might get them to a certain point, always need that support. So they just though they would give her an intense program, like a reading recovery program and that she would be fixed." [6]</i></p>		
<hr/> <p><b>Biological mothers experience that there is little or no knowledge of the syndrome among the police [4]</b></p> <p>The eldest mother, who was working full-time, recalled her encounter with the police: <i>"I'm trying to work and he was pinching my car and pinching my little scooter...Taking off at nine and of course, they said "Why aren't you watching him?" and I said "You have to sleep sometimes".</i></p> <hr/>		

**Table 12** GRADE-CERQual Evidence Profile for each finding. Third level theme: parent's experiences regarding society in their role as parents to a child with FASD.

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
When taking a child onboard, adoptive and foster parents were not given enough information by social workers or the health care that their child had FAS/FASD or its potential impact	<p><i>Moderate methodological limitations</i></p> <p>4 studies with moderate limitations (limited information regarding data analysis or data analysis was performed by only one author and/ or lack of reporting on researcher reflexivity)</p> <p>1 study with serious limitations (lack of reporting on researcher reflexivity, unclear methodological description)</p>	<p><i>No to minor concerns about adequacy</i></p> <p>Five studies that together offered moderately rich data overall</p> <p>Biological, adoptive- and foster parents were represented</p> <p>Number of participants varied from 4 to 30, in total 55</p>	<p><i>No concerns about coherence</i></p>	<p><i>Moderate concerns about relevance</i></p> <p>5 studies contributed to this finding:</p> <p>1 from Canada, 2 from UK, 2 from USA</p> <p>Because of uncertainty as to what extent the contextual factors differed from the Swedish context and the uncertainties whether today's routines differ</p>	Low confidence	<p>We have low confidence that when taking a child on board, adoptive and foster parents were not given enough information about the possibility that their child has been exposed to alcohol or the potential impact of this</p> <p>5 studies contributed to this finding:</p> <p>1 from Canada, 2 from UK, 2 from USA</p> <p>This finding was graded as low confidence because of moderate concerns regarding methodological limitations and serious concerns regarding relevance</p>	[3,7,9,10,16]

*The table continues on the next page*

Table 12 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Biological mothers feel uninformed, blamed, not listened to and not taken seriously	<i>Moderate methodological limitations</i> 1 study with moderate limitations (unclear reporting on researcher reflexivity)	<i>Moderate concerns about adequacy</i> The finding is based on several themes from one study Biological mothers were represented Number of participants was 8	<i>No concerns about coherence</i>	<i>Moderate concerns about relevance</i> 1 study from New Zealand contributed to this finding Because of uncertainty as to what extent the contextual factors differ from other countries including Sweden, regarding for example attitudes towards drinking	Very low confidence	We have very low confidence that biological mothers' feel uninformed, blamed, not listened to and not taken seriously. One study from New Zealand contributed to this finding. This finding was graded as very low certainty because of moderate concerns regarding methodological limitations, adequacy and relevance	[4]
Biological parents recognize that FASD is related to sociocultural patterns	<i>No methodological limitations</i> 1 study with no methodological limitations	<i>Serious concerns about adequacy</i> The finding is based on one theme from one study Aboriginal mothers were represented Number of participants was 8	<i>No concerns about coherence</i>	<i>Moderate concerns about relevance</i> 1 study from Canada contributed to this finding Because of uncertainty as to what extent the contextual factors differ from other countries including Sweden	Very low confidence	We have very low certainty that biological parents recognize that FASD is related to sociocultural patterns. One study from Canada contributed to this finding. This finding was graded as very low certainty because of moderate concerns regarding relevance and serious concerns regarding adequacy of data	[11]

