



Föreningen Sveriges Habiliteringschefer
Rikstäckande nätverk för habiliteringen i Sverige. Grundad 1994

Intervention vid dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares – en evidensbaserad kunskapssammanställning: Uppdatering 2011

Ulrika Ferm (vetenskaplig ledare)
Ann Nordberg
Anneli Åkerberg
Moa Millgård

2011

Inledning

Föreliggande rapport om evidens för intervention vid dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares är en uppdatering av det arbete som gjordes 2006-2007 (Eng-Olofsson, Ferm, Hartelius, Nordberg, Tuominen-Eriksson och Åkerberg, 2007) och 2009 (Ferm, Nordberg, Tuominen-Eriksson och Åkerberg, 2009).

Arbetet har genomförts av logopederna Ann Nordberg och Anneli Åkerberg (Habilitering och Hälsa, Göteborg och Södra Bohuslän) och Ulrika Ferm (DART, Regionhabiliteringen, Drottning Silvias barn- och ungdomssjukhus), samt av logopedstudent Moa Millgård (Inst. för neurovetenskap och fysiologi, Enheten för logopedi, Göteborgs universitet). Ulrika Ferm har varit huvudansvarig.

Arbetsgruppen har träffats under mars och april 2011. Rapporten har sammanställts av Ulrika Ferm, och kontrollerats av övriga gruppdeltagare i april 2011.

Syfte

Syftet med uppdateringen var att söka studier av effekter av olika behandlingsmetoder för dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares, publicerade 2009 - 2011, och att utifrån olika evidensgraderingssystem kritiskt granska dessa.

Syftet har varit att granska studier som handlat om att påverka barnets/ungdomens tal. Detta är inte alltid målet med logopedisk intervention. Logopedisk intervention för barn och ungdomar med dysartri och cerebral pares inriktas ofta på alternativ och kompletterande kommunikation (AKK). Det är viktigt att komma ihåg att föreliggande arbete inte innefattar studier av effekter av AKK.

Metod

Arbetets upplägg

Arbetsgruppen har träffats vid tre tillfällen: 110329, 110330 och 110412.

Vid första tillfället diskuterades hur uppdateringen skulle genomföras (sökord, databaser, evidensgraderingssystem och granskningsprocessen) och gemensam sökning i databaser påbörjades.

Vid andra tillfället avslutades sökningsarbetet. Sökningen resulterade i totalt 1240 träffar (se detaljer nedan). Genom att manuellt gå igenom titlar, sammanfattningar och information om försökspersoner i de enskilda texterna beslutade arbetsgruppen gemensamt vad som skulle inkluderas i det fortsatta arbetet. Sex arbeten (fem vetenskapliga artiklar och en masteruppsats) valdes ut för läsning. Syftet med läsningen var att ta reda på om de sex texterna innehöll studier om behandling av dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares och att i sådana fall evidensgradera dessa. De sex texterna fördelades mellan arbetsgruppens fyra deltagare så att varje text lästes av två personer. Mellan andra och tredje tillfället läste, granskade och evidensgraderade arbetsgruppens deltagare texterna på egen hand.

Vid tredje tillfället genomfördes den slutgiltiga evidensgraderingen av de studier som handlade om behandling av dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares.

Processen var denna: Varje enskild studies design, deltagare, intervention och resultat diskuterades och de två gruppdeltagare som evidensgraderat studien presenterade och motiverade sin gradering. Gruppen fattade därefter beslut om slutgiltig evidensgradering. Fem texter som handlade om behandling av dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares (2 översiktsartiklar och 3 primärstudier) evidensgraderades. Den sjätte texten handlade om behandling av dysartri hos vuxna och evidensgraderas inte.

Vid det tredje och avslutande mötet diskuterades även rapportens upplägg. Rapporten skrevs i april, inom en vecka efter det avslutande mötet.

Databaser

Sökningar gjordes i följande databaser: Cochrane, PubMed, Pub Med Clinical Queries (clinical study category, therapy and broad, systematic reviews), Cinahl, PsycINFO, LLBA, ERIC och Trip. Även rapporter från SBU (statens beredning för medicinsk utvärdering) kontrollerades. Nytt för denna uppdatering var att sökning även gjordes i Google Scholar.

