

Multidisciplinär konferens för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov

Systematisk översikt på effekter och analys av vårdkonsumtion och kostnader



Rapport HTA och StoCHE 2024:03

HTA Region Stockholm är ett centrum för oberoende utvärdering av det vetenskapliga underlaget för metoder och processer inom vården. På engelska kallas det Health Technology Assessment (HTA). En HTA-analys kan belysa nytta, risker samt hälsoekonomiska och etiska aspekter av utvärderade metoder och ger därigenom stöd för prioritering och beslutsfattande om vårdens utformning.

Stockholm centrum för hälsoekonomi (StoCHE) utreder hur hälso- och sjukvårdens resurser kan användas för att bidra till ett effektivt och jämlikt vårdutnyttjande samt förbättrad hälsa. Analyserna baseras på hälsoekonomisk teori och metod och avser att informera politiker och andra beslutsfattare på olika nivåer inom hälso- och sjukvården. Vi bidrar även med expertkunskap kring hälsoekonomiska resultat och metoder till Region Stockholms hälso- och sjukvårdsverksamhet samt stödjer regionernas nationella system för kunskapsstyrning.

Citera gärna HTA Region Stockholm och Stockholm centrum för hälsoekonomi, men glöm inte att uppge källan. Bilder, fotografier och illustrationer är skyddade av upphovsrätten. Det innebär att du måste ha upphovsmannens tillstånd för att använda dem.

Referera till rapporten enligt: Multidisciplinär konferens för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov – Systematisk översikt på effekter och analys av vårdkonsumtion och kostnader. HTA Region Stockholm & Stockholm centrum för hälsoekonomi, Centrum för hälsoekonomi, informatik och sjukvårdsforskning, Region Stockholm; 2024 (2. Uppl.). Rapport HTA och StoCHE 2024:03.

Medverkande

Från HTA Region Stockholm

- Projektledare: Naama Kenan Modén
- Informationsspecialist: Maria Nilsson
- Ansvarig chef: Monica Hultcrantz

Från StoCHE

- Projektledare: Karoline Magnusdottir
- Projektmedlemmar: Fanny Goude, Zartashia Ghani
- Metodstöd: Sofia Sveréus
- Kvalitetsgranskning: Camilla Nystrand Länsman

HTA Region Stockholm & Stockholm centrum för hälsoekonomi (StoCHE)

Tomtebodavägen 18A, 171 65 Solna

hta.slso@regionstockholm.se | stoche.slso@regionstockholm.se

Dnr: SLSO 2024-0874

Omslagsfoto: Upphovsman - stock.adobe.com

Stockholm September 2024

Rapporten kan laddas ner från hta.regionstockholm.se och stoche.regionstockholm.se

Förord

Syftet med den här rapporten har varit att ge en ökad förståelse för hur hälsan hos patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov samt hälso- och sjukvårdens resurser kan påverkas vid ett införande av multidisciplinära konferenser (MDK). Genom introduktionen av MDK för den aktuella patientgruppen eftersträvas en mer sammanhållen och samordnad vård. Arbetet har gjorts inom HTA Region Stockholms och Stockholm centrum för hälsoekonomi (StoCHE) uppdrag från Hälso- och sjukvårdsförvaltningen att stötta Region Stockholms arbete med kunskapsstöd inom det Nationella systemet för kunskapsstyrning. Förfrågan kommer ursprungligen från Kunskapsstyrningens Nationella programområde (NPO) sällsynta sjukdomar som sett ett behov av att belysa hälsoekonomiska aspekter av vårdförloppet för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov i samband med arbetet att utforma vårdförloppet. I skrivandets stund beräknas hela vårdförloppet för sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov publiceras under 2025.

HTA Region Stockholm och StoCHE vill rikta ett stort tack till medlemmarna i NPO som agerat sakkunniga i framtagandet av underlaget. Vi vill också tacka Mikael Havasi från Sveriges Kommuner och Regioner för hjälp med uttag ur databasen för kostnad per patient (KPP).

Monica Hultcrantz
Enhetschef
HTA Region Stockholm

Emelie Heintz
Enhetschef
Stockholm centrum för hälsoekonomi

Innehållsförteckning

Förord.....	2
Figurförteckning.....	4
Tabellförteckning.....	5
Förkortningar	6
Sammanfattning	7
Bakgrund	8
Populationen i vårdförloppet	9
Syfte och frågeställningar	10
Effekter av MDK på vårdkonsumtion och hälsa.....	11
Metod	11
Resultat.....	12
Vårdkonsumtion, vårdkostnad och resursförbrukning vid införande av MDK	14
Metod	14
Resultat.....	18
Diskussion	33
Referenser.....	37
Bilagor	40
Bilaga 1. Litteratursökning	40
Bilaga 2. Lista med utvalda diagnoser.....	44
Bilaga 3. Utökad beskrivning av studier från diskussion	45

Figurförteckning

Figur 1. Individer med sällsynt sjukdom och komplext vårdbehov.....	9
Figur 2. Flödesschema effektstudier.....	12
Figur 3. Individer med utvalda diagnoser.	15
Figur 4. Antal patienter med de utvalda diagnoserna som vid något tillfälle blivit registrerad för sin sällsynta sjukdom inom somatisk öppenvård under 2022 uppdelat per län (Källa: KPP-data, 2022).....	20
Figur 5. Antal patienter med de utvalda diagnoserna som vid något tillfälle blivit registrerad för sin sällsynta sjukdom inom somatisk slutenvård under 2022 uppdelat per län (Källa: KPP-data, 2022).....	20
Figur 6. Genomsnittlig vårdkonsumtion där utvalda diagnoser varit registrerad inom somatisk öppen- och slutenvård (Källa: KPP-data, 2022).	21
Figur 7. Kostnader inom somatisk öppenvård för besök där utvalda diagnoser varit registrerad (Källa: KPP-data, 2022).....	22
Figur 8. Kostnader inom somatisk slutenvård där utvalda diagnoserna varit registrerad (Källa: KPP-data, 2022).	22
Figur 9. Totalkostnad per 100 000 invånare per år vid införande av en MDK, utifrån hur stor andel av patientgruppen som har behov av MDK (prevalens: 88 per 100 000 invånare).....	23
Figur 10. Ålder- och könsfördelning för patienter med utvalda diagnoser (Källa: VAL-data, 2022).	24
Figur 11. Fördelning av besöksfrekvens per patient inom öppenvården (Källa: VAL-data, 2022).	26
Figur 12. Fördelningen av antalet vårdtillfällen bland patienter inom slutenvård (Källa: VAL-data, 2022).	28
Figur 13. Andel somatisk öppenvård där utvalda diagnoserna registrerats (Källa: VAL-data, 2022).	29
Figur 14. Andel somatisk slutenvård där utvalda diagnoser registrerats (Källa: VAL-data, 2022).	29
Figur 15. Öppenvårdsbesök uppdelat per åldersgrupp och vårdgren (Källa: VAL, 2022).	30
Figur 16. Antal slutenvårdstillfällen och antal vård dagar uppdelat per åldersgrupp (Källa: VAL, 2022).....	31
Figur 17. MVO inom somatisk öppenvård med flest besök (Källa: VAL-data, 2022).....	32
Figur 18. MVO inom somatisk slutenvård med flest vårdtillfällen (Källa: VAL-data, 2022).	32

Tabellförteckning

Tabell 1. Uppskattade kostnader för vårdpersonal för en MDK.....	18
Tabell 2. Deskriptiv statistik för vårdkonsumtion inom öppenvård.	25
Tabell 3. Deskriptiv statistik för vårdkonsumtion inom slutenvården.....	27
Tabell 4. Deskriptiv statistik för vårdtid per slutenvårdstillfälle.....	27

Förkortningar

CES	Centrum för epidemiologi och samhällsmedicin
CHIS	Centrum för hälsoekonomi, informatik och sjukvårdsforskning
HTA	Health technology assessment
KPP	Kostnad per patient
KVÅ	Klassifikation av vårdåtgärder
MDK	Multidisciplinära konferenser
MVO	Medicinska verksamhetsområden
NPO	Nationellt programområde
PROM	Patientrapporterade utfallsmått
QALY	Kvalitetsjusterade levnadsår
RCT	Randomiserade kliniska prövningar
SKR	Sveriges Kommuner och Regioner
StoCHE	Stockholm centrum för hälsoekonomi
VAL	En uppsättning administrativa sjukvårdsdatabaser inom Region Stockholm

Sammanfattning

Detta underlag har tagits fram som stöd för ett nationellt patientcentrerat och sammanhållet vårdförlopp för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov. Rapporten syftar till att ge en ökad förståelse för hur patienternas hälsa och hälso- och sjukvårdens resurser kan påverkas vid ett införande av MDK för den aktuella patientgruppen. Rapporten innehåller dels en systematisk litteraturöversikt om hälsorelaterade effekter och förändrad vårdkonsumtion till följd av MDK, dels en analys av patientgruppens vårdkonsumtion och kostnader kopplade till ett eventuellt införande av MDK.

Den systematiska litteraturöversikten identifierade inga relevanta studier av effekter på hälsa och vårdkonsumtion till följd av MDK för den aktuella patientgruppen. Detta innebar att det inte heller var möjligt att bedöma kostnadseffektiviteten av MDK. Analysen i detta underlag fokuserade därför på kostnaden för MDK i relation till patientgruppens vårdkostnader som helhet, utan att ta hänsyn till i vilken utsträckning MDK har en effekt.

I samråd med sakkunniga inom Nationellt programområde (NPO) sällsynta sjukdomar valdes ett antal diagnoser ut för att representera de cirka 6 000 sällsynta diagnoser som potentiellt omfattas av vårdförloppet. Resultaten visade en betydande variation i vårdkonsumtion för patienter med de utvalda diagnoserna. Det visade också att patienter med utvalda diagnoser hade många besök och vårdtillfällen där deras sällsynta diagnos inte registrerats.

Kostnaden för en MDK har i vårt underlag uppskattats till omkring 7 900 kronor per tillfälle för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov. Resultaten visar att kostnaden för ett införande av MDK skulle utgöra en andel motsvarande cirka 2,6–5,3 procent av patientgruppens genomsnittliga kostnad för somatisk specialistvård där en av de utvalda diagnoserna registrerats. Eftersom vi inte har kunnat kostnadssätta alla delar av den totala vårdkonsumtionen, är den faktiska andelen än mindre.

I rapporten diskuteras metodologiska utmaningar och begränsningar, samt förslag på framtida analyser. För en ökad förståelse av konsekvenserna av att implementera MDK för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov, understryks behov av ytterligare utvärdering. Att utvärdera effekten av att implementera MDK med hjälp av patientrapporterade utfallsmått kan vara ett sätt att närma sig förståelsen av vilka hälsorelaterade effekter som kan observeras av interventionen.

Bakgrund

Under 2022 startade arbetet med att ta fram ett personcentrerat och sammanhållet vårdförlopp för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov. För närvarande finns det över 6 000 kända sällsynta diagnoser, varav 70 procent debuterar under barndomen [1]. Prevalensen för alla sällsynta diagnoser i befolkningen uppskattas till cirka 3,5–5,9 procent [2]. Sällsynta sjukdomar har ofta långvariga konsekvenser för en individs livsvillkor och utmaningar som betingas av sällsyntheten [1]. Många sällsynta sjukdomar har en omfattande inverkan på flera organ i kroppen, samt påverkar kognitiva och psykiska förmågor, vilket kan resultera i diverse funktionsnedsättningar. Individer med sällsynta sjukdomar har ofta ett betydande behov av stöd och behandling från ett brett spektrum av specialister inom hälso- och sjukvården. Dessutom kan dessa behov förändras och utvecklas över tid [1].

Vårdförloppets mål är bland annat ökad samverkan på nationell nivå [3]. Individer med sällsynta sjukdomar utgör en patientgrupp som riskerar att missa den utredning, behandling eller det stöd de är berättigade till. För många av dessa patienter är de medicinska behoven omfattande och komplexa, och specifik behandling är ofta otillräcklig eller saknas. Kommunikation och samordning mellan olika instanser, som till exempel vård och omsorg, Försäkringskassan och Arbetsförmedlingen är ofta bristfällig. Trots att det i nuläget finns resurser för behandling och rådgivning inom olika medicinska specialiteter, finns det ett behov av ett mer multidisciplinärt tillvägagångssätt [3].

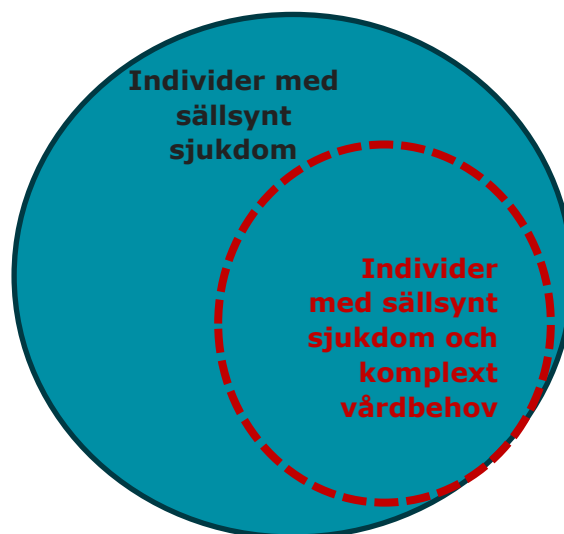
Stockholm centrum för hälsoekonomi (StoCHE) och HTA Region Stockholm vid Centrum för Hälsoekonomi, informatik, och sjukvårdsforskning (CHIS) inom Region Stockholm har i samband med framtagandet av vårdförloppet fått en förfrågan av Kunskapsstyrningens Nationella programområde (NPO) sällsynta sjukdomar att belysa hälsoekonomiska aspekter av vårdförloppet för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov. En av de åtgärder som diskuterats att inkluderas i vårdförloppet är MDK. En MDK är ett möte där specialister och professioner från olika områden samlas för att tillsammans bedöma patientens tillstånd och enas om nästa åtgärd [4]. Konferensen kan genomföras antingen i närvaro av patienten eller utan patientens deltagande. Syftet är att säkerställa hög kvalitet på vård och behandling genom att engagera olika kompetenser. En MDK kan även resultera i en vårdplan, där bland annat hälsoproblem och planerade insatser definieras. Den tas fram i samråd med patienten och eventuellt närstående. Vårdplanens syfte är att förtydliga planerade insatser, ansvar och uppföljning.

MDK är idag ett etablerat arbetssätt inom cancervården och ingår i de nationella vårdprogrammen för cancer [5]. MDK har dock ännu inte implementerats för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov i någon större utsträckning. Förhoppningen är att en ökad användning av MDK för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov ska leda till en bättre vård och på så sätt leda till en förbättrad livskvalitet för patienterna. En annan potentiell effekt som diskuteras är att MDK på sikt eventuellt skulle kunna reducera antalet oplanerade vårdbesök (öppen- och slutenvård) genom bland annat kortare tid till diagnos, en vårdplan och en mer sammanhållen vård. En annan möjlig effekt skulle kunna vara en ökad kunskapsnivå bland deltagande personal. Förhoppningen är även att MDK ska kunna leda till ökad trygghet för patienter och närstående i och med en vårdplan som tydliggör vem som ansvarar för olika delar i patientens vård. Detta skulle på så sätt göra det enklare för patienten att komma i kontakt med ansvarig vårdpersonal.