The table continues on the next page

Table 12 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parents striving for a diagnosis experience this as a struggle	<i>Moderate methodological limitations</i> 4 studies with moderate limitations (limited information regarding data analysis or data analysis was performed by only one author and/or lack or unclear reporting on researcher reflexivity)	<i>Minor concerns about adequacy</i> Four studies that together offered moderately rich data overall Biological-, adoptive- and foster parents were represented Number of participants varied from 8 to 31, in total 60	<i>No concerns about coherence</i>	<i>No concerns about relevance</i> 4 studies contributed to this finding: 2 from Canada, 1 from Australia, 1 from New Zealand	Moderate confidence	We have moderate confidence that parents striving for a diagnosis experience this as a struggle 4 studies contributed to this finding: 2 from Canada, 1 from Australia, 1 from New Zealand The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations and minor concerns regarding adequacy	[3,4,6,15]

The table continues on the next page

Table 12 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parents experience lack of understanding and knowledge about FASD among professionals and feel blamed for bad parenting	<i>Moderate methodological limitations</i> 7 studies with moderate limitations (limited information regarding data analysis or data analysis were performed by only one author and/or lack of reporting on researcher reflexivity, 1 study with serious limitations (lack of reporting on researcher reflexivity, unclear methodological description)	<i>No to minor concerns about adequacy</i> 8 studies that together offered rich data overall  Biological-, adoptive- and foster parents were represented  Number of participants varied from 5 to 84, in total 148	<i>No concerns about coherence</i>	<i>No to minor concerns about relevance</i> 8 studies contributed to this finding: 2 from UK, 2 from Canada, 1 from USA, 1 from New Zealand, 1 from Sweden, 1 from Australia	Moderate confidence	We have moderate confidence that parents experience lack of understanding and knowledge about FASD among professionals, and feel blamed for bad parenting  8 studies contributed to this finding: 2 from UK, 2 from Canada, 1 from New Zealand, 1 from USA, 1 from Australia, 1 from Sweden  The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations and no to minor concerns regarding adequacy and relevance	[4,6,9,10,12,14,16,17]

The table continues on the next page



Table 12 continued

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	References
Parent stress out the importance of support to children with FASD and their parents from professionals within health care, social care, and school	<p><i>Moderate methodological limitations</i></p> <p>7 studies with moderate limitations (limited information regarding data analysis or data analysis were performed by only one author and/or lack of reporting on researcher reflexivity)</p> <p>1 study with serious limitations (lack of reporting on researcher reflexivity, unclear methodological description)</p>	<p><i>No to minor concerns about adequacy</i></p> <p>Eight studies that together offered rich data overall</p> <p>Biological-, adoptive- and foster parents were represented</p> <p>Number of participants varied from 4 to 84, in total 125</p>	<p><i>No to minor concerns about coherence</i></p> <p>Data reasonably consistent across the studies</p>	<p><i>No concerns about relevance</i></p> <p>8 studies contributed to this finding:</p> <p>4 from Canada, 1 from New Zealand, 1 from UK, 1 from USA, 1 from Sweden</p>	Moderate confidence	<p>We have moderate confidence that parents stress out the importance of support to children with FASD and their parents from professionals within health care, social care, and school</p> <p>8 studies contributed to this finding:</p> <p>4 from Canada, 1 from New Zealand, 1 from UK, 1 from USA, 1 from Sweden</p> <p>The reasons for rating down are moderate concerns with regards to methodological limitations, and minor concerns regarding adequacy</p>	[3,4,9,10,12,14,17,18]

**Table 13**  
 Overview of first and second level themes regarding the third level theme: Parents experiences from respite care interventions

Parents experiences from respite care interventions	
First level theme	Second level theme
Parents experience respite care as a reprieve and family recreation [20]	Parents experience respite care as beneficial for the family, but experience recurrent difficulties in receiving it and also a deficiency in system coordination
Parents experience the process of seeking respite as a recurrent issue [20]	
Parents experience difficulties in getting respite, which creates frustration and stress [20]	
Parents wish for flexibility and coordination around respite care [20]	

**Table 14** Study information/data, first level themes within the third level theme: parents experiences from respite care interventions.

Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents experience respite care as a reprieve and family recreation [20]</b>                      Respite allowed everyone in the home to have a brief reprieve before these demands became too much and led to the point of 'breaking'. It was an opportunity to 'rest', 'refresh', 'relax', 'refocus', 'regroup' and 'recharge' – a break for the parent, the child and the family as a whole.</p>	Parents experience respite care as beneficial for the family, but experience recurrent difficulties in receiving it and also a deficiency in system coordination	Experiences from respite care intervention
<p><b>Parents experience the process of seeking respite as a recurrent issue [20]</b>                      'Meeting the requirements' emerged as a bidirectional process, one in which providers had certain 'criteria' that were required of their potential clients, but also one in which the clients had certain expectations and needs that the providers had to meet. The ability to pay for respite care emerged as an essential condition. Obtaining and co-ordinating funding with the types of care being sought proved difficult for a number of the participants. There was a lack of uniformity or consistency in how respite was paid for.</p> <p>A medical diagnosis was a common requirement of many respite services and funding schemes that parents had attempted to access. This was problematic for those respondents who had been unable to obtain a diagnosis for their child because of their child's age, erratic symptoms or lack of cooperation from diagnostic centres. As one parent recounted 'the services are there; you get the diagnosis you can have services'.</p> <p>Age was another requirement that had posed difficulties for some participants.</p> <p>Behavioural requirements posed by providers acted as a constraint in several cases, restricting access to both formal and informal support.</p> <p>The need for consistency surfaced as a requirement in the everyday lives of the participants' children. Because of this, parents expressed a need for a consistent time, setting and provider for their children's respite placements.</p> <p>A further requirement was the need for flexibility. Respondents expressed disparate needs in terms of the amounts and types they felt they required as well as different conceptions of what the 'perfect' respite service would be for them. Embedded within this was a concern over having to 'predict the future'.</p> <p>Transportation and location was another critical issue.</p>		
<p><b>Parents experience difficulties in getting respite, which creates frustration and stress [20]</b>                      Obtaining information and support, arranging funding and other requirements and getting respite care was often a lengthy and time-consuming endeavour, leading to feelings of apprehension and confusion for many parents. Participants expressed frustration with not knowing how to find respite care, who to approach, or what to ask about options available to them, and a great deal of uncertainty about how the system functions. Caregivers used numerous strategies to find respite care and to navigate through the system.</p>		

*The table continues on the next page*

Table 14 continued

Study information/data	Second level theme	Third level theme
<p><b>Parents wish for flexibility and coordination around respite care [20]</b></p> <p>Recognising the need or desire for respite support and, in turn, asking for help was not enough. Several respondents related situations where they had approached others (including social workers, government funding agencies and physicians) for assistance with finding respite care or 'meeting the requirements' and had been denied. Often, suggestions for other opportunities for assistance were not provided. Some parents discussed their frustrations in being turned away by respite care providers after contacting them for help.</p> <p>A common thread throughout the participants' accounts was a call for 'more': more services, providers, accessibility, availability and funding; more support for parents, follow-up, cultural sensitivity, communication and willingness to help; a need for more options, flexibility, guidelines for providers; and streamlining, co-ordination and centralization in the delivery of respite support.</p> <p>Some felt they needed respite, others did not; some felt that their needs were being met; others wanted additional support.</p> <p>Regardless of the type or quantity of services being used or parents' evaluations of the degree to which their needs were being satisfied, most were very grateful for the respite they had receive.</p>		

**Table 15** GRADE-CERQual Evidence Profile for each finding. Parents experiences regarding respite care.

Summary of review finding	Methodological limitations	Adequacy	Coherence	Relevance**	CERQual assessment of confidence in the evidence	Explanation of CERQual assessment	Reference
Parents experience respite care as beneficial for the family, but experience recurrent difficulties in getting it and also a deficiency in system coordination	<i>No to minor methodological, limitations</i> 1 study with no or minor limitations	<i>Serious concerns about adequacy</i> 1 study from Canada. 10 parents	<i>No concerns about coherence</i>	<i>Moderate concerns about relevance</i> 1 study, no geographical spread Swedish context somewhat different	Very low confidence	1 study with, serious concerns regarding adequacy and moderate concerns regarding relevance	[20]

