

BOEL-testen: en falsk tryghed

Afdelingslæge Susanne Holst Ravn &
afdelingslæge Mia Ortved Bjerager

Hillerød Sygehus, Børneafdelingen, Hørelinikken

Resumé

Introduktion: Universel neonatal hørescreening anbefales internationalt og anses for at være en tiltagende nødvendighed. I Danmark er den eneste tidlige screening af børns hørelse blik orienteret efter lyd (BOEL)-testen, som udføres i barnets hjem i otte-månedersalderen.

Materiale og metoder: Forældrene til 2.705 børn født i 1996-1997 i Frederiksborg Amt fik i barnets tiende levemåned tilsendt et spørgeskema om BOEL-testen. Der blev spurgt om, hvorvidt testen blev foretaget, hvilket udfald den havde, og om den blev gentaget ved abnormt resultat. Børnene blev fulgt op til 2002 med registrering af de hørehæmmede børn inklusive udfaldet af deres BOEL-test.

Resultater: Af 2.467 børn havde 350 (14%) et abnormt udfald af BOEL-testen. Toogtres børn (2%) blev henvist til speciallæge-/afdeling, og 152 børn (6%) blev aldrig yderligere undersøgt. I alt blev der fundet seks børn med et behandlingskrævende høretab (>30 dB på det bedst hørende øre), af hvilke fem havde haft et normalt udfald af BOEL-testen, og en aldrig havde fået foretaget BOEL-testen. Dette giver en sensitivitet på 0, en specificitet på 0,97 og en positiv prædiktiv værdi på 0,31.

Diskussion: BOEL-testen er en veletableret test med en høj dækningsgrad (98%), men med en lav sensitivitet og prædiktiv værdi. Dette betyder unødigt bekymrede eller falsk trygge forældre, forsinket diagnostik og henvisning af normalthørende børn til speciallæge og dermed en øget samfundsøkonomisk udgift. BOEL-testen bør udgå som hørescreeningstest og erstattes af en universel neonatal hørescreening (otoakustisk emissionsmåling og/eller automatisk hjernestammeaudiometri) med henblik på at sikre diagnostik før tremånedersalderen og intervention før seksmånedersalderen.

En normal hørelse er allerede i de første seks levemåneder nødvendig for, at et barn kan udvikle sig normalt kognitivt, sprogligt og emotionelt [1, 2]. Det er derfor af stor betydning tidligt at diagnosticere et medfødt eller tidligt erhvervet høretab, således at hurtig og passende rehabilitering kan iværksættes ved hjælp af et høreapparat eller en cochleaimplantation [3].

Prævalensen af medfødt eller tidligt erhvervet permanent behandlingskrævende høretab (PTH) (defineret som høretab ≥ 25 dB høretab i frekvensområdet 0,5-4 kHz på bedst hørende øre) er i Københavns Kommune fundet stationært at være 1,5 pr. 1.000 i perioden 1970-1999 [4], hvilket er i overensstemmelse med internationalt fundne prævalenser [5]. Alder på diagnosetidspunktet er i Danmark omkring 16-18 mdr. og har været uændret i de seneste 20 år [4].

Årsagerne til hørenedsættelse er overvejende genetiske og i stigning i takt med, at der er kommet flere familier af anden etnisk oprindelse end dansk, hvor konsangvinitet er hyppigere forekommende [4]. Derudover spiller præ- og postnatale infektioner, kongenitte malformationer af det ydre øre og perinatale komplikationer (asfyksi, præmaturitet, lav fødselsvægt og svær immunisering) også en rolle [4, 6]. Ved screening af risikogrupper vil formentlig kun omkring 60% af børnene med høretab blive identificeret [4] og fortsat alt for sent, idet årsagen oftest først findes retrospektivt i forbindelse med diagnosticering af høretab [7].

Formålet med denne undersøgelse er, ved hjælp af et spørgeskema til forældre og oplysninger fra amtets hørelinik om børn diagnosticeret med PHT, at vurdere blik orienteret efter lyd (BOEL)-testens egnethed som screeningsmetode for høretab.