För att undersöka möjligheterna att bedöma om ett införande av MDK är ett kostnadseffektivt sätt att använda världens resurser, görs i den här rapporten dels en systematisk översikt av litteratur avseende hälsorelaterade effekter och förändrad vårdkonsumtion till följd av MDK, dels en analys av patientgruppens vårdkonsumtion och kostnaderna av att införa MDK. En kompletterande analys har även genomförts för att kartlägga vårdkonsumtionen i patientgruppen utifrån olika åldersgrupper. Vidare framhävs de medicinska verksamhetsområdena (MVO) inom somatisk specialistvård där flest vårdbesök och vårdtillfällen genomförts.

Populationen i vårdförloppet

För att ingå i vårdförloppet krävs även, utöver en sällsynt sjukdom, att patienten har ett komplext vårdbehov. Komplex vårdbehov innebär att flertalet organsystem berörs, vilket kräver samordning mellan flera vårdinsatser [6]. I denna rapport definieras patienter med komplexa vårdbehov som patienter som kräver vårdinsatser från minst tre olika vårdgivare. Detta ställer högre krav på personcentrering, vårdplanering och samordning mellan olika vårdnivåer och specialiteter, jämfört med mer vanligt förekommande sjukdomar. Dessutom krävs ofta diagnostik och behandlingar som inte är vanligt förekommande inom hälso- och sjukvården. Figur 1 illustrerar att denna rapport huvudsakligen fokuserar på den population som inte endast har diagnostiserats med en sällsynt sjukdom, utan som också oftast har ett komplext vårdbehov.



Figur 1. Individer med sällsynt sjukdom och komplext vårdbehov.

Syfte och frågeställningar

Syftet med rapporten är att ge en ökad förståelse för hur hälsa hos patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov samt hälso- och sjukvårdens resurser kan påverkas vid ett införande av MDK.

För att kunna uppnå syftet ingår inom ramen för detta projekt följande frågeställningar:

- Vad är effekten av MDK på vårdkonsumtion och hälsa för aktuell patientgrupp?
- Hur ser vårdkonsumtionen ut för aktuell patientgrupp?
- Hur mycket kostar en MDK för aktuell patientgrupp?
- Är det kostnadseffektivt att införa MDK för aktuell patientgrupp?
- Hur stor andel utgör den estimerade kostnaden för MDK av den aktuella patientgruppens totala vårdkostnader?

Effekter av MDK på vårdkonsumtion och hälsa

För att besvara frågan om effekten av MDK avseende vårdkonsumtion och hälsa för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov har en systematisk översikt genomförts av HTA Region Stockholm. Denna sökning ligger även till grund för att besvara frågan om huruvida införandet av MDK kan betraktas som kostnadseffektivt för den aktuella patientgruppen.

Metod

Syftet med en systematisk översikt är att få ett sammanvägt kunskapsunderlag utifrån den forskning som är genomförd inom ett visst område. Metoden går ut på att samtliga vetenskapliga studier som är aktuella utifrån fördefinierade frågeställningar identifieras och granskas med avseende på relevans och risk för systematiska fel (bias). Resultaten från studierna sammanfattas och tillförlitligheten till resultaten bedöms med hänsyn till risken för systematiska fel, resultatens samstämmighet, precision och överförbarhet samt risken för publikationsbias.

Frågeställning

Vad är effekten av MDK avseende vårdkonsumtion och hälsa för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov?

Urvalskriterier

För att en studie skulle inkluderas krävdes att den uppfyllde följande kriterier för population, intervention kontroll eller jämförelsealternativ, utfallsmått och design.

Population: barn och vuxna med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov.

Intervention: MDK.

Kontrollintervention: sedvanlig vård utan MDK.

Utfall: vårdkonsumtion, hälsa.

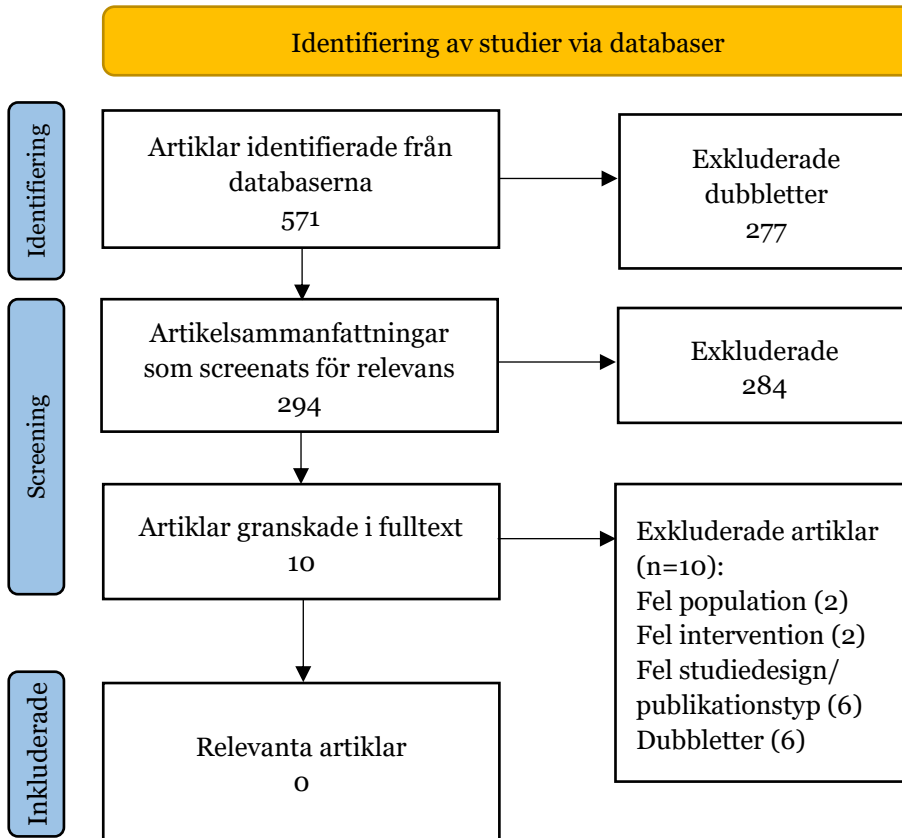
Studiedesign begränsades till randomiserade kontrollerade studier (RCT), andra kliniska studier med kontrollgrupp och fullständiga hälsoekonomiska utvärderingar.

Litteratursökning

En initial litteratursökningen utfördes under oktober 2023 i databaserna PubMed och Embase. Sökningen uppdaterades under juni 2024. Sökstrategin utformades för att fånga alla artiklar som i titel eller abstrakt angivit någon av nämnda populationer samt interventionen (för fullständig sökstrategi, se bilaga 1).

Resultat

Sökningen identifierade inga studier som undersökt effekten av MDK på aktuell population. Se flödesschema för sökning och gallring (figur 2).



Figur 2. Flödesschema effektstudier. Litteratursökningarna genererade 571 abstrakt, varav 277 kunde exkluderas eftersom dessa var dubletter. Från de 294 unika abstrakten bedömdes 10 vara potentiellt relevanta för frågeställningen och granskades i fulltext. Av dessa fulltexter var inga artiklar relevanta för frågeställningen.

Pilotstudie som belyser implementeringsfrågor

Inga studier som undersöker effekten av MDK i aktuell population hittades. Däremot har vi identifierat en brittisk okontrollerad pilotstudie från 2018 som belyser utmaningar vid implementering av MDK [7]. I artikeln beskrivs en så kallad Extraordinary virtual multidisciplinary team meetings (Ex-vMDT) som utvecklades och studerades av artikelns författare. Ex-vMDT är ett forum för samordnad vård av patienter med komplexa tillstånd inom en sekundärvårdsmiljö. Ex-vMDT utvecklades för patienter med komplexa tillstånd där patientens ansvariga läkare kunde begära ett snabbt möte med alla inblandade parter som svar på ett utmanande kliniskt scenario. Det digitala formatet användes på grund av att MDT-diskussionerna ofta skulle involvera läkare från olika specialiteter spridda över olika platser, och ett fysiskt möte ansågs ha varit svårt att ordna med kort varsel.

I pilotstudien, som pågick under 12 månader, mottogs positiv feedback både från kliniker och patienter (n=5), med betoning på förbättrade vårdresultat och samordning.

Utmaningar vid implementeringen inkluderade logistiska problem med att schemalägga möten och oro för teknisk användbarhet och ljud- och bildkvalitet. Strategier för att

övervinna hinder föreslogs, inklusive incitament för deltagande, integrera primärvård och specialistvård samt inkludera processer för delat beslutsfattande [7].

Det saknas underlag för en kostnadseffektivitetsanalys av MDK

För att kunna bedöma kostnadseffektiviteten av en ny intervention är det avgörande vad interventionen har för effekt. Eftersom vi inom ramen för den systematiska översikten inte kunnat identifiera effektstudier inom området, är det fortfarande oklart huruvida MDK för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov har en effekt på patienternas hälsa och vårdkonsumtion. Det anses därför inte finnas tillräckligt med tillförlitliga underlag för att uppskatta kostnadseffektiviteten av MDK för denna patientpopulation.

Vårdkonsumtion, vårdkostnad och resursförbrukning vid införande av MDK

Resultaten från den systematiska litteraturöversikten indikerade en avsaknad av publicerade effektstudier. Denna brist utgör en betydande begränsning för genomförandet av en kostnadseffektivitetsanalys [8]. Därför har analysen, som utförts av Stockholm centrum för hälsoekonomi (StoCHE), i stället fokuserat på att uppskatta patientgruppens vårdkonsumtion, vårdkostnader och den förväntade kostnaden för implementering av MDK. I detta avsnitt kommer vi även att besvara frågan om vilken andel av patientgruppens totala vårdkostnad som utgörs av den uppskattade kostnaden för MDK.

Metod

I analysens första steg uppskattades kostnaden för MDK för patienter med sällsynt sjukdom och komplext vårdbehov. I nästa steg identifierades patientpopulationen, deras vårdkonsumtion och vårdkostnad i den somatiska specialistvården baserat på nationella data från kostnad per patient (KPP)-databasen som tillhandahålls av Sveriges Kommuner och Regioner (SKR). Därefter ställdes uppskattad kostnad av MDK i relation till patientpopulationens vårdkostnad. Uttaget från KPP inkluderade endast besök och vårdtillfällen där en sällsynt diagnos hade registrerats. I ett sista steg gjordes därför en djupdykning i data från Region Stockholm för att uppskatta hur mycket vårdutnyttjandet ökade när all vård för patientpopulationen inkluderades.

Förväntad resursförbrukning vid införande av MDK

MDK uppskattas initialt leda till ökade kostnader eftersom det är något som läggs till den vård som ges idag. Det finns dock en förhoppning om att MDK på sikt kan minska vårdbehovet genom en mer effektiv och jämlik vård. Förhoppningen är även att vårdutnyttjandet långsiktigt minskar till följd av att fler vårdbesök samordnas och att patienten får möjlighet att träffa sina läkare vid ett och samma tillfälle. I denna analys har vi valt att beräkna kostnaden till följd av MDK utan att ta hänsyn till förändrad vårdkonsumtion då vi inte har kunnat identifiera några studier som visar en ändrad vårdkonsumtion.

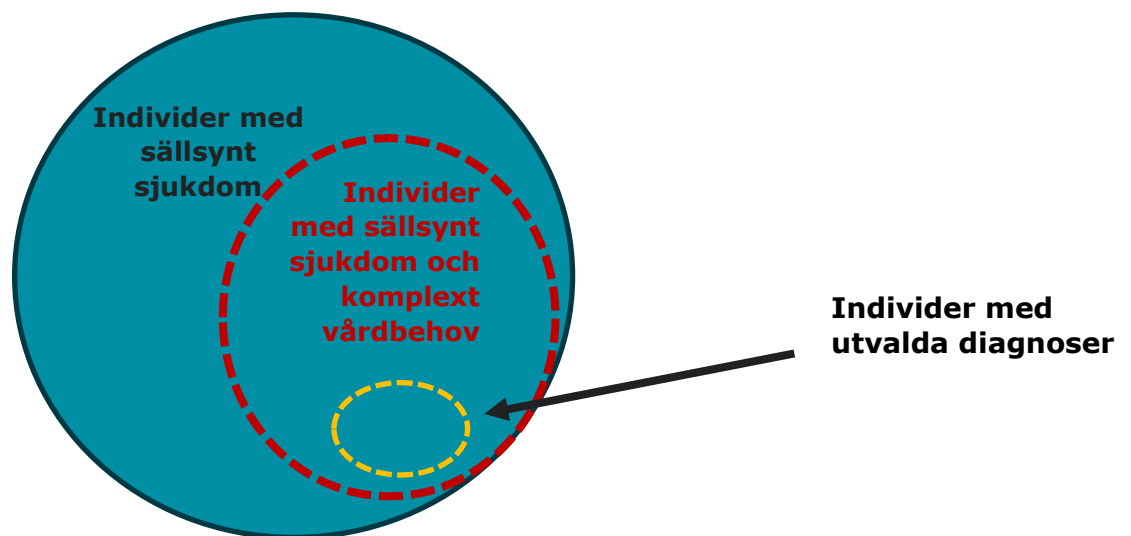
För närvarande finns det ingen utvecklad klassifikation av vårdåtgärd (KVÅ) för MDK som är avsedd för patientgruppen med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov. Därför har det inte varit möjligt att samla in befintliga kostnadsdata för att uppskatta kostnaden. MDK-kostnader för andra patientgrupper, inom exempelvis cancer eller neurologi, finns tillgängliga i KPP-databasen och utomlänsprislistor. KPP-kostnader för MDK inom cancervården ansågs emellertid inte tillämpliga eftersom flera patienter diskuteras under mötet med en genomsnittlig diskussionstid per patient på cirka 4 minuter [9, 10]. Identifierade prisuppgifter för MDK i utomlänsprislistor är ofta relativt höga eftersom de inkluderar teknisk kringutrustning, vilket enligt sakkunniga inte förväntas behövas vid MDK för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov. I denna analys har därför enbart kostnader för vårdpersonalens tid inkluderats. Uppgifter om kostnad per timme har hämtats från Verksamhetsstöd, Ekonomi (SLSO). Både fysiska och digitala MDK förekommer. Sakkunniga förutser dock att de flesta MDK kommer att vara av hybridtyp.

Identifiering av patientpopulationen

Vid skrivandet av denna rapport erbjöds MDK endast i begränsad omfattning för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov. Vid en implementering av MDK, som har diskuterats som en åtgärd inom vårdförloppet, är det troligt att insatsen skulle erbjudas till alla patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov. Antalet patienter som förväntas få MDK per år vid en rekommendation om införande är dock svårt att fastställa eftersom den exakta prevalensen för gruppen är okänd.

Då patientpopulationen som omfattas av vårdförloppet inkluderar över 6 000 identifierade sällsynta diagnoser, med troligtvis stor variation i vårdutnyttjande, har vi i samråd med sakkunniga inom NPO sällsynta sjukdomar, valt att fokusera på endast en delmängd av patientpopulationen. Denna delmängd är definierad utifrån diagnoser som kan betraktas som proxys för populationen med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov. De valda diagnoserna har valts ut av sakkunniga i NPO sällsynta sjukdomar och anses vara representativa för gruppen. Dessa diagnoser definieras inte enbart som sällsynta sjukdomar utan medför vanligtvis också ett komplext behov av vård (se bilaga 2 där de inkluderade diagnoserna listas).

Figur 3 illustrerar att underlaget i denna rapport bygger på en delmängd av patienter med sällsynta sjukdomar och som sannolikt även har komplexa vårdbehov.



Figur 3. Individer med utvalda diagnoser.