Sökord

Sökarbetet baserades på evidensgruppens samlade erfarenheter från tidigare arbete. Följande sökord och kombinationer av sökord användes: I Cochrane enbart *dysarthria* (och ingen tidsbegränsning) och i övriga databaser *cerebral palsy and dysarthria* (i Google Scholar med tillägget *child* och *adolescent speech*) i kombination med *rehabilitation* eller *therapy* eller *treatment* eller *therapeutics* eller *intervention* beroende på databasernas olika sökordsregister.

Åldersgränsen mellan ungdom och vuxen är oklar och definieras olika i olika studier. Många studier innehåller också både ungdomar och vuxna. Därför gjordes ingen begränsning vad gäller ålder i sökningen. Gruppen beslutade att studier vars deltagare var över 20 år inte skulle granskas.

Tidsbegränsning

Sökningen tidsbegränsades från 2009 (året för föregående uppdatering) till 2011.

Språk

Arbetsgruppen beslutade att granska artiklar skrivna på engelska, svenska, tyska och franska.

Evidensgradering

Sedan arbetsgruppens första rapport 2007 har flera nya metoder och system för att granska och evidensgradera forskning tillkommit. Arbetsgruppen beslutade att använda samma system som i uppdateringsrapporten från 2009, d v s Nordenström och Golper m.fl.

Evidensgradering enligt *Nordenström*: A = Stark vetenskaplig evidens (evidens från metaanalys, systematisk översikt eller välgjorda och stora RCT), B = Måttlig evidens (evidens från små eller ej optimalt utförda randomiserade studier eller från studier utan randomisering (kohortstudier, fall/kontrollstudier, tvärsnittsstudier), C = Svag evidens (expertutlåtande, konsensusrapporter, fallbeskrivningar och andra deskriptiva studier), D = Vetenskaplig evidens saknas (inga studier av tillfredsställande kvalitet finns tillgängliga).

Evidensgradering enligt *Golper m.fl.*: A: Phase I = Hypotheses about treatment efficacy are being developed for later testing. Often this involves experimental manipulations to test the potential benefits or activity of a particular treatment, Phase II = The goals are to formulate

and standardize protocols, validate measurement instruments, optimize dosage of treatment, and so on. Includes case reports and small group studies with no control groups or treatment comparisons, Phase III = Treatment efficacy of a specified protocol is formally tested either with single subject design research or group studies with controls such as control groups or treatment comparisons.

Sökresultat

Sökningen resulterade i 1240 träffar. Sex texter lästes. En text handlade om dysartri hos vuxna och uteslöts därför. Resterande fem texter, två översiktsartiklar och tre primärartiklar, handlade om behandling av dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares. Dessa evidensgraderades; se tabell 1, resultatanalys och diskussion.

Resultatanalys och diskussion

Denna uppdatering av evidens kring behandling av dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares resulterade i evidensgradering av fem texter (två översiktsartiklar, två primärartiklar och en masteruppsats). Sammantaget gäller att det vetenskapliga stödet för behandling av tal hos barn och ungdomar med cerebral pares är måttligt. Inga kontrollerade gruppstudier har genomförts. Den evidens som finns grundar sig på gruppstudier utan kontroll, fallstudier och studier med single subject design.

Forskning om behandling av dysartri hos barn och ungdomar är ett mycket eftersatt område. Utmärkande för de tre sökningar som gjorts av arbetsgruppen (2007, 2009, 2011) är bristen på systematisk utvärdering inom området snarare än evidens för och emot olika logopediska behandlingsmetoder. Eftersom få studier genomförts kan vi inte med säkerhet säga att det vi gör har effekt men vi har heller inget bevis för det motsatta, det vill säga att logopedisk behandling av tal inte har effekt!

Om man utgår från antal publicerade studier och dessa studiers design kan evidensläget sammanfattas som lågt-måttligt. Det finns dock exempel på väl genomförda studier som visar att logopedisk behandling av tal kan ha positiv effekt på förståelighet hos barn och ungdomar med dysartri och cerebral pares (t ex Pennington, Miller, Robson & Steen, 2009). Ungdomarna i studien av Pennington m.fl. var dessutom positiva till behandlingen. Studier som dessa ”lyfter” evidensläget mot måttligt och är dessutom vägledande inför framtida forskning.

En svensk studie om behandling med hjälp av visuell återkoppling s.k. elektropalatografi (EPG) publiceras inom kort i *Clinical Linguistics & Phonetics* (Nordberg, Carlsson & Lohmander, 2011). I studien visar det sig att vissa barn med dysartri och cerebral pares kan vara hjälpta av EPG som behandlingsalternativ för att hitta artikulationsställe för specifika språkljud som de har problem med att uttala. Artikel om studien är accepterad, men ej publicerad vid tidpunkten för arbetsgruppens arbetsmöten och kom därmed ej med i föreliggande evidensgranskning.