Materiale og metoder

Populationen i denne undersøgelse bestod af alle børn, der var født i perioden fra den 1. september 1996 til den 31. marts 1997 og havde bopælsadresse i Frederiksborg Amt på fødselstidspunktet. Populationen blev rekrutteret via Det Centrale Personregister. Forældrene til disse børn modtog et spørgeskema omkring barnets tiende levemåned, hvor de blev spurgt om BOEL-testen. Der var spørgsmål om udfaldet af den første BOEL-test, om hvorvidt et abnormt svar havde medført gentagelse af testen, og om hvad denne i givet fald havde vist.

BOEL-testen er i Danmark eneste form for universel hørescreening, den blev indført i 1975 uden videnskabelig vurdering af dens egnethed som screeningsinstrument. Testen er en kommunikationstest med det formål at vurdere såvel barnets hørelse (modificeret distraktionstest), syn og motorik som kontakt og generelle udvikling. Testen udføres i 7-8-månedersalderen i hjemmet af en sundhedsplejerske, og høretesten indbefatter lydstimuli fra henholdsvis bjælder og klokker i frekvensområdet 4-12,5 kHz. Det er testeren (siddende foran barnet), der såvel påfører lyd som aflæser barnets reaktion på lyden. Retningslinjerne for udfaldet af BOEL-testen er, at en negativ BOEL-test (manglende reaktion på en af de påførte stimuli) skal opfølges af en fornyet testning 2-3 uger senere, og ved fortsat negativ testning skal der henvises til relevante instanser (primært en audiologisk enhed). BOEL-testen i den klassiske form udføres kun i Danmark, Sverige og Norge, hvorimod en modificeret distraktionstest udføres i eksempelvis England, Holland og Australien.

Resultater

I alt besvarede 2.467 (91%) det udsendte spørgeskema, af disse angav 2.075 (84%) normalt udfald af den første BOEL-test, 350

VIDENSKAB OG PRAKSIS | ORIGINAL MEDDELELSE

(14%) angav abnormt testudfald, og 42 (2%) havde aldrig fået udført en BOEL-test (dækningsgrad på 98%) (Tabel 1).

Af de 350 børn, der havde et abnormt udfald af den første BOEL-test, fik 200 (57%) gentaget testen, 28 børn (8%) blev henvist direkte til en otolog, fire børn (1%) til en praktiserende læge og fire børn (1%) direkte til amtets høreklub eller til børneklubben i Kristianiagade. I 114 tilfælde (33%) blev det abnorme udfald af BOEL-testen aldrig fulgt op (Tabel 2).

Af de 200 børn, der fik gentaget BOEL-testen, fandt man et normalt udfald hos 136 (68%), 26 børn (13%) blev henvist til en otolog eller en høreklub, og 38 børn (19%) blev aldrig fulgt op trods abnormt udfald af to BOEL-tester (Tabel 3).

Samlet blev 62 børn (2,5%) henvist til speciallæge/-afdeling, og 152 børn (6%) blev aldrig yderligere undersøgt trods abnormt udfald af mindst en BOEL-test. Der blev i den screenede fødselsårgang fundet seks børn med PHT, af hvilke fem havde haft et normalt udfald af BOEL-testen, og et barn aldrig havde fået foretaget BOEL-testen. Dette giver en sensitivitet på 0, mens specificiteten for BOEL-testen er 0,97 grundet sygdommens relative sjældenhed. Den prædiktive værdi af positivt udfald af BOEL-testen er i denne undersøgelse 0, mens den prædiktive værdi af negativt udfald af testen er tæt på 1.

Diskussion

BOEL-testen har i denne undersøgelse så lav en sensitivitet og positiv prædiktiv værdi, at testen vurderes at være uegnet som screeningsinstrument for høretab. Ingen af de børn, der i en femårsopfølgingsperiode fik konstateret PHT, blev fundet ved BOEL-testen. Den høje specificitet og negative prædiktive værdi skyldes sygdommens sjældenhed. Den relativt høje falsk positiv-rate (14%) medfører unødigt bekymring hos mange forældre, idet BOEL-testen af forældrene gennemgående opfattes som en høretest. De falsk negative udfald af testen giver forældrene en falsk tryghed, hvilket er uhenigtsmæssigt, idet man i flere undersøgelser har vist, at forældre er de første til at få mistanke om et høretab hos deres barn [8]. En falsk negativ BOEL-test medfører derudover en forsinkelse af diagnosen.