Prevalens, vårdkonsumtion och vårdkostnad på nationell nivå

För att beräkna prevalens, vårdkonsumtion och vårdkostnad har KPP-databasen använts. Eftersom KPP är mest heltäckande för den somatiska specialistvården baserades dessa beräkningar enbart på data hämtad för denna vårdgren. I detta underlag inkluderades alla patienter i Sverige (Gotland exkluderad) med utvald diagnos som vid något tillfälle fått sin sällsynta diagnos registrerad vid en vårdkontakt inom somatisk specialistvård under 2022.¹ Enbart vårdkontakter där utvalda diagnoser registrerats som huvud- eller bidiagnos i KPP-databasen inkluderades. Detta, i kombination med att endast den somatiska specialistvården ingår i analyserna, medför att beräknad prevalens, vårdkonsumtion och vårdkostnad på nationell nivå troligtvis är underskattade.

Resultatet avseende vårdkonsumtion presenteras som genomsnittligt antal besök och vårdtillfällen per patient samt genomsnittligt antal vård dagar per vårdtillfälle. SKR klassificerar de mest kostsamma vårdkontakterna för att göra jämförelser mer exakta. Vårdkontakter som utgör de högsta 5 procent av kostnaderna inom slutenvård respektive 3 procent inom öppenvård betraktas som "ytterfall". Återstående vårdkonsumtion (95 respektive 97 procent) benämns "innerfall". Jämförelser baseras ofta på "innerfall" [11]. I samråd med sakkunniga från NPO sällsynta sjukdomar har vi valt att presentera både ytterfall samt innerfall i denna analys i syfte att ge en mer övergripande bild. För detaljerad information om vilka kostnader som inkluderas samt exkluderas i KPP-databasen, se Nationella KPP principer [12]. Vårdkostnader inom öppen- och slutenvård för patienter med de utvalda diagnoserna har dividerats med antalet unika patienter för att uppskatta en genomsnittlig kostnad per patient.

MDK i relation till vårdkonsumtion och uppskattad kostnad per 100 000 invånare

För närvarande finns det ingen exakt uppskattning över antalet patienter som har sällsynt sjukdom och som samtidigt kräver komplex vård. Det har därför inte varit möjligt att presentera kostnader för hela patientgruppen vid ett eventuellt införande av MDK då det är oklart exakt hur många som skall ingå. I stället har uppskattad kostnad för MDK ställts i relation till kostnader för vårdkonsumtion inom somatisk specialistvård där utvalda diagnoser registrerats. Kostnader presenteras per 100 000 invånare och baseras på prevalensen för patienter med utvalda diagnoser.

Total vårdkonsumtion för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov i Region Stockholm

Uppgifter om vårdkonsumtion från KPP-databasen utgör enbart en delmängd av den totala vårdkonsumtionen. Detta beror på att inte alla regioner i Sverige delar uppgifter om vårdkonsumtion inom olika vårdgrenar till KPP-databasen. Vidare är det svårt att uppskatta den totala vårdkonsumtionen för en viss patientgrupp, då diagnosen relaterad till populationen inte alltid registreras vid alla besök och vårdtillfällen av olika skäl. Vi har därför använt data från Region Stockholms VAL-databaser för att beskriva patientpopulationens totala vårdkonsumtion (där samtliga vårdgrenar ingår) inom Stockholms län för både öppen- och slutenvård, oavsett vilken diagnos som registrerats under vårdtillfället. Syftet med detta har varit att jämföra vårdkonsumtionen där utvalda diagnoser har registrerats med den totala vårdkonsumtionen, och därmed belysa vilken andel av vården som inte kan fångas med enbart KPP-data. Detta ger oss en djupare förståelse för den verkliga storleken på vårdkonsumtionen för patienter med utvalda diagnoser.

¹ Inom vårdgrenen somatisk specialistvård ingår även habilitering (gäller för samtliga regioner med undantag av Region Stockholm).

VAL-databaserna är en uppsättning administrativa sjukvårdsdatabaser inom Region Stockholm. Dessa databaser innehåller avidentifierade data för hantering av ersättning till vårdgivare. Data används också för uppföljning och analys av hälso- och sjukvården inom regionen. VAL-databaserna täcker vårdkontakter för all hälso- och sjukvård med ersättning från Region Stockholm. Alla vårdkontakter registreras i databasen, förutom några enstaka privata vårdgivare utan skattefinansiering, viss basal kommunal hemsjukvård samt sjukvård inom särskilda boenden. VAL-databaserna täcker vårdgrenarna somatisk specialistvård, primärvård, geriatrik, psykiatri, tandvård samt övrig vård, där bland annat habilitering, klinisk fysiologi, medicinsk radiologi och specialiserad rehabilitering ingår.

I det inledande steget har vi identifierat unika patienter som under 2022, vid minst ett tillfälle, har haft ett besök eller vårdtillfälle där deras sällsynta diagnos registrerats. I ett andra steg har vi följt de unika patienterna och hämtat samtliga besök och vårdtillfällen som genomförts av dessa under året 2022, oberoende om deras sällsynta sjukdom registrerats eller ej. Patienter som inte var folkbokförda i Stockholms län under 2022 har exkluderats.

I resultatavsnittet ges en deskriptiv bild av patientpopulationen baserat på data från VAL-databaserna med avseende ålder och kön. Vidare presenteras den genomsnittliga vårdkonsumtionen per patient inom både öppenvård och slutenvård. För att ge en mer detaljerad bild av vårdkonsumtionen, presenteras även medianer samt lägsta (min) och högsta (max) värden för antal besök och vårdtillfällen. Spridning av besök respektive vårdtillfällen illustreras även i figurform.

Vårdkonsumtion uppdelat per åldersgrupper och medicinskt verksamhetsområde inom Region Stockholm

En analys av vårdkonsumtion uppdelat per åldersgrupp har även genomförts. Vidare presenteras de fem MVO inom somatisk specialistvård med högst antal besök och vårdtillfällen totalt sett, separat för öppenvård och slutenvård.

Resultat

Kostnad för multidisciplinära konferenser

MDK kräver att vårdprofessioner sammankallas. Vilka vårdprofessioner som är med på mötet, durationen och frekvensen varierar [13]. I denna rapport har det, efter diskussion med sakkunniga, uppskattats att det krävs i genomsnitt fyra specialistläkare och en samordnande resurs vid MDK för patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov. Den samordnande resursen är ofta en legitimerad sjuksköterska men kan även utgöras av annan vårdprofession. Konferenslängd uppskattas till i genomsnitt 60 minuter. Tidsåtgång för förberedelser inför mötet har även inkluderats i beräkningarna. Samtliga uppskattningar baseras på en dialog med sakkunniga inom NPO-grupp för sällsynta sjukdomar.

Initialt kan det krävas flera MDK per år för en patient men på sikt minskar ofta behovet och färre MDK krävs. Således uppskattar sakkunniga att en MDK per patient per år i genomsnitt kan anses relevant att utgå från för patientpopulationen. För att beräkna kostnad för MDK har kostnaden för fyra specialistläkare och en sjuksköterska (som ofta har den samordnande rollen) inkluderats. Totalkostnad per år inklusive omkostnader har dividerats med antal närvarotimmar (1 680 timmar). I kostnad för vårdpersonal ingår följande:

- Årslönekostnad och personalomkostnader (55%)
- Lokalhyra, rum, utrustning mm (4–6%)
- IT och telefon (1–2%)
- Övriga kostnader (8–14%)

Flertalet antaganden har gjorts vid beräkningen av kostnaden för MDK. Vårdpersonal som befinner sig på distans antogs ansluta digitalt. Således har inte resekostnader inkluderats. Det antogs att det inte skulle behövas någon särskild IT-utrustning, förutom möjligheten till digital uppkoppling. Dessutom antogs det att de rum som är avsedda för MDK redan är utrustade med denna typ av teknik, enligt information från den sakkunniga NPO-gruppen för sällsynta sjukdomar. Slutligen baseras beräkningen på antagandet att laboratorietester och behandlingar inte genomförs vid tidpunkten för MDK.

I tabell 1 redovisas resursförbrukning, kostnad per resursförbrukning och kostnadskälla. Kostnad för journalföring har ej inkluderats. Kostnad för en MDK (60 minuter) uppskattas till omkring 7 920 kronor per tillfälle.

Tabell 1. Uppskattade kostnader för vårdpersonal för en MDK.

Personalresurs	Duration	Kostnad
Förberedande tid samordnande resurs (1 sjuksköterska) samt 4 specialistläkare	30 minuter per profession	2 640 kr (330 kr sjuksköterska + 2 310 kr läkare)
1 sjuksköterska	60 minuter	660 kr
4 läkare	60 minuter	4 620 kr
Totalt		7 920 kr

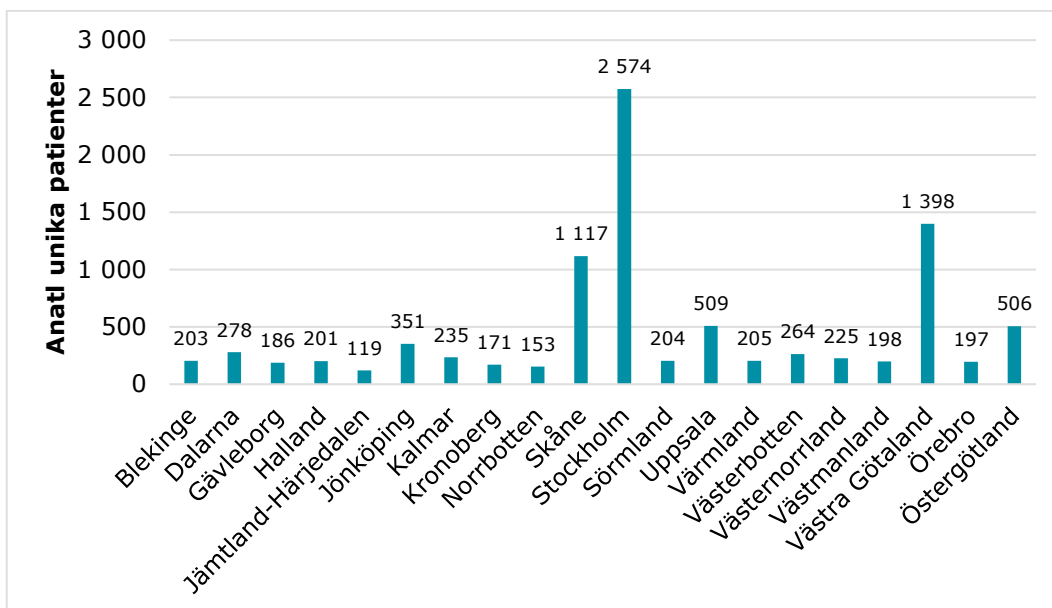
Källa: Verksamhetsstöd, Ekonomi (SLSO).

Vad är prevalensen av de diagnoser som valts ut?

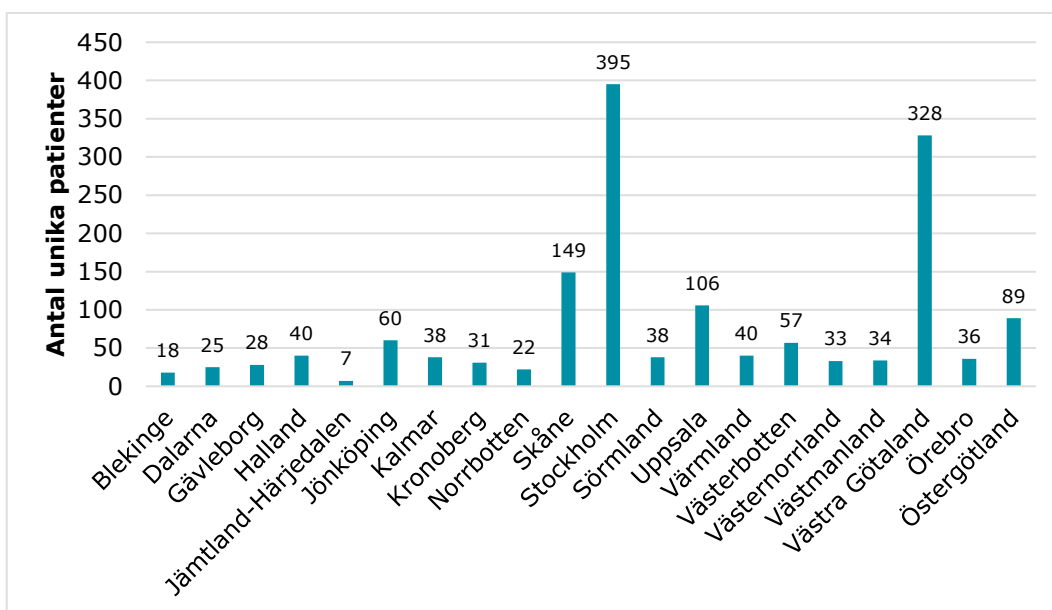
I detta avsnitt presenterar vi antalet unika patienter i KPP-databasen som, vid något tillfälle, har fått sin sällsynta diagnos (bland de utvalda diagnoserna) registrerad inom somatisk öppen- eller slutenvård. Data från KPP är hämtat för hela riket under året 2022. Totalt identifierades 9 294 patienter inom öppenvården och 1 574 inom slutenvården (figur 4 och 5). Vi antar att patienter som fått somatisk slutenvård även haft behov av somatisk öppenvård. Därför utgår vi ifrån att antalet unika patienter med någon av de utvalda diagnoserna är 9 294 inom somatisk specialistvård. Detta ger en prevalens på ungefär 88 per 100 000 invånare baserat på Sveriges befolkning (SCB, 2023).

Figur 4 och 5 är baserade på data från KPP-databasen och är uppdelade per län. Stockholms län, Västra Götalands län och Skåne län hade den största andelen patienter med de utvalda diagnoserna som sökt både öppen- och slutenvård inom somatisk specialistvård.

Jämtland-Härjedalen, Norrbotten och Kronoberg var de län som hade lägst andel patienter med de utvalda diagnoserna inom somatisk öppenvård (figur 4). Jämtland-Härjedalen, Blekinge och Norrbottens län hade lägst andel patienter inom somatisk slutenvård (figur 5).



Figur 4. Antal patienter med de utvalda diagnoserna som vid något tillfälle blivit registrerad för sin sällsynta sjukdom inom somatisk öppenvård under 2022 uppdelat per län (Källa: KPP-data, 2022).

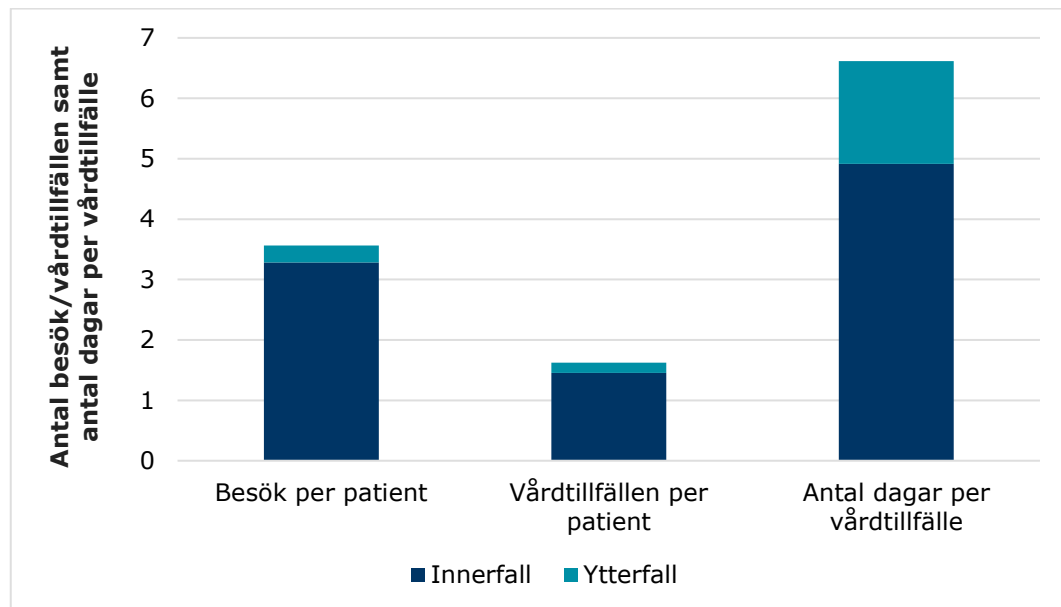


Figur 5. Antal patienter med de utvalda diagnoserna som vid något tillfälle blivit registrerad för sin sällsynta sjukdom inom somatisk slutenvård under 2022 uppdelat per län (Källa: KPP-data, 2022).