Mer forskning kring behandling av dysartri hos barn och ungdomar behövs och är på väg. Angela Morgan och Lindsay Pennington, två erfarna forskare inom området, har sammankallat till möte för att diskutera hur vi, ur ett internationellt perspektiv, kan samarbeta för att stärka evidensen kring behandling av dysartri hos barn. Ulrika Ferm, vetenskaplig ledare för föreliggande arbetsgrupp kommer att delta på det första mötet i juni 2011.

Såväl klinisk erfarenhet som forskning har visat att alternativ och kompletterande kommunikation har positiv effekt på kommunikativ förmåga hos personer med dysartri. Effekterna av AKK för barn och ungdomar med dysartri till följd av cerebral pares har inte granskats i denna uppdatering och bör utforskas vidare.

En ständigt aktuell och viktig fråga är huruvida icke talrelaterade oralmotoriska övningar har effekter på tal. Mycket tyder på att så inte är fallet. Slutsatsen i Lass och Pannbackers (2008) översiktsartikel är att det vetenskapliga stödet för effekter av oralmotorisk träning på tal är mycket bristfälligt. När man tolkar denna slutsats är det dock viktigt att komma ihåg att logopedisk orofacial träning kan vara viktig av andra orsaker t.ex. för att förebygga dregling.

Rekommendationer

Arbetsgruppen har evidensgraderat fem arbeten publicerade mellan 2009 och 2011.

Forskning kring behandling av tal hos barn och ungdomar med cerebral pares är fortfarande ett tämligen outforskat område och kontrollerade gruppstudier saknas.

De rekommendationer som kan ges, utifrån tidigare och föreliggande granskning och annan litteratur, är att logopedisk intervention med syfte att påverka talfunktion bör vara individuellt utformad och inriktad på talrelaterade, ej rent oralmotoriska, övningar.

Övningar inriktade på andning, fonation, talhastighet och fraslängd kan öka förståelighet av såväl enstaka ord som sammanhängande tal. För en del barn och ungdomar kan träning inriktad på långsammare tal och högre röststyrka bidra till bättre röstkvalitet, tydligare tal och ökad förståelighet.

Alternativ och kompletterande kommunikation (AKK) bör prövas. Även andra metoder som till exempel biofeedback med sEMG kan fungera bra. Logopedisk intervention som avser att påverka talet hos barn och ungdomar med cerebral pares bör förmodligen genomföras intensivt och måste på ett mer systematiskt sätt än hittills utvärderas och dokumenteras.

Referenser

- Eng-Olofsson, A., Ferm, U., Hartelius, L., Nordberg, A., Tuominen-Eriksson, A-M., & Åkerberg, A. (2007). *Intervention vid dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares – en evidensbaserad kunskapssammanställning*. Föreningen Sveriges habiliteringschefer: <http://www.habiliteringschefer.se/>
- Ferm, U., Nordberg, A., Tuominen-Eriksson, A-M., Åkerberg, A. (2009). *Intervention vid dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares – en evidensbaserad kunskapssammanställning: Uppdatering 2009*. Föreningen Sveriges habiliteringschefer: <http://www.habiliteringschefer.se/>
- Golper, L.A.C., Wertz, R.T., Frattali, C.M., Yorkston, K., Myers, P., Katz, R., Beeson, P., Kennedy, M.R.T., Bayles, K., & Wambaugh, J. (2001). *Evidence-based practice guidelines for the management of communication disorders in neurologically impaired individuals: Project introduction*. ANCDs.
- Lass, N.J., Pannbacker, M. (2008). The application of evidence-based practice to nonspeech oral motor treatments. *Language, Speech, and Hearing Services in Schools, 39*(3), 408-421.
- Nordberg, A., Carlsson, G., & Lohmander, A. (2011). Electropalatography in the description and treatment of speech disorders in five children with cerebral palsy. Kommer att publiceras i *Clinical Linguistics & Phonetics*.
- Nordenström, J. (2006). *Evidensbaserad medicin: I Sherlock Holmes fotspår*. Stockholm: Karolinska University Press.