I en retrospektiv undersøgelse i Vejle Amt med registrering af BOEL-testens udfald hos 6.791 børn (tiårsfødselskohorte) blev testen fundet at have såvel lav sensitivitet som lav specificitet og stor metodologisk usikkerhed [9]. Ved en evaluering af BOEL-testen i Stockholm i 1989-1990 fandt man, at kun knap 60% af børn med moderat til svært høretab blev fundet ved en BOEL-test [10]. Dette resultat blev genfundet i en britisk undersøgelse, hvor mindre end 30% af børn med moderat til svært høretab blev fundet ved en lignende distraktionstest [11].

BOEL-testen har en høj dækningsgrad (98%), som bør udnyttes i implementering af en universel hørescreening, men med en test med langt højere sensitivitet, som skal udføres i neonatalperioden. På baggrund af blandt andet medicinsk teknologivurdering af screeningsmetoder anses otoakustisk

Tabel 1. Udfald af første BOEL-test.

	Antal	I % af alle BOEL-svar
Normal første BOEL-test	2.075	84,1
Abnorm første BOEL-test	350	14,2
BOEL-test ej foretaget	42	1,7

Tabel 2. Opfølgning af abnorm første BOEL-test.

	Antal	I % af abnorme første BOEL-svar
Henvist efter anden BOEL-test	200	57,2
Henvist til øre-, næse-, hals-læge	28	8
Henvist til høre-/børneklub	4	1,1
Henvist til egen læge	4	1,1
Ikke gentaget/henvist	114	32,6

Tabel 3. Udfald af anden BOEL-test.

	Antal	I % af abnorme første BOEL-svar
Normal anden BOEL-test	136	68
Henvist til øre-, næse-, hals-specialist	26	13
Ikke gentaget/henvist	38	19

emissionsmåling (OAE) og automatisk hjernestammeaudiometri (AABR) som retest ved abnormt udfald på tidlig OAE (fra tredje til fjerde levedøgn) i øjeblikket for at være de bedste metoder [12]. Testmetodernes sensitivitet varierer fra 0,60 til 1,0 og specificiteten fra 0,73 til 0,97 [11-13]. Med god information til forældrene er det vist, at undersøgelserne ikke forstyrrer mor-barn-forholdet [14], og graden af bekymring og angst er den samme, uanset om der foretages screening eller ej [15]. Implementering af universel neonatal hørescreening vil betyde, at diagnosticering før tremånedersalderen og start på intervention (cochleaimplantation og høreapparat) før seksmånedersalderen kan effektueres som anbefalet i internationale rekommandationer [16, 17].

Tidlig intervention har i en del undersøgelser vist sig at bedre sprogudviklingen både på kort og på lang sigt og dermed at være samfundsøkonomisk besparende ved reducerede udgifter til senere talepædagogisk og uddannelsesmæssig bistand [1, 8, 18]. I et *review* fra 2001 [2] konkluderes det dog, at nyere screeningsmetoder kan bedre diagnosticeringen af et medfødt høretab, men at effekten af en tidligere diagnose på den sproglige udvikling fortsat er usikker.

Dette studie bygger på forældreoplysninger, hvad angår udfaldet af BOEL-testen, hvilket er en svaghed, idet der kan være fejlfortolkninger fra forældrenes side. Dette gælder især ved de BOEL-test med abnormt udfald, der aldrig blev fulgt op. Idet sundhedsplejerskerne ikke så sig i stand til at deltage i undersøgelsen, har det ikke været muligt at kontrollere udfaldene og dermed vurdere, om der er et reelt opfølgingsproblem. Vi ved dog med sikkerhed, hvilke børn der fik diagnosticeret PHT, og udfaldet af deres BOEL-test har ikke betinget henvisning til audiolgisk vurdering.

VIDENSKAB OG PRAKSIS | ORIGINAL MEDDELELSE

Styrken ved denne undersøgelse er, at den afdækker forældredreopfattelsen af BOEL-testen, hvor den generelle holdning er, at BOEL-testen er en høretest, som der er stor tillid til. Dette er et vigtigt argument for at erstatte en så svag screeningstest med en test med langt højere sensitivitet.