Hur ser vårdkonsumtion ut för patientgruppen?

I figur 6 illustreras vårdkonsumtion inom somatisk öppen- och slutenvård. Vårdkonsumtion har hämtats från KPP och avser vårdkontakter där utvalda diagnoser har registrerats under 2022.

I genomsnitt genomförde en patient 3,6 besök (innerfall: 3,4 besök) inom öppenvården. Motsvarande siffra inom slutenvården var 1,6 vårdtillfällen (innerfall: 1,5 tillfällen) med en genomsnittlig vårdtid på 6,6 dagar (innerfall: 4,9 dagar).

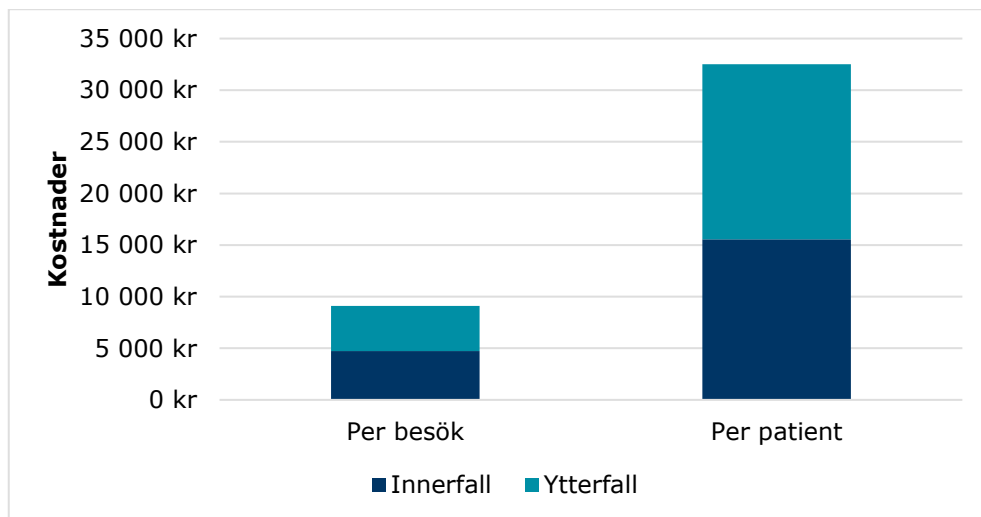


Figur 6. Genomsnittlig vårdkonsumtion där utvalda diagnoser varit registrerad inom somatisk öppen- och slutenvård (Källa: KPP-data, 2022).

Vad är den genomsnittliga vårdkostnaden per patient?

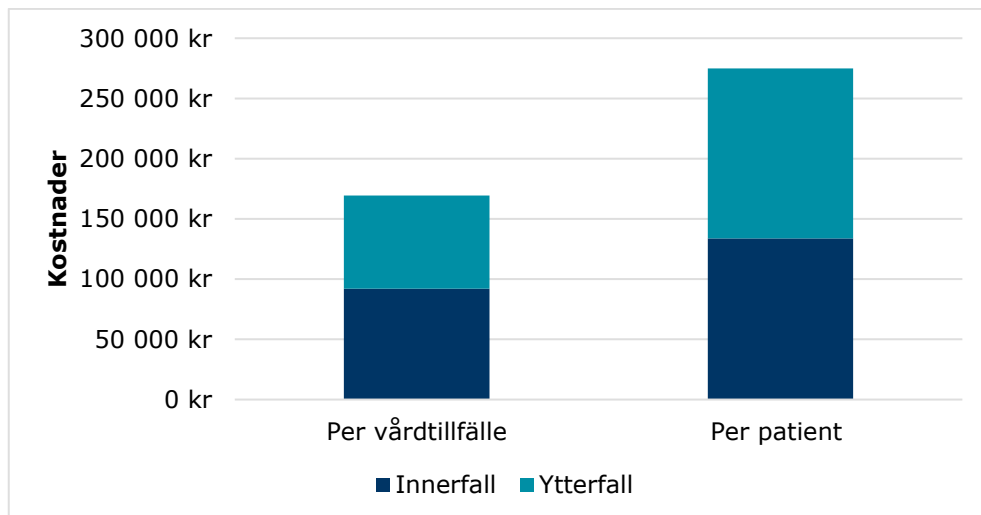
Figur 7 och 8 illustrerar både den genomsnittliga kostnaden per besök och vårdtillfälle, samt kostnaden per patient för somatisk öppen- och slutenvård under 2022. Samtliga kostnader har hämtats från KPP-databasen och avser vårdkontakter där någon av de utvalda diagnoserna har registrerats vid ett besök eller vårdtillfälle.

Figur 7 visar att genomsnittlig kostnad inom somatisk öppenvård år 2022 var 32 500 kronor per patient (innerfall: 15 536 kronor). Genomsnittlig kostnad per besök var 9 117 kronor (innerfall: 4 736 kronor).



Figur 7. Kostnader inom somatisk öppenvård för besök där utvalda diagnoser varit registrerad (Källa: KPP-data, 2022).

Figur 8 visar att den genomsnittliga kostnaden inom slutenvård var 274 955 kronor per patient (innerfall: 133 701 kronor) för de besök där utvalda diagnoser varit registrerad. Genomsnittlig kostnad per vårdtillfälle var 169 385 kronor (innerfall: 92 018 kronor).



Figur 8. Kostnader inom somatisk slutenvård där utvalda diagnoserna varit registrerad (Källa: KPP-data, 2022).

Den totala kostnaden för både öppen- och slutenvård för de besök och vårdtillfällen, där utvalda diagnoser varit registrerad, uppskattas till 307 455 kronor per patient (innerfall: 149 237 kronor).

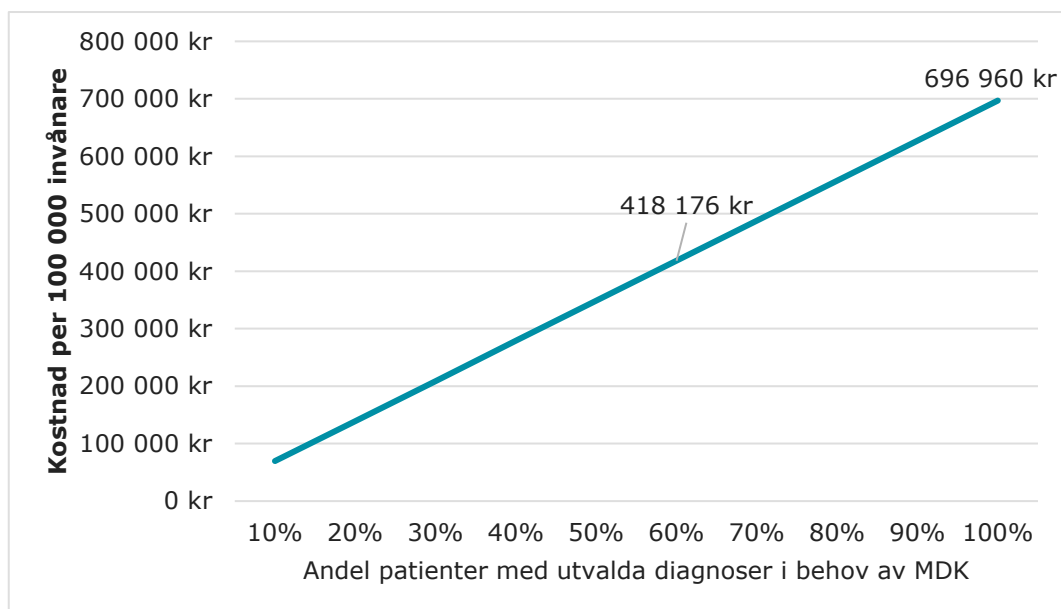
Hur stor andel utgör kostnaden för MDK av patientgruppens vårdkostnader?

Kostnaden för en MDK (60 minuter) uppskattas till omkring 7 920 kronor per tillfälle. Detta motsvarar 2,6–5,3 procent av de genomsnittliga kostnaderna inom somatisk öppen- och slutenvård där utvalda diagnoser registrerats, beroende på om ytterfallen inkluderas eller inte. Oavsett så utgör MDK endast en liten andel av vårdkostnaderna för patienter med de utvalda diagnoserna. Det är också viktigt att notera att KPP-kostnaderna i detta underlag underskattar de totala vårdkostnaderna, då endast somatisk specialistvård (den vårdgren som kan anses mest heltäckande i KPP-databasen) och endast besök och vårdtillfällen där utvalda diagnoser registrerats som huvud- eller bidiagnos ingår.

Vad kostar det per 100 000 invånare att införa MDK?

Utifrån registreringen av utvalda diagnoser i KPP-databasen uppskattas prevalensen till cirka 88 patienter per 100 000 invånare. Det bör understrykas att denna prevalens är en underskattning av den totala patientpopulationen. Eftersom vi för närvarande inte har information om hur många patienter som både har en sällsynt sjukdom och ett komplext vårdbehov, presenteras här endast kostnad per 100 000 invånare för patienter med de utvalda diagnoserna.

Målsättningen är att på sikt kunna erbjuda, i genomsnitt en MDK per år och patient. Dock har en specifik tidsram för att uppnå detta mål ännu inte etablerats. Om vi utgår från antagandet att 60 procent av patienterna kommer att erbjudas en MDK under det initiala skedet av vårdförloppets implementering, beräknas de årliga kostnaderna bli 418 176 kronor per 100 000 invånare. Om i stället samtliga patienter med utvalda diagnoser skulle erbjudas en MDK per år, skulle den årliga kostnaden per 100 000 invånare stiga till 696 960 kronor (figur 9).



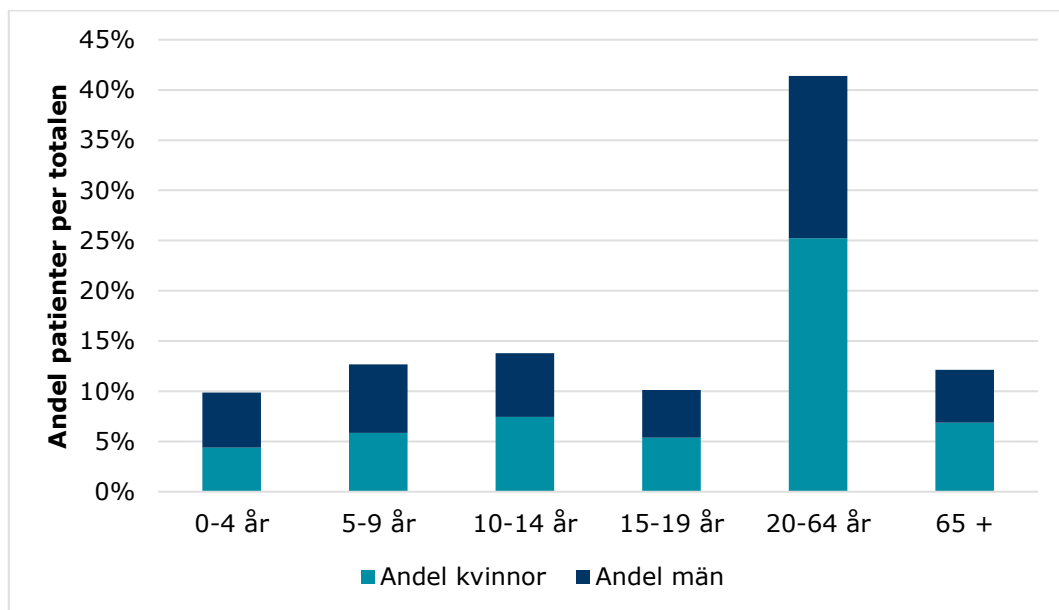
Figur 9. Totalkostnad per 100 000 invånare per år vid införande av en MDK, utifrån hur stor andel av patientgruppen som har behov av MDK (prevalens: 88 per 100 000 invånare).

Total vårdkonsumtion: exempel med data från Region Stockholm

Med hjälp av VAL-data kan vi uppskatta hur mycket KPP-data underskattar den totala vårdkonsumtionen för patienter med de utvalda diagnoserna i Region Stockholm. Under 2022 identifierades 2 727 unika patienter som vid någon vårdkontakt fått sin sällsynta diagnos registrerad.²

Samtliga identifierade patienter hade minst ett besök inom öppenvården, och 627 patienter vårdades vid minst ett tillfälle inom slutenvården. Av de 2 727 patienter som identifierades var 1 506 kvinnor (55%) och 1 221 män (45%). Medelåldern för hela gruppen var 30 år.

För att ge en djupare förståelse för åldersfördelningen i gruppen, presenteras ett stapeldiagram i figur 10. Figuren visar andelen kvinnor och män samt i olika åldersgrupper: 0–4 år, 5–9 år, 10–19 år, 20–64 år och 65 år och över. Den ljusa delen av stapeln representerar andelen kvinnor som tillhör en viss åldersgrupp i den totala patientgruppen (män och kvinnor alla åldersgrupper). Den mörka delen av stapeln representerar andelen män som tillhör en viss åldersgrupp i den totala patientgruppen (män och kvinnor alla åldersgrupper). Figur 10 visar att den största gruppen patienter var mellan 20 och 64 år gamla (cirka 41%). Andelen kvinnor mellan 20 och 64 år var cirka 25 procent. Cirka 12 procent utgörs av patienter som var 65 år eller äldre.



Figur 10. Ålder- och könsfördelning för patienter med utvalda diagnoser (Källa: VAL-data, 2022).

² Data från KPP visar att 2 574 patienter identifierades i Stockholms län under samma period. Flera faktorer kan dock påverka antalet unika patienter i KPP jämfört med VAL. Dessa inkluderar datakvalitet, exkludering av vissa kontakter, skillnader i definitioner och rapportering av privat vård.