Referenser till granskade artiklar

- Clements, H. (2009). An evaluation of two interventions on the phonetic repertoire of children with multiple disabilities. *Master of Speech and Language Therapy*. Nya Zeeland: University of Canterbury, Department of Communication Disorders.
- McCauley, R.J., Strand, E., Lof, G.L., Schooling, T., & Frymark, T. (2009). Evidence-based systematic review: Effects of nonspeech oral motor exercises on speech. *American Journal of Speech-Language Pathology, 18*, 343-360.
- Pennington L., Miller, N., & Robson, S. (2009). Speech therapy for children with dysarthria acquired before three years of age. *Cochrane Database of Systematic Reviews*, Issue 4. Art. No.: CD006937. DOI: 10.1002/14651858.CD006937.pub2.
- Pennington, L., Miller, N., Robson, S., & Steen, N. (2009). Intensive speech and language therapy for older children with cerebral palsy: a systems approach. *Developmental Medicine & Child Neurology, 52*, 337-344. DOI: 10.1111/j.1469-8749.2009.03366.x
- Wilk, M., Pachalska, M., Lipowska, M., Herman-Sucharska, I., Makarowski, R., Mirski, An., & Jastrzębowska, G. (2010). Speech intelligibility in cerebral palsy children attending an art program. *Medical Science Monitor: International Medical Journal for Experimental and Clinical Research, 16*(5), CR222-231.

Tabell 1. Evidensgradering av fem artiklar.

Studie 1	<i>Clements 2009</i>
Metod	Fallstudie. Pre- och posttest-design. Fyra faser: Bedömningsfas, baseline, intervention och postintervention. Mäter effekter av artikulationsträning och ordbaserad träning på ljudrepertoar och kommunikativ avsikt. Bedömning av tal, språk och kommunikation med flera olika instrument. Enkät till föräldrar och lärare om effekter av behandling fyra v efter avslutad behandling.
Deltagare	2 barn med cerebral pares: Pojke 9 ;04 år med cerebral pares och Lebers kongenitala amauros samt dysartri, pojke 7 ;04 år med spastisk tetraplegisk cerebral pares och dysartri.
Intervention	Behandling med syfte att påverka tal fyra ggr/v i sex veckor 20-30 min/tillfälle. Behandling främst i skolan, men även i hemmet. Lärare och familjemedlemmar får lista med målord och uppmuntras att modellera ord minst 10 ggr/dag.
Resultat	Förändring av minst ett ljud hos bägge barnen efter artikulationsträning men inte efter ordbaserad träning. Bägge barnen visade förändring i kommunikativ avsikt efter ordbaserad träning och i begränsad utsträckning eller inte alls efter artikulationsträning.
Noteringar	Otydlig metodbeskrivning.
Evidensgrad	N: C, G: II
Studie 2	<i>McCauley, Strand, Lof, Schooling & Frymark 2009</i>
Metod	Översiktsartikel.
Syfte	Att undersöka evidens för effekter av oralmotoriska övningar (OME) på tal (talfysiologi, talproduktion och funktionellt tal (förståelighet)).
Artiklar	15 studier granskades. Två av dessa innehöll barn med cerebral pares: Fischer-Brandeis et al (1987) och Ray (2001). Dessa ingick även i Pennington, Miller och Robson (2009) som också granskats i denna uppdatering.
Deltagare	I de två ovan nämnda studierna deltog sammanlagt 87 barn med cerebral pares, 43 pojkar och 44 flickor i åldern 4-14 år.
Intervention	Orofacial regulationsterapi med gomplatta och massage och orofacial myofunktionell träning (oralsensorisk stimulering och övningar för läppar, tunga, käke och kinder).
Resultat	Fischer-Brandeis et al (1987): Otillräckliga data och metod, signifikans ej beräknad. Ray (2001): Signifikant förbättring i förståelighet av enstaka ord, ingen effekt på diadochokinesi.
Noteringar	
Evidensgrad	N: B, G: II (Baseras på de två studier med deltagare som har cerebral pares)