Konklusion

BOEL-testen er velimplementeret og har en høj dækningsgrad, men den er en test med lav sensitivitet. I denne undersøgelse er sensitiviteten 0. Der er desuden en høj falsk positivrate (14%), hvilket giver unødigt forældrebekymring og øget samfundsøkonomisk udgift. Der forekommer tillige falsk negative udfald, hvilket skaber falsk tryghed samt forsinket diagnosticering og dermed behandling.

Resurserne bør omlægges, således at BOEL-testen udgår til fordel for en hospitalsbaseret universel neonatal hørescreening med en dækningsgrad på >90% med en test med høj sensitivitet og specificitet, eksempelvis en OAE, eventuelt i kombination med AABR med det formål at diagnosticere PHT hos børnene inden tremånedersalderen og iværksætte rehabilitering før seksmånedersalderen.

Korrespondance: *Susanne Holst Ravn*, Ved Fortunen 25A, DK-2800 Lyngby.
E-mail: s.h.ravn@dadlnet.dk

Antaget: 2. april 2004
Interessekonflikter: Ingen angivet

Taksigelse: Tak til overlæge *Niels Ion Johnsen* og afdelingslæge *Birgitte Bech*, Hørelinikken, Hillerød Sygehus.

Litteratur

- Mauk G, Behrens T. Historical, political and technological context associated with the early identification of hearing loss. *Semin Hear* 1993;14:1-17.
- Thompson DC, McPhillips H, Davis RL et al. Universal neonatal hearing screening. *JAMA* 2001;286:2000-9.
- Miyamoto RT, Houston DM, Kirk KI et al. Language development in deaf infants following cochlear implantation. *Acta Otolaryngol* 2003;123:241-4.
- Parving A, Hauch A-M, Christensen B. Høretab hos børn – epidemiologi, identifikation og årsager gennem 30 år. *Ugeskr Læger* 2003;165:574-9.
- Nekahm D, Weichbold V, Welzl-Müller K. Epidemiology of permanent childhood hearing impairment in the Tyrol, 1980-94. *Scand Audiol* 2001;30:197-202.
- Hayes D. Newborn hearing screening: selected experience in the United States. *Scand Audiol* 2001;30(suppl 53):29-32.
- Kountakis SE, Psifidis A, Chang J et al. Risk factors associated with hearing loss in neonates. *Am J Otol* 1997;18:90-3.
- Parving A, Christensen B. Training and employment in hearing impaired subjects at 20-35 years of age. *Scand Audiol* 1993;22:133-9.
- Olesen KM. BOEL-testens validitet i relation til tidligt/medfødt høretab [Master of Public Health]. Udgivelse nr. 21. Århus: Aarhus Universitet, 1999.
- Bremberg S. Påviser Boelprovet hørselskador på spädbarn? Kvalitetskontroll inom Barnhälsovården i Stockholm län. www.phs.ki.se/chap/pvisar.htm/marts2002.
- Davis A, Bamford J, Wilson I et al. A critical review of the role of neonatal hearing screening in the detection of congenital hearing impairment. *Health Technol Assess* 1997;1:1-176.
- Jeritslev K, Madsen S, Nielsen P et al. Dansk børneaudiologi – forslag til forbedringer. København: Videnscenter for døvblevne, døve og hørehæmmede, 2001.
- Parving A. Neonatal hørescreening i H:S – en medicinsk teknologivurdering. København: Bispebjerg Hospital, Audiologisk/Foniatrisk Afdeling, 1998.
- Hergils L, Hergils Å. Universal neonatal hearing screening – parental attitudes and concern. *Br J Audiology* 2002;34:321-7.
- Wessex Universal Neonatal Hearing Screening Trial Group. Controlled trial of universal neonatal screening for early identification of permanent childhood hearing impairment. *Lancet* 1998;352:1957-64.
- Grandori F, Lutman M. The European Consensus Development Conference on Neonatal Hearing Screening (Milan, May 15-16, 1998). *Am J Audiol* 1999;8:19-20.
- Joint Committee on Infant Hearing. Year 2000 position statement: principles and guidelines for early hearing detection and intervention programs. *Pediatrics* 2000;106:798-817.
- Keren R, Helfand M, Homer C et al. Projected cost-effectiveness of statewide universal newborn hearing screening. *Pediatrics* 2002;110:855-64.