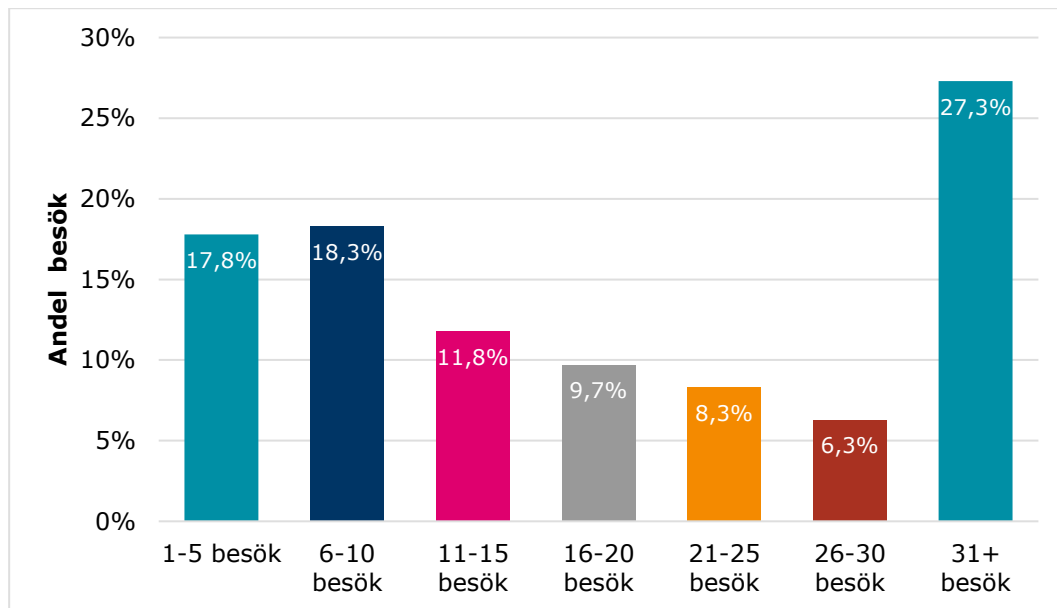
I tabell 2 visas deskriptiv statistik över vårdkonsumtion inom öppenvård för patienter med utvalda diagnoser. Resultaten presenteras per vårdgren och totalt, och avser den genomsnittliga vårdkonsumtionen per patient under året 2022. Samtliga besök har inkluderats ifrån VAL-data, oberoende om deras sällsynta diagnos registrerats eller inte. Tabell 2 visar att patienter inom öppenvården i genomsnitt gjorde 28,8 besök, med en median på 16 besök, vilket tyder på stor variation i antalet besök. Även inom de olika vårdgrenarna var det en stor variation. Ett exempel är vårdgrenen geriatrik, där genomsnittet för antalet besök var cirka 38 medan medianen var 3 besök. Detta innebär att hälften av patienterna gjorde 3 besök eller färre under 2022.

Tabell 2. Deskriptiv statistik för vårdkonsumtion inom öppenvård.

Vårdgren	Antal vårdbesök	Antal patienter	Genomsnitt vårdbesök	Median	Min	Max
Somatisk specialistvård	23 978	2 580	9,3	6	1	216
Primärvård	32 527	2 278	14,3	5	1	947
Övrig sjukvård	16 402	1 516	10,8	4	1	132
Psykiatri	4 093	310	13,2	6	1	190
Geriatrisk	1 290	34	37,9	3	1	389
Tandvård	51	26	2	1	1	7
Uppgifter saknas	61	34	1,8	1	1	6
Totalt	78 402	2 727	28,8	16	1	963

Källa: VAL-data, 2022. Observera att antalet patienter som presenteras per vårdgren inte kan summeras. Detta beror på att en enskild patient kan ha mottagit vård från flera olika vårdgrenar.

Figur 11 visar spridningen av antalet besök för patienter inom öppenvården. Ungefär en femtedel av patienterna hade mellan 1 och 5 besök, medan en annan femtedel hade mellan 6 och 10 besök. Nästan en tredjedel av alla patienter hade 31 eller fler besök.



Figur 11. Fördelning av besöksfrekvens per patient inom öppenvården (Källa: VAL-data, 2022).

Tabell 3 och 4 presenterar deskriptiv statistik över vårdkonsumtionen för patienter med utvalda diagnoser som erhållit slutenvård. Tabell 3 visar att patienter inom slutenvården i genomsnitt gjorde 2,4 vårdtillfällen, med en median på 1 vårdtillfälle, vilket tyder på stor variation i antalet vårdtillfällen. Även inom de olika vårdgrenarna var det stor variation.

Tabell 4 visar att patienter inom slutenvården i genomsnitt hade en vårdtid per slutenvårdstillfälle på 6,6 vård dagar (median 4). Ett exempel är vårdgrenen övrig sjukvård (vilket inkluderar bland annat habilitering, klinisk fysiologi, medicinsk radiologi, specialiserad rehabilitering), där genomsnittlig vårdtid per vårdtillfälle var 9,6 dagar, medan medianen visar 6 dagar. Detta innebär att under 2022 hade hälften av alla vårdtillfällen inom vårdgren övrig sjukvård en vårdtid på 6 dagar eller mindre.

Tabell 3. Deskriptiv statistik för vårdkonsumtion inom slutenvården.

Vårdgren	Antal vårdtillfällen	Antal patienter	Genomsnitt vårdtillfällen	Median	Min	Max
Somatisk specialistvård	1 218	595	2	1	1	27
Psykiatri	169	32	5,3	2	1	33
Geriatric	101	55	1,8	1	1	6
Övrig sjukvård	42	33	1,3	1	1	4
Totalt	1 530	627	2,4	1	1	48

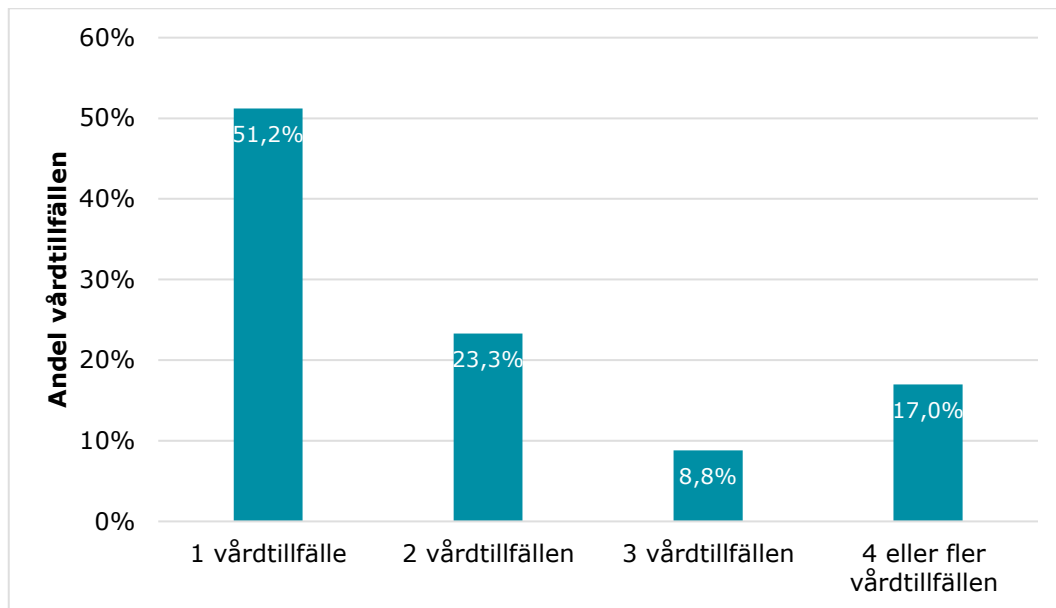
Källa: VAL-data, 2022. Observera att antalet patienter som presenteras per vårdgren inte kan summeras. Detta beror på att en enskild patient kan ha mottagit vård från flera olika vårdgrenar.

Tabell 4. Deskriptiv statistik för vårdtid per slutenvårdstillfälle.

Vårdgren	Antal vårdtillfällen	Antal patienter	Genomsnitt antal dagar per vårdtillfälle	Median	Min	Max
Somatisk specialistvård	1 218	595	6,5	4	1	191
Psykiatri	169	32	6,4	4	1	96
Geriatric	101	55	6,8	6	1	29
Övrig sjukvård	42	33	9,6	6	4	63
Totalt	1 530	627	6,6	4	1	191

Källa: VAL-data, 2022. Observera att antalet patienter som presenteras per vårdgren inte kan summeras. Detta beror på att en enskild patient kan ha mottagit vård från flera olika vårdgrenar.

Figur 12 ger en överblick av spridningen av antalet vårdtillfällen för patienter med utvalda diagnoser inom slutenvården. Drygt hälften av alla patienter inom slutenvården hade ett vårdtillfälle. Nästan en femtedel hade fyra eller fler vårdtillfällen.



Figur 12. Fördelningen av antalet vårdtillfällen bland patienter inom slutenvård (Källa: VAL-data, 2022).

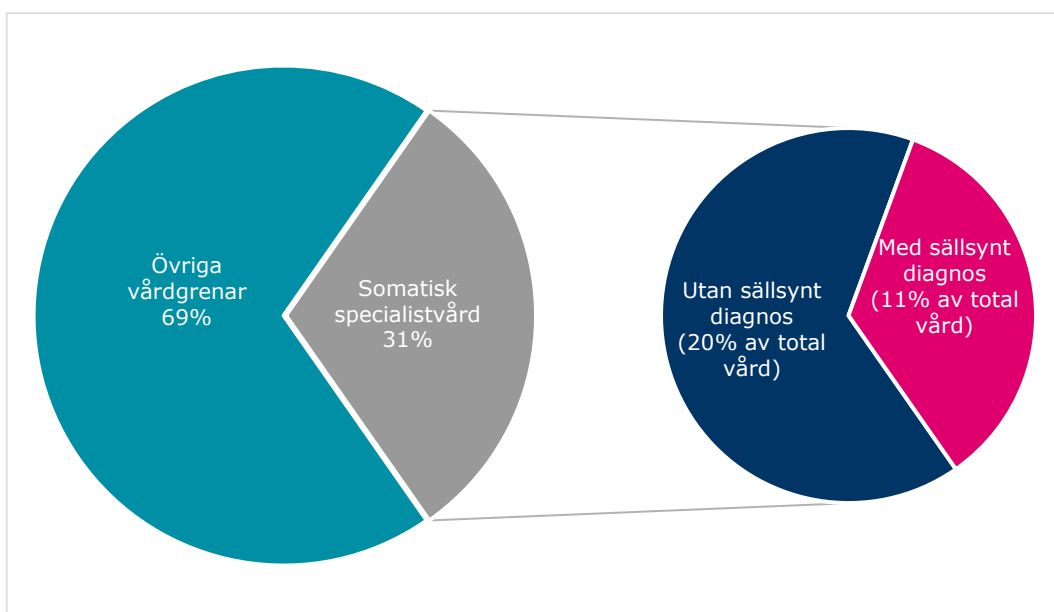
Hur stor andel av patientgruppens vård registreras med deras sällsynta diagnos?

I detta avsnitt uppskattas vilken andel av patientgruppens totala vårdkonsumtion som KPP-kostnaderna utgör. Med "total vårdkonsumtion" avser vi vård inom alla vårdgrenar som samlats in från VAL, inklusive somatisk specialistvård, primärvård, geriatrik, psykiatri, tandvård och övrig vård. Under 2022 genomförde patienter med utvalda diagnoser totalt 78 402 öppenvårdsbesök och 1 530 slutenvårdstillfällen, oavsett om en sällsynt diagnos registrerades eller ej vid dessa vårdkontakter. Inom vårdgrenen somatisk specialistvård var motsvarande siffra 23 978 besök och 1 218 vårdtillfällen.

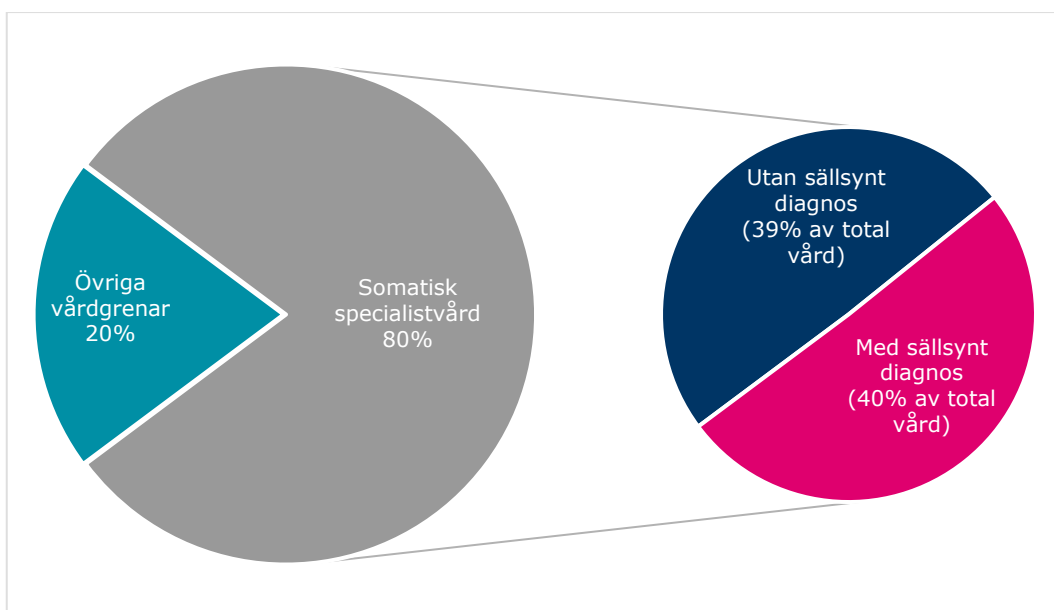
Förhållandet mellan somatisk specialistvård och total vårdkonsumtion för patienter med utvald diagnos illustreras i den stora cirkeln till vänster i figur 13 (för öppenvård) och 14 (för slutenvård). Data från VAL visar att den somatiska öppenvården stod för 31 procent av vårdkonsumtion för patienter med utvalda diagnoser. Av dessa besök hade 35 procent en registrerad sällsynt diagnos. Inom slutenvården stod den somatiska specialistvården för 80 procent av den totala vårdkonsumtionen för patienter med utvalda diagnoser, varav 51 procent av vårdtillfällena var registrerad med deras sällsynta diagnos.

Den mindre cirkeln som visas till höger i figur 13 och 14 representerar proportionen av antalet besök och vårdtillfällen där utvalda diagnoser registrerats inom somatisk specialistvård jämfört med den *totala vårdkonsumtionen*. Andelen besök inom somatiska specialistvården, där utvalda diagnoser registrerats, utgjorde 11 procent av den totala öppenvårdskonsumtionen (figur 13). Motsvarande siffra inom slutenvården var 40 procent (figur 14).

Då detta underlag skall utgöra ett stöd vid implementering av ett nationellt vårdförlopp är det viktigt att notera att följsamheten när det gäller registrering av sällsynta diagnoser troligen varierar från region till region och inom olika vårdgrenar. Denna variation gör att resultaten bör tolkas med försiktighet.



Figur 13. Andel somatisk öppenvård där utvalda diagnoserna registrerats (Källa: VAL-data, 2022).



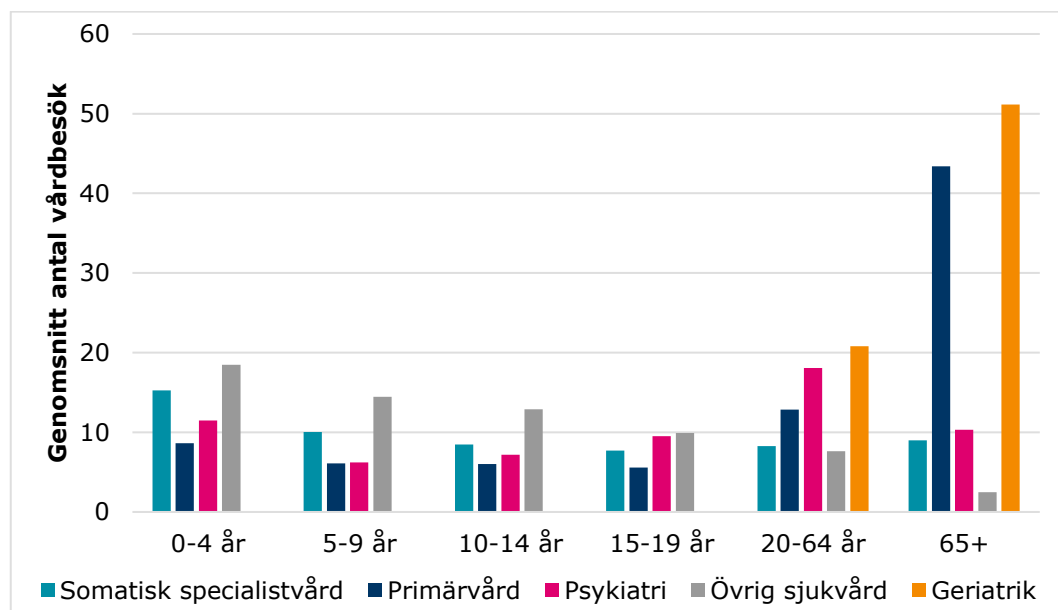
Figur 14. Andel somatisk slutenvård där utvalda diagnoser registrerats (Källa: VAL-data, 2022).