Studie 3	<i>Pennington, Miller & Robson 2009</i>
Metod	Översiktsartikel.
Syfte	Att utvärdera om intervention avsedd att påverka talet hos barn med dysartri är mer effektiv än ingen intervention alls. Att utvärdera om en viss typ av intervention är mer effektiv än en annan när det gäller att förbättra förståelighet hos barn med dysartri.
Artiklar	Av 1156 abstrakts valdes 10 ut för eventuell granskning. Inga kontrollerade gruppstudier återfanns. Ingen studie granskades men sammanfattningar av de 10 studierna ges i syfte att beskriva utvecklingen av evidens inom området.
Deltagare	I de 10 studier som beskrivs deltog 137 barn (under 20 år) som fått dysartri före tre års ålder. 136 barn hade cerebral pares och ett barn hade Worster-Droughts syndrom.
Intervention	Orofacial behandling, LSVT, avslappnings-, andnings- och fonationsövningar, artikulationsträning, övningar inriktade på prosodi och talhastighet, biofeedback med sEMG, orofacial myofunktionell träning.
Resultat	Samtliga studier är observationella, icke experimentella. Sammanfattningen av dessa studiers resultat är att träning inriktad på långsamt tal och hög röststyrka kan öka förståelighet, röstkvalitet och tydlighet i tal hos barn och ungdomar med dysartri till följd av cerebral pares. Konstateras att mer forskning behövs för att vi ska kunna erbjuda evidensbaserade metoder.
Noteringar	Väl beskriven och metodologiskt korrekt Cochrane review.
Evidensgrad	N: B, G: II (Bedömningen grundar sig på att detta är en väl genomförd granskning som inte inbegriper någon kontrollerad gruppstudie men ett par väl genomförda studier med spännande resultat som är vägledande inför fortsatt forskning)
Studie 4	<i>Pennington, Miller, Robson & Steen 2009</i>
Metod	Gruppstudie utan kontrollgrupp. Modifierad time series design: Inspelning av tal 6 v och 1 v före behandling, 1 v och 6 v efter avslutad behandling. I samband med bedömning av förståelighet av tal (kända och naiva lyssnare) presenterades de fyra inspelningarna av varje ungdom i slumpmässig ordning.
Deltagare	16 barn; 7 pojkar och 9 flickor i ålder 12-18 år med cerebral pares (9 spastisk, 2 dyskinetisk, 4 blandad, 1 Worster-Drought) och måttlig-grav dysartri. Lindrig utvecklingsstörning accepterades.
Intervention	Individuell behandling av forskningslogoped 35-40 min 3 ggr/v i 6 veckor med syfte att påverka ungdomens kontroll av andning, fonation, talhastighet och fraslängd eller antal stavelser/andetag.
Resultat	Förståeligheten av enstaka ord ökade med minst 10 procent för de flesta av ungdomarna (gällde både kända och naiva lyssnare). Även ökad förståelighet av sammanhängande tal för en del av ungdomarna. Större variation inom gruppen när det gäller ökad förståelighet av sammanhängande tal. Effekten kvarstod 6 v efter avslutad behandling. Ungdomarna var positiva till behandlingen.
Noteringar	Mycket heterogen grupp. Forskningslogoped ev. ej representativ. Utförlig beskrivning av metod.
Evidensgrad	N: B, G : II

Studie 5	<i>Wilk, Pachalska, Lipowska, Makarowski, Mirski & Jastrzebowska 2010</i>
Metod	Retrospektiv gruppstudie utan kontrollgrupp. Utvärdering av tal hos barn med dysartri efter 16 v konstterapi. Deltagarnas tal bedömdes utifrån 9 parametrar (med eget instrument för bedömning av dysartri) vid 4 tillfällen; vid behandlingsstart, efter en tredjedel av tiden, efter två tredjedelar av tiden och då behandlingen avslutades. Även ordflödestest användes vid dessa 4 tillfällen.
Deltagare	14 ungdomar; 5 flickor och 9 pojkar i åldern 12-18 år med cerebral pares (spastisk, dyskinetisk och ataktisk), grav dysartri och IQ över 70.
Intervention	Konstterapi (teori samt praktiska övningar i olika tekniker) under ledning av konstterapeut 1,5 tim/dag, 5 dagar/v i 16 v.
Resultat	Mellan första och fjärde testtillfället förbättrades 12 ungdomar på samtliga parametrar, övriga 2 förbättrades på 7 respektive 8 av 9 parametrar. Förbättring handlar främst om övergripande förståelighet i sammanhängande tal.
Noteringar	Urval till terapi baseras på socialt svåra levnadsförhållanden. Ungdomarnas totala behandlingssituation oklar. Oklart vem som genomfört bedömning och hur. Interbedömarreliabilitet saknas. Långtgående slutsatser i förhållande till studiens resultat och design. Intressanta resultat.
Evidensgrad	N: C, G: II