# Referenser

1. Stade B, Beyene J, Buller K, Ross S, Patterson K, Stevens B, et al. Feeling different: the experience of living with fetal alcohol spectrum disorder. *J Popul Ther Clin Pharmacol* 2011;18:e475-85.
2. Salmon JV, Buetow SA. An exploration of the experiences and perspectives of New Zealanders with fetal alcohol spectrum disorder. *J Popul Ther Clin Pharmacol* 2012;19:e41-50.
3. Sanders JL, Buck G. A long journey: Biological and non-biological parents' experiences raising children with FASD. *J Popul Ther Clin Pharmacol* 2010;17:e308-e322.
4. Salmon J. Fetal alcohol spectrum disorder: New Zealand birth mothers' experiences. *Can J Clin Pharmacol* 2008;15:e191-213.
5. Gardner J. Fetal Alcohol Syndrome. *MCN Am J Matern Child Nurs* 2000;25:252-7.
6. Chamberlain K, Reid N, Warner J, Shelton D, Dawe S. A qualitative evaluation of caregivers' experiences, understanding and outcomes following diagnosis of FASD. *Res Dev Disabil* 2016;0.
7. Granitsas J. Experiences of adoptive parents of children with fetal alcohol syndrome. *Clin Excell Nurse Pract* 2004;8:22-8.
8. Watson SL, Hayes SA, Coons KD, Radford-Paz E. Autism spectrum disorder and fetal alcohol spectrum disorder. Part II: a qualitative comparison of parenting stress. *J Intellect Dev Disabil* 2013;38:105-13.
9. Whitehurst T. Raising a child with foetal alcohol syndrome: Hearing the parent voice. *Br J Learn Disabil* 2012;40:187-93.
10. Ryan S, Ferguson DL. On, yet under, the radar: Students with Fetal Alcohol Syndrome Disorder. *Except Child* 2006;72:363-79.
11. Johnston S, Boyle JS. Northern British Columbian Aboriginal mothers: raising adolescents with fetal alcohol spectrum disorder. *J Transcult Nurs* 2013;24:60-7.
12. Swart S, Hall WA, McKee WT, Ford L. Caregivers' management of schooling for their children with fetal alcohol spectrum disorder. *Qual Health Res* 2014;24:1540-52.
13. Michaud D, Temple V. The complexities of caring for individuals with fetal alcohol spectrum disorder: The perspective of mothers. *J Dev Disabl* 2013;19:94-101.
14. Hagström. E, Lindberg. E. Det är inget påhittat, inget som går över och det kan inte medicineras bort – En studie om föräldrars och skolkuratorers upplevelser kring hur barn med alkoholskador bemöts av samhället. Kandidatuppsats. Göteborgs universitet. Available from <https://gupea.ub.gu.se/handle/2077/44575>. Downloaded 2016-08-23. 2016.
15. Watson S, Hayes S, Radford-Paz E, Coons K. 'I'm hoping, I'm hoping...' Thoughts about the future from families of children with autism or fetal alcohol spectrum disorder in Ontario. *J Dev Disabl* 2013;19:76-93.
16. Mukherjee R, Wray E, Commers M, Hollins S, Curfs L. The impact of raising a child with FASD upon carers: findings from a mixed methodology study in the UK. *Adoption & Fostering* 2013;37:43-56.
17. Coons KD, Watson SL, Schinke RJ, Yantzi NM. Adaptation in families raising children with fetal alcohol spectrum disorder. Part I: What has helped. *J Intellect Dev Disabil* 2016;41:150-65.
18. Poth C, Pei J, Job JM, Wyper K. Toward Intentional, Reflective, and Assimilative Classroom Practices with Students with FASD. *Teacher Educator* 2014;49:247-264.
19. Ryan SM. Instructional Tips: Supporting the Educational Needs of Students with Fetal Alcohol Spectrum Disorders. *TEACHING Exceptional Children Plus* 2006;3:12.
20. Doig JL, McLennan JD, Urchuk L. 'Jumping through hoops': parents' experiences with seeking respite care for children with special needs. *Child Care Health Dev* 2009;35:234-42.

# SBU – Statens beredning för medicinsk och social utvärdering

webbplats: [www.sbu.se](http://www.sbu.se) • twitter: @SBU\_se • telefon: 08-412 32 00