Vårdkonsumtion uppdelat per åldersgrupp och medicinskt verksamhetsområde

I kommande avsnitt presenteras både öppen- och slutenvårdskonsumtionen uppdelad per åldersgrupp och de MVO där flest vårdbesök och vårdtillfällen genomförts inom Region Stockholm. Syftet med analysen är inte bara att identifiera de vårdområden som har störst vårdkonsumtion, utan också att ge en förståelse för hur vårdkonsumtion varierar över olika åldersgrupper och vårdtyper för patienter med de utvalda diagnoserna.

Hur ser vårdkonsumtionsmönstret ut uppdelat per åldersgrupp i Region Stockholm?

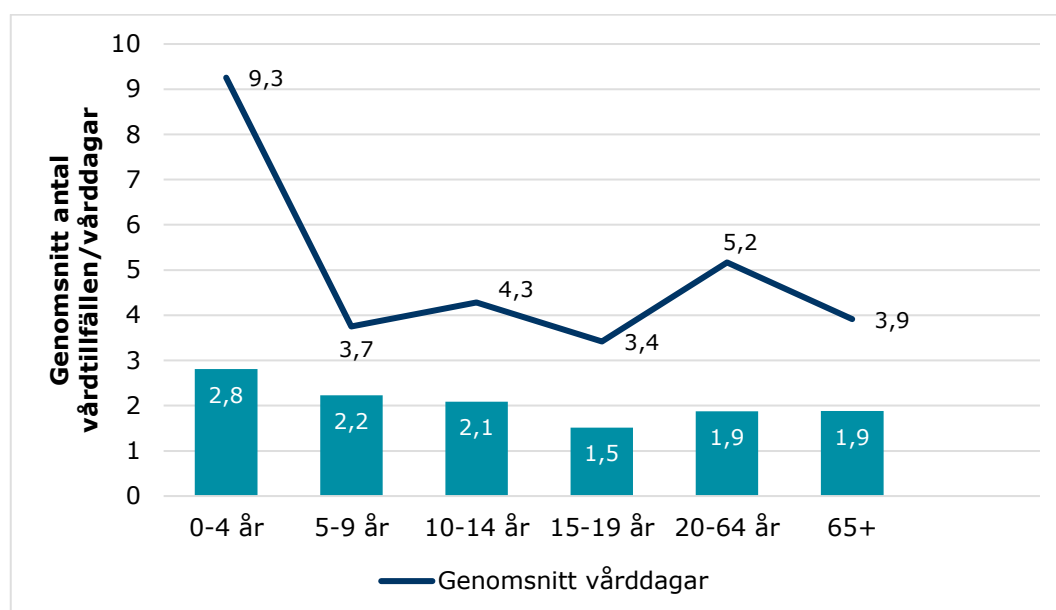
Figur 15 visar det genomsnittliga antalet besök inom öppenvården, uppdelat i åldersgrupper. Inom somatisk specialistvård hade patienter inom åldersgruppen 0–4 år det högsta genomsnittliga antalet besök (cirka 15), medan genomsnittet för övriga åldersgrupper var relativt jämnt fördelat (cirka 8–10). För patienter i åldern 20 till 64 år var det genomsnittliga antalet besök per patient cirka 18 inom psykiatri och cirka 13 inom primärvården. Inom primärvården hade patienter i gruppen 65 år och äldre det högsta antalet besök per patient (cirka 43). Inom geriatriken var det genomsnittliga antalet besök per patient cirka 21 och 51 besök inom åldersgruppen 20 till 64 år respektive 65 år och äldre. Övriga åldersintervaller presenteras inte på grund av för få observationer.



Figur 15. Öppenvårdsbesök uppdelat per åldersgrupp och vårdgren (Källa: VAL, 2022).

I figur 16 visas vårdkonsumtionen av somatisk slutenvård för patienter de utvalda diagnoserna, uppdelad per åldersgrupp. Inom åldersgruppen 0–4 år hade det högsta genomsnittliga antalet vårdtillfällen (2,8), medan genomsnittet vårdtillfällen för övriga åldersgrupper var relativt jämnt fördelat (1,5–2,2). Antalet slutenvårdsdagar per vårdtillfälle var även högst inom åldersgruppen 0–4 år (9,3). För övriga åldersgrupper varierar antalet vårddagar per vårdtillfälle mellan 3,4 och 5,2.

Psykiatri, geriatrik och övrig sjukvård är inte inkluderade i figur 15 på grund av för få observationer i flera åldersgrupper. Patienter mellan 20–64 år i gruppen med de utvalda diagnoserna hade i genomsnitt 5,8 vårdtillfällen (5,3 vårddagar per vårdtillfälle) inom vårdgren psykiatri och i genomsnitt 1,3 vårdtillfällen (7,7 vårddagar per vårdtillfälle) inom övrig vård. Patienter 65 år och över hade i genomsnitt 1,8 vårdtillfällen (5,6 vårddagar per vårdtillfälle) inom vårdgren geriatrik.

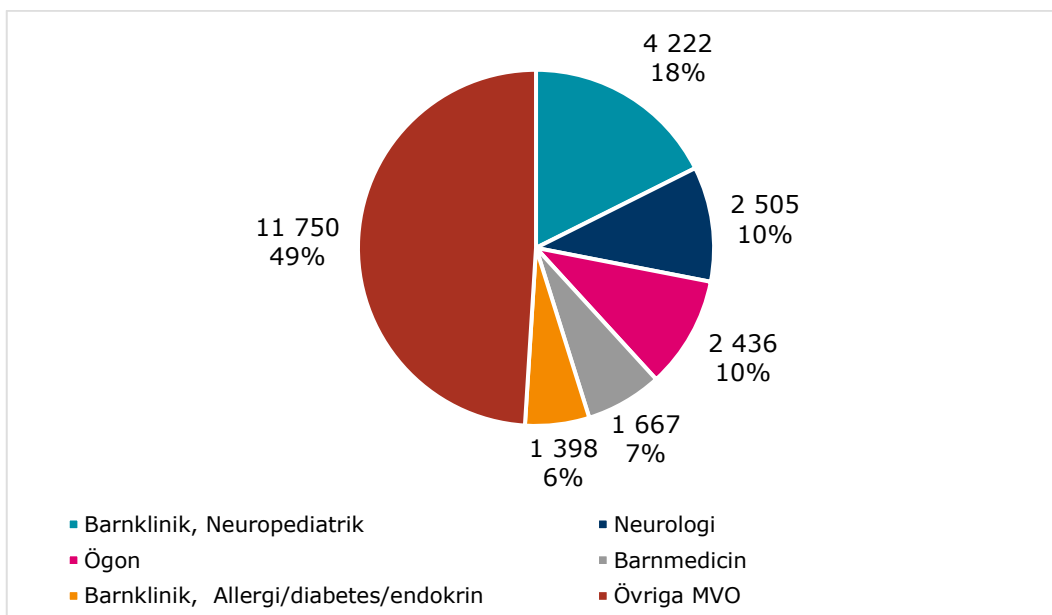


Figur 16. Antal slutenvårdstillfällen och antal vårddagar uppdelat per åldersgrupp (Källa: VAL, 2022).

Inom vilka medicinska verksamhetsområden är vårdutnyttjandet som högst i Region Stockholm?

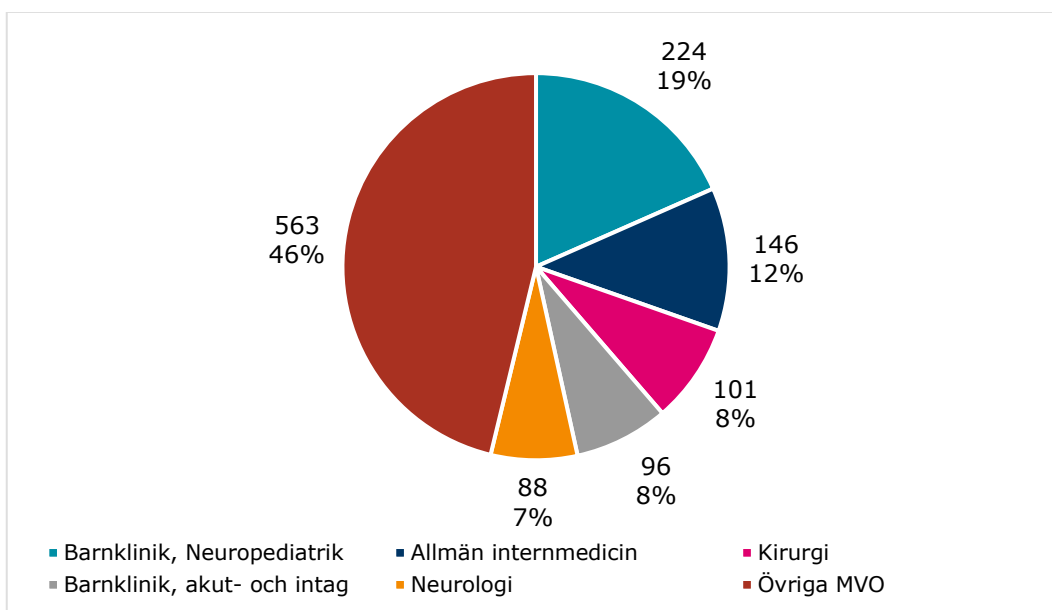
Under året 2022 nyttjade patienter med de utvalda diagnoserna 54 olika MVO inom somatisk öppenvård i Region Stockholm. Motsvarande siffra inom somatisk slutenvård var 34 MVO. Figurerna 17 och 18 illustrerar de MVO som uppvisade det största antalet besöks- och vårdtillfällen inom öppen- och slutenvård under 2022.

Högst vårdutnyttjande för patienter med utvalda diagnoser, sett till antalet besök, illustreras i figur 17. Som framgår av figur 17, var det inom barnklinik (neuropediatrik) i Region Stockholm som flest besök inom öppenvården ägde rum under 2022. Dessa 4 222 besök motsvarade 18 procent av den totala vårdkonsumtionen inom somatisk öppenvård. MVO ögon och MVO neurologi utgör båda cirka 10 procent av den totala vårdkonsumtionen inom somatisk öppenvård.



Figur 17. MVO inom somatisk öppenvård med flest besök (Källa: VAL-data, 2022).

Figur 18 illustrerar de fem MVO inom slutenvården vilka uppvisar de högsta antalet vårdtillfällen för patienter med de utvalda diagnoserna i Region Stockholm. Likt öppenvård utgör MVO barnklinik (neuropediatrik) det MVO där flest vårdtillfällen genomförts (224 vårdtillfällen motsvarande 19%) av total vårdkonsumtion inom somatisk slutenvård. Allmän internmedicin utgör den näst största andelen vårdtillfällen (146 vårdtillfällen motsvarande 12%).



Figur 18. MVO inom somatisk slutenvård med flest vårdtillfällen (Källa: VAL-data, 2022).

Diskussion

Resultaten visade att tillförlitliga studier av interventionens effekt saknas och kostnadseffektiviteten av MDK för patientgruppen är därför oklar. Kostnaden för en MDK (60 minuter) uppskattades enligt beräkningarna i rapporten till omkring 7 900 kronor för patienter med sällsynt sjukdom och komplext vårdbehov. Dessa kostnader utgjorde cirka 2,6–5,3 procent av den utvalda patientgruppens uppskattade genomsnittliga vårdkostnad för somatisk specialistvård där en av de utvalda diagnoserna registrerats. Resultaten visade dock också att patienter med utvalda diagnoser haft många besök och vårdtillfällen där deras sällsynta diagnos inte har registrerats och eftersom inte alla delar av patienternas vårdkonsumtion har kunnat kostnadssättas, är den faktiska andelen troligtvis än mindre.

Resultaten indikerar att det finns en stor spridning i vårdkonsumtion för patienter med de utvalda diagnoserna, både inom öppenvård och slutenvård. Patienter med de utvalda diagnoserna som haft minst ett besök eller vårdtillfälle inom öppenvården under 2022, hade i genomsnitt 28,8 besök (median 16) och 2,4 vårdtillfällen (median 1). För att få en bild av huruvida antalet besök och vårdtillfällen är stort eller litet kan siffrorna sättas i relation till motsvarande siffror för den generella befolkningen. Socialstyrelsens statistikdatabas visar att patienter i Stockholms län som hade minst ett vårdtillfälle inom slutenvården under 2022 i genomsnitt hade 1,82 vårdtillfällen per patient. Genomsnittet *per invånare* i Stockholms län var 0,14 vårdtillfällen [14]. En rapport från Centrum för epidemiologi och samhällsmedicin (CES) visar att bland de som haft ett besök inom öppenvården under 2017, var det genomsnittliga antalet besök 10,1 för kvinnor och 8,2 för män i Stockholms län. Antalet besök *per invånare* var 8,2 för kvinnor och 5,7 för män i Stockholms län.³ De siffror som presenteras i CES-rapporten, liksom i denna rapport, baseras på VAL-data [15]. Det är dock viktigt att beakta att presenterad statistik för Region Stockholm kan skilja sig från övriga regioner i landet [16]. För att uppnå en rättvis jämförelse med justering för faktorer som exempelvis ålder, kön och komorbiditet bör våra resultat dock jämföras med motsvarande siffror för individer i en matchad kontrollgrupp.

I våra analyser har vi endast kunnat kostnadssätta en viss del av det totala vårdutnyttjandet som görs av patienter med utvalda diagnoser. Detta beror på att vi enbart har hämtat vårdkostnader från somatisk specialistvård i KPP-databasen. Anledningen till att enbart somatisk specialistvård valts ut är på grund av att den är den mest heltäckande vårdgrenen inom KPP-databasen. En annan anledning till att inte all vård kunnat kostnadssättas är att patientgruppen gjort besök och vårdtillfällen där deras sällsynta diagnos inte registrerats och därmed inte inkluderats i KPP-data. En jämförelse av vårdkostnader är därför inte möjlig. Resultaten ger däremot en insikt om att kostnader för implementering av MDK enbart utgör mellan 2,6 och 5,3 procent av den genomsnittliga vårdkostnaden per patient, detta trots att endast en del av vårdkostnaderna kunnat kvantifieras. Detta skulle kunna tolkas som att om kostnaderna för övrig vård skulle minska med motsvarande procent vid ett införande av MDK, skulle implementeringen av MDK för patienter med de utvalda diagnoserna vara kostnadsneutral. Det kvarstår dock att utvärdera om införandet av MDK kan påverka övrig vårdkonsumtion.

³ Materialet inkluderar all öppenvård för patienter som bodde i Stockholms län under 2017, inklusive de som flyttade härifrån, föddes eller avled under året.

En begränsning i denna analys är osäkerheten kring hur väl de utvalda sällsynta diagnoserna representerar hela patientgruppen. Även om dessa diagnoser har valts ut av sakkunniga medlemmar i NPO sällsynta sjukdomar, kvarstår en osäkerhet om huruvida patienter med utvalda diagnoser i genomsnitt har en högre eller lägre vårdkonsumtion jämfört med andra sällsynta sjukdomar med komplext vårdbehov. En annan aspekt att beakta är att denna rapport bygger på antagandet att alla patienter med en av de utvalda sällsynta diagnoserna under 2022 har kunnat identifieras för inkludering i den patientgrupp som utgör grunden för analyserna. Som tidigare nämnts, har de utvalda sällsynta diagnoserna valts ut på grund av att de med stor sannolikhet har komplexa vårdbehov. Vi antar därför att det är troligt att dessa individer haft åtminstone ett besök eller vårdtillfälle där deras sällsynta diagnos har registrerats under 2022 och därmed kunnat identifieras. Om individer med någon av de utvalda sällsynta diagnoserna inte genomfört något besök eller vårdtillfälle under 2022 eller att deras sällsynta diagnos inte har registrerats vid genomförda besök, har de däremot inte kunnat identifieras och inkluderas. Detta kan innebära att några individer kan ha missats och att vårdkonsumtionen per individ kan ha överskattats.

Att koppla kostnader till vårdkonsumtion är ofta en utmaning vid hälsoekonomiska analyser. KPP-databasen kan anses ge en heltäckande och tillförlitlig bild över kostnader kopplade till somatisk specialistvård. Databasen omfattar 94 procent av den specialiserade somatiska slutenvården och 74 procent av den motsvarande öppenvården i Sverige.⁴ Täckningsgraden för andra vårdgrenar i KPP är lägre [17]. I denna analys valde vi därför att enbart presentera kostnader för somatisk specialistvård på nationell nivå. Vi uppskattade även den andel av patientgruppens totala vårdanvändning som representeras av KPP-kostnaderna genom en jämförelse med data för Region Stockholm.

En av fördelarna med KPP är att data samlas in på nationell nivå. Om MDK rekommenderas inom ramen för vårdförloppet, är det värdefullt att bygga underlaget på kostnader representativa för hela landet. I kontrast till detta tillhandahåller VAL-databaserna endast statistik från Region Stockholm, vilket kan medföra svårigheter avseende generalisering till andra regioner. Region Stockholm uppvisar flera distinkta skillnader jämfört med resten av landet, inklusive men inte begränsat till socioekonomiska variationer. Dessutom är den information som samlats in från VAL begränsad, särskilt när det gäller kostnadsdata. På grund av denna problematik valde vi att inte använda VAL-databasen för att beräkna kostnader i denna analys.

Effekter av multidisciplinära konferenser

Den systematiska litteraturöversikt som utförts inom uppdraget har inte identifierat några studier som har granskat effekterna av MDK på vårdkonsumtionen och hälsa bland patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov. MDK representerar dock en viktig del i de standardiserade vårdförloppen (SVF) inom svensk cancervård och forskning inom cancerområdet tyder på att MDK potentiellt kan ha bidragit till att förbättra efterlevnaden av behandlingsriktlinjer [5, 18, 19]. Implementering av MDK för cancerpatienter kan även ha lett till mer lämpliga och potentiellt anpassade behandlingsrekommendationer [20]. Patienter med cancer skiljer sig dock på flera sätt från patienter med sällsynta sjukdomar, vilket komplicerar möjligheten att dra slutsatser

⁴ En svaghet vid identifiering av unika patienter i KPP är att vissa patienter kan ha dubbelräknats då de får vård i flera regioner. Anledningen till detta är att det finns olika identifieringskoder i Stockholms län och Skåne. Framtida analyser kan förslagsvis uppskatta ungefärlig storlek på antalet patienter som kan ha dubbelräknats inom Region Stockholm genom ytterligare VAL- data beställningar där även andelen utomlänspatienter inkluderas.

om effekten av MDK baserat på erfarenheter från cancerområdet. Diagnostiseringen av sällsynta sjukdomar kan vara en långvarig process och det är ofta en utmaning att välja lämpliga läkemedel. Detta till skillnad från dagens cancervård, där det ofta finns mer tydliga riktlinjer och utvecklade behandlingsstrategier [21, 22]. Exempelvis finns det för närvarande endast ändamålsenlig läkemedelsbehandling för 5 procent av de kända sällsynta diagnoserna [22].

Patientgrupper som kan liknas vid individer med sällsynta sjukdom inkluderar äldre med hög samsjuklighet och de med komplexa vårdbehov, enligt sakkunniga i NPO sällsynta sjukdomar. Två studier som utvärderade införandet av MDK för patientgrupper som kan liknas vid individer med sällsynta sjukdom visade blandade resultat. I en systematisk översikt rapporterade författarna en minskning av besök på akutmottagningar för äldre individer med hög samsjuklighet [23]. I en annan studie noterade författarna i stället en liten ökning av antalet sjukhusinläggningar för äldre med bland annat komplex sjuklighet [24]. Däremot har författare i andra studier, som involverar patienter med komplexa vårdbehov, beskrivit en minskning av besök på både akutmottagningar och sjukhusinläggningar vid införande av MDK-liknande initiativ [25, 26]. Författarna framhäver också att koordinerad vård är en viktig faktor för att förbättra livskvaliteten och minska användningen av sjukvårdsresurser [25, 26]. För en mer omfattande beskrivning av dessa studier, se bilaga 3.

Behov av uppföljning och framtida utvecklingsområden

Avsaknaden av studier visar att det vore av stort värde att följa upp och utvärdera MDK vid en eventuell implementering. Förutom kliniska utfallsmått kan utvärdering av MDK med hjälp av patientrapporterade utfallsmått (PROMs) vara ett sätt att närma sig förståelsen av de hälsorelaterade effekter som interventionen kan ha [27]. PROMs är utformade för att mäta patienternas upplevelser av deras hälsa. De kan ge värdefull information om effekterna av vårdinterventioner, patientens livskvalitet och tillfredsställelse med vården. Syftet med att samla in PROMs kan vara flera. Som ett exempel kan syftet med insamling av PROMs vara förbättrad kommunikation mellan patienter och vårdgivare, vilket i sin tur kan leda till en mer personcentrerad vård. Ett annat exempel kan vara en del i ett gemensamt beslutsfattande. PROMs kan också vara ett värdefullt verktyg för att identifiera potentiella områden för förbättring inom MDK [27].

Som tidigare nämnt visar detta underlag att endast vissa besök och vårdtillfällen inom somatisk specialistvård registreras med deras sällsynta diagnos (antingen som huvud- eller bidiagnos). Detta trots Socialstyrelsens anvisningar (Version 4:1) om att alla relevanta bidiagnoser vid aktuell vårdkontakt bör registreras [28]. Vidare beskrivs i anvisningen att en diagnos som föranlett utredning eller någon form av behandling bör registreras vid journalföring. En bidiagnos som kan anses förlänga vårdtid utgör en riskfaktor eller kan ha betydelse för den framtida hälsoutvecklingen, och rekommenderas även därför att registreras [28]. Att relevanta diagnoser för närvarande registreras i begränsad utsträckning kan potentiellt vara en faktor att beakta i framtida utvecklingsinsatser.

Slutsatser

- Den systematiska litteraturöversikten resulterade inte i några relevanta studier som undersökt effekterna av MDK på hälsa och vårdkonsumtion bland patienter med sällsynta sjukdomar och komplexa vårdbehov. Detta medför svårigheter att uppskatta vilka eventuella hälso- och kostnadsrelaterade konsekvenser införandet av MDK kan ha.
- Kostnaden för en MDK (60 minuter) uppskattas till omkring 7 900 kronor för patienter med sällsynt sjukdom och komplext vårdbehov.
- Det finns en betydande variation i vårdkonsumtion i gruppen med de utvalda sällsynta diagnoserna, både inom öppen- respektive slutenvård.
- Patientgruppen hade i genomsnitt vårdkostnader för somatisk specialistvård, där en av de utvalda sällsynta diagnoserna var registrerad, på omkring 150 000–300 000 kronor per patient under 2022. Vårdkostnaderna varierade beroende på om ytterfall inkluderats eller inte.
- Resultaten visade att kostnaden för en MDK skulle utgöra cirka 2,6–5,3 procent av patientgruppens genomsnittliga kostnad för somatisk specialistvård där en av de utvalda diagnoserna registrerats. Patientgruppens totala vårdutnyttjande är dock betydligt högre än det som kunnat kostnadssättas, dels för att de konsumerat vård inom andra vårdgrenar än somatisk specialistvård, dels för att de har en stor mängd vårdtillfällen och besök där deras sällsynta diagnos inte registrerats.

Referenser

1. Sahlgrenska Universitetssjukhuset. Om sällsynta hälsotillstånd/diagnoser [Internet]. Stockholm: Sahlgrenska Universitetssjukhuset; 2023 [updated 2023-11-13; cited 2024 3 mars]. Available from: <https://www.sahlgrenska.se/om-sjukhuset/organisation/centrumbildningar/csdvast/om-csd-vast/om-sallsynta-halsotillstand/>.
2. Nguengang Wakap S, Lambert DM, Olry A, Rodwell C, Gueydan C, Lanneau V, et al. Estimating cumulative point prevalence of rare diseases: analysis of the Orphanet database. *Eur J Hum Genet.* 2020;28(2):165-73.
3. Kunskapsstyrning hälso- och sjukvård. Insatsområde sällsynta syndrom med komplexa vårdbehov [Internet]. Kunskapsstyrning hälso- och sjukvård: Sveriges regioner i samverkan; 2024 [cited 2024 9 januari]. Available from: <https://kunskapsstyrningvard.se/kunskapsstyrningvard/programomradenochsamverkansgrupper/nationellaprogramomraden/nposallsyntasjukdomar/sallsyntasyndrommedkomplexavardbehov.56099.html>.
4. Inera. Digital samverkan över organisationsgränser - En rapport från Ineras förstudie Stöd för multidisciplinära konferenser. [Internet]. Stockholm: Inera; 2019 [updated 17 juni; cited 2024 01-17]. Available from: <https://www.inera.se/globalassets/inera/media/dokument/projekt/forstudierapport-stod-for-mdk-190617.pdf>.
5. Regionala Cancercentrum i Samverkan. MDK - Multidisciplinär konferens [Internet]. Regionala Cancercentrum i Samverkan 2022 [updated 12 december 2022; cited 2024 25 april]. Available from: <https://cancercentrum.se/samverkan/vara-uppdrag/vardprocesser/multidisciplinar-konferens/>.
6. Johnson S, Bacsu J. Understanding complex care for older adults within Canadian home care: a systematic literature review. *Home Health Care Serv Q.* 2018;37(3):232-46.
7. Aston SJ, Reade S, Petersen B, Ward C, Duffy A, Nsutebu E. Extraordinary virtual multidisciplinary team meetings – a novel forum for the coordinated care of patients with complex conditions within a secondary care setting *Future Healthcare Journal* 2018;5(3):218–23.
8. Sveriges Regioner i samverkan. Generiskt ramverk – en vägledning för att utarbeta kunskapsstöd [Internet]. Sveriges Regioner i samverkan; 2024 [cited 2024 20 maj]. Version 1.6:[Available from: <https://kunskapsstyrningvard.se/download/18.7001dc9e1900c5817f2ce4c2/1719575991859/Generiskt-ramverk-kunskapsstod-v1.6-2024-06-26.pdf>.
9. Alexandersson N, Rosell L, Wihl J, Ohlsson B, Steen Carlsson K, Nilbert M. Determinants of variable resource use for multidisciplinary team meetings in cancer care. *Acta Oncol.* 2018;57(5):675-80.
10. Alexandersson N, Rosell L, Eriksson T, Ohlsson B, Törnqvist J, Nilbert M. Multidisciplinära konferenser (MDK) i cancervården. Kartläggning i Södra sjukvårdsregionen ur funktionalitets-, resurs- och jämlikhetsperspektiv. Internet. 2016 16-09-14.
11. Sveriges Kommuner och Regioner (SKR). Uppföljning regionernas KPP-databas [Internet]. Stockholm: Sveriges Kommuner och Regioner; 2024 [updated 2024-07-02; cited 2024 10 maj]. Available from: <https://skr.se/skr/halsasjukvard/ekonomiavgifter/kostnadperpatientkpp/uppfoljning.75015.html>.

12. Sveriges Kommuner och Regioner. Nationella KPP-principer [Internet]. Sveriges Kommuner och Regioner; 2020 [cited 2024 10 maj]. Version 4. kostnad per patient:[Available from: https://skr.se/download/18.187235b2180b4dcf16ac5ae/1652426603256/SKR_A4_KPP-principer_Webb.pdf.
13. EURODIS. Rare Diseases Europe. What is a rare disease? [Available from: <https://www.eurordis.org/content/what-rare-disease>.
14. Socialstyrelsen. Statistikområden, Diagnoser i slutenvård och specialiserad öppenvård [Internet]. Stockholm: Socialstyrelsen; 2024 [cited 2024 2 juli]. Available from: <https://www.socialstyrelsen.se/statistik-och-data/statistik/statistikdatabasen/>.
15. Lager A, Walander A, Ebbevi D. Förklaras könsskillnaderna i vårdkonsumtion av sjukdomsbörda? En studie i Stockholms län [Internet]. Stockholm: Centrum för epidemiologi och samhällsmedicin, Region Stockholm; 2019 [cited 2024 2 juni]. Rapport 2019:5:[Available from: <https://www.folkhalsoguiden.se/globalassets/verksamheter/forskning-och-utveckling/centrum-for-epidemiologi-och-samhallsmedicin/folkhalsoguiden/rapporter-och-faktablad/rapport-2019.5-forklaras-konsskillnader-i-vardkonsumtion-av-sjukdomsborda.pdf>.
16. Sveriges Kommuner och Regioner (SKR). Fakta om öppen hälso- och sjukvård [Internet]. Stockholm: Sveriges Kommuner och Regioner (SKR); 2023 [cited 2024 2 juli]. Available from: https://skr.se/download/18.3cdod917188ba187434b5b77/1688021527725/Fakta%20om%20C3%B6ppen%20h%C3%A4lso-%20och%20sjukv%C3%A5rd_2.o.pdf.
17. Sveriges Kommuner och Regioner. KPP Databas [Internet]. Stockholm: Sveriges Kommuner och Regioner; 2024 [updated 9 april 2024; cited 2024 10 juli]. Available from: <https://skr.se/skr/halsasjukvard/ekonomiavgifter/kostnadperpatientkpp/kppdatabas.46722.html>.
18. Pillay B, Wootten AC, Crowe H, Corcoran N, Tran B, Bowden P, et al. The impact of multidisciplinary team meetings on patient assessment, management and outcomes in oncology settings: A systematic review of the literature. *Cancer Treat Rev*. 2016;42:56-72.
19. Rosell L, Alexandersson N, Hagberg O, Nilbert M. Benefits, barriers and opinions on multidisciplinary team meetings: a survey in Swedish cancer care. *BMC Health Serv Res*. 2018;18(1):249.
20. El Saghir NS, Charara RN, Kreidieh FY, Eaton V, Litvin K, Farhat RA, et al. Global Practice and Efficiency of Multidisciplinary Tumor Boards: Results of an American Society of Clinical Oncology International Survey. *J Glob Oncol*. 2015;1(2):57-64.
21. Regionala Cancercentrum. Styrdokument - Riktlinjer för framtagande av standardiserade vårdförlopp inom cancersjukvården: Regionala Cancercentrum; 2020-03-25 [cited 2023 15 december]. Version: 2.0:[Available from: <https://cancercentrum.se/globalassets/vara-uppdrag/kunskapsstyrning/varje-dag-raknas/styrdokument-cancer-standardiserade-vardforlopp-svf.pdf>.
22. Riksförbundet Sällsynta diagnoser. Sällsynt men inte ovanlig - Medlemsundersökning 2022 [Internet]. Stockholm: Riksförbundet Sällsynta diagnoser; 2022 [cited 2023 12 december]. Available from: file:///H:/My%20EndNote%20Library/Data/PDF/0430878059/Sallsynta_diagnoser_medlemsundersokning_2022_d.pdf.
23. Lammila-Escalera E, Greenfield G, Barber S, Nicholls D, Majeed A, Hayhoe BWJ. A Systematic Review of Interventions that Use Multidisciplinary Team Meetings to Manage Multimorbidity in Primary Care. *Int J Integr Care*. 2022;22(4):6.

24. Stokes J, Kristensen SR, Checkland K, Bower P. Effectiveness of multidisciplinary team case management: difference-in-differences analysis. *BMJ Open*. 2016;6(4):e010468.
25. Christianson-Silva P, Russell-Kibble A, Shaver J. A nurse practitioner-led care bundle approach for primary care of patients with complex health needs. *J Am Assoc Nurse Pract*. 2021;34(2):364-72.
26. Maeng DD, Snyder SR, Davis TW, Tomcavage JF. Impact of a Complex Care Management Model on Cost and Utilization Among Adolescents and Young Adults with Special Care and Health Needs. *Popul Health Manag*. 2017;20(6):435-41.
27. Van Vliet LM, Harding R, Bausewein C, Payne S, Higginson IJ, EUROIMPACT. How should we manage information needs, family anxiety, depression and breathlessness for those affected by advanced disease: development of a Clinical Decision Support Tool using a Delphi design. *BMC Medicine* 2015;13:263
28. Socialstyrelsen. Anvisningar för val av huvud- och bidiagnos [Rapport]. Stockholm: Socialstyrelsen; 2016 [updated 2016-05-11 cited 2023 20 november]. 4.1:[
29. Katon W, Russo J, Lin EH, Schmittdiel J, Ciechanowski P, Ludman E, et al. Cost-effectiveness of a multicondition collaborative care intervention: a randomized controlled trial. *Arch Gen Psychiatry*. 2012;69(5):506-14.
30. Counsell SR, Callahan CM, Clark DO, Tu W, Buttar AB, Stump TE, et al. Geriatric Care Management for Low-Income Seniors A Randomized Controlled Trial. *American Medical Association*. 2007; 298(22):2623-33.

Bilagor

Bilaga 1. Litteratursökning

Embase via Elsevier 2023-10-04

(Search updated 2026-06-11, see below)

	Search terms	Items found
	Patient, problem	
#1.	'rare disease'/exp	50 022
#2.	'multiple chronic conditions'/exp	8702
#3.	1 OR 2	58 894
#4.	((orphan OR rare OR undiagnosed OR genetic OR multiple*) NEAR/3 (condition* OR diagnos* OR disease* OR disorder* OR symptom* OR syndrome*)):ti,ab,kw OR 'rd patient*':ti,ab,kw	484 776
#5.	3 OR 4	514585
#6.	'williams beuren syndrome'/exp	3866
#7.	'leber hereditary optic neuropathy'/exp	2544
#8.	'fragile x syndrome'/exp	10 065
#9.	'spinal muscular atrophy'/exp	70 818
#10.	'turner syndrome'/exp	13 874
#11.	'duchenne muscular dystrophy'/exp	20 034
#12.	'hunter syndrome'/exp	2586
#13.	'chromosome deletion 22q11'/exp	2322
#14.	'prader willi syndrome'/exp	6737
#15.	'meningomyelocele'/exp	8750
#16.	'down syndrome'/exp	40 761
#17.	5-16 OR	669 519
#18.	((complex OR complicated) NEAR/3 (need* OR 'health problem*')):ti,ab,kw	15 384
#19.	17 AND 18	653
	Intervention	
#20.	((care* OR team* OR service*) NEAR/3 (interprofessional* OR multidisciplinar* OR interdisciplin* OR integrated* OR coordinat* OR co-ordinat* OR cooperat* OR comanage* OR co-manage* OR collaborat* OR synchronis* OR synchroniz* OR multimodal* OR consensus)):ti,ab,kw	168 429

#21.	'patient care planning'/exp	31 036
#22.	(patient* NEAR/3 (pathway* OR care* OR transfer* OR transition* OR plan*)):ti,ab,kw	584 579
#23.	'model of care' OR 'models of care' OR 'continuity of care':ti,ab,kw	26 522
#24.	'consensus'/exp	101 271
#25.	20-24 OR	845 697
Final	19 AND 25	260

/exp = Includes terms found below this term in the EMTREE hierarchy

ab,ti= Term found in title and/or abstract

* = Truncation

‘ ‘ = Citation Marks; searches for an exact phrase

Sökning uppdaterad: 2024-06-11, 34 träffar

PubMed via NLM 2023-10-16		
(Search updated 2024-06-11, see below)		
Search terms	Items found	
Patient, problem		
#1. ("rare diseases"[MeSH Terms] OR "multimorbidity"[MeSH Terms] OR ("multi morbid*"[Title/Abstract] OR "multimorbid*"[Title/Abstract] OR "rare*"[Title/Abstract] OR "genetic*"[Title/Abstract] OR "undiagnosed*"[Title/Abstract] OR "unknown*"[Title/Abstract] OR "orphan*"[Title/Abstract])) AND ("condition*"[Title/Abstract] OR "disease*"[Title/Abstract] OR "disorder*"[Title/Abstract] OR "illness*"[Title/Abstract] OR "syndrome*"[Title/Abstract])	1 155 667	
#2. "Williams Syndrome"[MeSH Terms] "optic atrophy, hereditary, leber"[MeSH Terms] "Fragile X Syndrome"[MeSH Terms] "muscular atrophy, spinal"[MeSH Terms] "Turner Syndrome"[MeSH Terms] "muscular dystrophy, duchenne"[MeSH Terms] "Mucopolysaccharidosis II"[MeSH Terms] "22q11 Deletion Syndrome"[MeSH Terms] "Prader-Willi Syndrome"[MeSH Terms] "Meningomyelocele"[MeSH Terms] "Down Syndrome"[MeSH Terms] "Williams Syndrome"[MeSH Terms] OR "optic atrophy, hereditary, leber"[MeSH Terms] OR "Fragile X Syndrome"[MeSH Terms] OR "muscular atrophy, spinal"[MeSH Terms] OR "Turner Syndrome"[MeSH Terms] OR "muscular dystrophy, duchenne"[MeSH	88 607	

Terms] OR "Mucopolysaccharidosis II"[MeSH Terms] OR
 "22q11 Deletion Syndrome"[MeSH Terms] OR "Prader-
 Willi Syndrome"[MeSH Terms] OR
 "Meningomyelocele"[MeSH Terms] OR "Down
 Syndrome"[MeSH Terms] OR "williams
 syndrome*"[Title/Abstract] OR "fragile x
 syndrome*"[Title/Abstract] OR "spinal muscular
 atroph*"[Title/Abstract] OR "turner
 syndrome*"[Title/Abstract] OR "duchenne muscular
 dystroph*"[Title/Abstract] OR "hunter s
 syndrome*"[Title/Abstract] OR "22q11*"[Title/Abstract]
 OR "prader willi syndrom*"[Title/Abstract] OR
 "meningomyelo*"[Title/Abstract] OR "down
 syndrom*"[Title/Abstract] OR "Leber optic
 atrophy"[Title/Abstract:~5]

#3.	"complex needs"[Title/Abstract:~3] OR "complex need"[Title/Abstract:~3] OR "complicated needs"[Title/Abstract:~3] OR "complicated need"[Title/Abstract:~3] OR "complex health problem*"[Title/Abstract] OR "complex health problems"[Title/Abstract:~3]	12 198
#4.	1 OR 2 AND 3	713
Intervention		
#5.	"Consensus"[MeSH Terms] OR "cooperative behavior"[MeSH Terms]	67 078
#6.	"interprofessional*"[Title/Abstract] OR "interdisciplin*"[Title/Abstract] OR "multidisciplinar*"[Title/Abstract] OR "integrated*"[Title/Abstract] OR "coordinat*"[Title/Abstract] OR "coordinat*"[Title/Abstract] OR "co operat*"[Title/Abstract] OR "cooperat*"[Title/Abstract] OR "comanage*"[Title/Abstract] OR "co manage*"[Title/Abstract] OR "collaborat*"[Title/Abstract] OR "synchronis*"[Title/Abstract] OR "synchroniz*"[Title/Abstract] OR "multimodal*"[Title/Abstract] OR "consensus"[Title/Abstract]	1 487 972
#7.	"care*"[Title/Abstract] OR "service*"[Title/Abstract] OR "team*"[Title/Abstract]	2 660 659
#8.	5 OR 6 AND 7	343 885
#9.	"patient pathway*"[Title/Abstract] OR "patients pathway*"[Title/Abstract] OR "care pathway*"[Title/Abstract] OR "patient care planning*"[Title/Abstract] OR "patients care planning*"[Title/Abstract] OR "model of care*"[Title/Abstract] OR "models of care*"[Title/Abstract] OR "patient transfer*"[Title/Abstract] OR "patients transfer*"[Title/Abstract] OR "patient transition*"[Title/Abstract] OR "patients transition*"[Title/Abstract] OR "continuity of care*"[Title/Abstract]	32 225
#10.	8 OR 9	367 121

[Mesh] = Term from the Medline controlled vocabulary, including terms found below this term in the MeSH hierarchy [ti/ab] = Term found in title and/or abstract

* = Truncation

“ “= Citation marks; searches for an exact phrase

Sökning uppdaterad: 2024-06-11, 21 träffar

Antal träffar: = $460 + 55 = 515$

Efter borttag av dubletter: $269 + 48 = 317$

Totalt antal träffar = 317

Bilaga 2. Lista med utvalda diagnoser

ICD-kod	
D821	Q871
E761	Q871A
G120	Q871C
G121	Q871E
G121A	Q871F
G121B	Q871G
G121W	Q871J
G710A	Q871K
H472	Q871W
Q050	Q935
Q051	Q938
Q052	Q960
Q053	Q961
Q054	Q962
Q055	Q963
Q056	Q964
Q057	Q968
Q058	Q969
Q059	Q992
Q850	Q998
	Q999

*** Då fenotypen skiljer sig åt både mellan och inom grupper kan det ej helt säkerställas att samtliga koder omfattas av kriterier komplext vårdbehov**

Bilaga 3. Utökad beskrivning av studier från diskussion

En översiktlig sökning har genomförts för att identifiera studier som utvärderat förändrad vårdkonsumtion och andra hälsoekonomiska utfall i samband med införandet av MDK-liknande initiativ för patientgrupper liknande de med sällsynta sjukdomar. Syftet med sökningen var att få en övergripande bild över vilka studier som finns inom området, eftersom den systematiska litteraturöversikten inte fann några relevanta effektstudier. Kvaliteten på de studier som presenteras i bilagan har inte utvärderats.

En systematisk översikt av Lammila-Escalera och medarbetare (2022) utforskade effekterna av MDK för äldre individer med hög samsjuklighet. Fyra amerikanska randomiserade kontrollerade studier inkluderades i den systematiska översikten. MDK utfördes varje vecka i samtliga studier förutom i en av studierna där MDK ägde rum en gång i månad. I samtliga studier ingick sjuksköterskor och läkare vid MDK där vårdplan lyftes som en viktig hörnsten [23]. Två av de inkluderade studierna i denna systematiska översikt är Counsell och medarbetare (2007) och Katon och medarbetare (2012) [29, 30]. I studien av Counsell och medarbetare (2007) beskrev författarna en statistiskt signifikant minskning av antal akutmottagningsbesök i interventionsgruppen jämfört med kontrollgruppen efter 24 månader. Författarna konkluderar dock att ingen statistiskt signifikant skillnad observerats avseende antalet sjukhusinläggningar mellan grupperna [30]. Författarna i studien av Katon och medarbetare (2012) anger en statistisk signifikant ökning av antalet depressionsfria dagar i interventionsgruppen jämfört med kontrollgruppen. Denna ökning var justerad för bland annat ålder och kön. Författarna anger vidare en förbättring avseende kvalitetsjusterade levnadsår (QALY) i interventionsgruppen jämfört med kontrollgruppen. Mätning av QALY genomfördes i början av studien samt efter 24 månader. Enligt författarna minskade den inkrementella öppenvårdskostnaden per patient inom öppenvård i interventionsgruppen jämfört med kontrollgruppen. Resultaten, med undantag av utfallsmåttet depressionsfria dagar, var dock icke-signifikanta enligt författarna. Resultat för intervention- och kontrollgrupp redovisas inte separat utan enbart skillnad mellan dessa presenteras [29].

Stokes och medarbetare (2016) utvärderade multidisciplinära team (MDT) för äldre med bland annat komplex sjuklighet i Manchester, Storbritannien, mellan september 2010 och mars 2015. Så kallade högriskpatienter identifierades med hjälp av en prediktiv riskmodell. En förklaring av prediktiv riskmodell framgick dock ej i studien. MDT involverade såväl läkare som sjuksköterskor samt övriga vårdprofessioner. Syftet med MDT var att diskutera och samordna patienternas vårdbehov, utvärdering av vårdplan. Behovet av MDT varierade från fall till fall och genomfördes en gång i veckan för vissa patienter och mindre frekvent för andra. Målet med MDT var att minska onödiga besök på akutmottagningen och sjukhusinläggningar. I studien matchades 2 049 interventionspatienter med kontrollpatienter genom 1:1 propensity score matching. Utvärdering av vårdkonsumtion genomfördes under en 18-månadersperiod. Författarna noterade att akuta (icke-elektiva) inläggningar ökade minimalt i interventionsgruppen, liksom 30 dagar efter inläggningen jämfört med kontrollgruppen. Ingen signifikant skillnad observerades avseende akutmottagningsbesök mellan grupperna. Resultat för intervention och kontrollgrupp redovisas inte separat utan enbart skillnad mellan dessa presenteras [24].

En amerikansk studie av Christianson-Silva och medarbetare (2022) undersökte effekten av ett sjuksköterskelett förbättringsarbete vid akutmottagningsbesök och inläggningar på sjukhus för primärvårdspatienter med komplexa vårdbehov. Tillgång till teambaserad, samordnad vård från flera hälso- och sjukvårdspersonal var en viktig del i förbättringsarbetet. Författarna menar att implementering av förbättringsarbetet ledde till bättre samordning, minskning av akutmottagningsbesök och antalet inläggningar på sjukhus [25].

En annan amerikansk studie gjord av Maeng och medarbetare (2017) fokuserade på effekten av en ny vårdmodell som implementerades 2012. Studien analyserade effekterna av modellen avseende inläggningar på sjukhus och akutmottagningsbesök för tonåringar och unga vuxna med komplexa vårdbehov i övergångsfasen mellan barn- och vuxenvård. Interventionen bestod av ett vårdteam, inkluderande bland annat läkare, farmaceut och samordnare sjuksköterska, som utvecklade och följde en samordnad vårdplan. Studien inkluderade 83 patienter med bland annat autismspektrum, ryggmärgsbräck (spina bifida) och neurodegenerativa diagnoser. Patienter som identifierats med ett betydande behov av specialiserad vård var ofta beroende av medicinsk utrustning och hade erfarenhet av flera sjukhusvistelser. Författarna rapporterade att patienter som fick interventionen uppvisade en minskning i bland annat antalet sjukhusinläggningar, detta efter att ha justerat för faktorer som kön, etnicitet och komorbiditet [26].

Centrum för hälsoekonomi, informatik och sjukvårdsforskning består av Nationellt centrum för suicidforskning och prevention (NASP), Stockholm centrum för hälsoekonomi (StoCHE) och HTA Region Stockholm. CHIS är en universitetsjukvårdsenhet, vilket bland annat innebär att vi bedriver forskning av hög nationell och internationell kvalitet, bedriver utbildning av hög kvalitet samt bidrar till en evidensbaserad hälso- och sjukvård genom att överföra våra egna forskningsresultat till praktisk vård och fortlöpande utvärdera etablerade och nya metoder.