

Bilaga 3

Översikterna

Här nedan följer en presentation av Cochrane-översikten, den strukturerade sammanfattningen, också ur Cochranebiblioteket, samt ett antal andra översikter och de slutsatser man där dragit i syfte att försöka utröna hur det bästa vetenskapliga underlaget för tidig intervention för barn med autism är konstituerat. Det följer också en kortfattad presentation av ett antal riktlinjer, rekommendationer och liknande.

De kontrollerade primärstudier som inkluderats i de olika översikterna presenteras kort i bilaga 2 samt i tabell 3.

Systematiska översikter

Föräldramedierad tidig intervention för barn med autism (Parent-mediated early intervention for young children with autism) av Diggle och medarbetare (Diggle *et al.*, 2004) är den hittills enda Cochrane-översikten som avser psykosociala interventionsmetoder vid autism. Det finns däremot två andra systematiska översikter i Cochranebiblioteket (CDRS) som undersöker vitamin- (Nye & Brice, 2004) samt hörselterapi behandling vid autism (Sinha *et al.*, 2004).

Översikten är utförd i enlighet med Cochranesamarbetets metodhandbok (Clarke & Oxman, 2003), vilket bland annat innebär noggrant redovisat tillvägagångssätt, att flera forskare oberoende av varandra värderat det vetenskapliga underlaget utifrån en i förväg uppställd frågeställning och tydliga inklusions- och exklusionskriterier.

Diggle och medarbetare konstaterar att föräldramedverkan anses viktig och ingår i många program för tidig intervention vid autism. Deras fråga är i vilken grad föräldraimplementerad tidig intervention för barn med autism är effektiv, i synnerhet när det gäller utvecklingen av språk, beteende och socialt samspel, samt när det gäller att minska stress och liknande för föräldrar. Några av inklusionskriterierna är att studierna randomiserar barnen till olika grupper där olika program jämförs och att barnen är yngre än 7 år. Endast två studier inkluderas (Jocelyn *et al.*, 1998; Smith *et al.*, 2000) av från början 15000 träffar där 68 studier kontrollerades noggrant. Dessa studier beskrivs i bilaga 2 och i tabell 3. Inga av de studier som granskas i många av de övriga översikterna (se nedan) inkluderades på grund av metodologiska skäl (Birnbauer & Leach, 1993; Lovaas, 1987; McEachin *et al.*, 1993; Ozonoff & Cathcart, 1998; Sheinkopf & Siegel, 1998; Smith *et al.*, 1997).

Man konkluderar att det befintliga vetenskapliga underlaget inte kan besvara frågan om bästa praktik. Studierna är mycket olika och därför ojämförbara (bland annat när det gäller teoretisk underbyggnad, intensitet, längd och kontext). Dessutom har båda metodologiska brister. De har få deltagare (små sample) och därmed låg statistisk power (förmåga att upptäcka små skillnader). Även om deltagarna i båda studierna är randomiserade på ett adekvat sätt är de också matchade utifrån symtombelastning (Jocelyn) och IQ (Smith). Detta kan tvärtom forskarnas intentioner potentiellt ha infört bias som då ytterligare försämrar reliabiliteten.

När det gäller Jocelyn-studien är det svårt att veta om de statistiskt signifikanta resultaten också är kliniskt signifikanta. Det är inte heller möjligt att veta vad i programmet som medförde denna förändring (om det var föräldern det berodde på); barnens förälder och assistenten i förskolan fick samma utbildning och gjorde samma saker med barnet. Dessutom pågick interventionen under mycket kort tid (12 veckor) vilket kan ha medfört att eventuella skillnader mellan grupperna när det gäller interventionens effektivitet var så små att de inte hann producera upptäckbara skillnader i resultatet.

I Smith-studien uppnår den professionellt tränade gruppen barn i genomsnitt lite drygt 15 IQ-poäng (en standardavvikelse) mer än barnen i den föräldratränade gruppen. En sådan skillnad är kliniskt signifikant, menar författarna. Dock reser översiktsförfattarna flera frågetecken inför detta resultat: även om skillnaden är statistiskt signifikant ligger spannet vid 95 % konfidensintervall mellan cirka 0 och 30 IQ-poäng; resultatet är osäkert. Man använde olika test vid olika tillfällen vilket också inför ett mått av osäkerhet i mätningarna och en del av testen är mycket ålderdomliga (Merrill-Palmer har normer från 1948). Betyder skillnaden på en standardavvikelse ökad IQ att barnet fått en ökad förmåga att följa/lyda den vuxne, frågar författarna sig, eller en verklig ökning av IQ? I språkförmåga mätt med Reynell uppmättes ingen skillnad mellan grupperna (granskarna har missat ett erratum, se Smith *et al.*, 2001 errata). I de andra måtten som byggde på skattningar av dem som kände barnen bäst (Vineland och psykiatrisk belastning) uppmättes ingen skillnad mellan grupperna. Ännu ett moment som kan ha påverkat reliabiliteten är att uppföljningen skedde flera år efter avslutad träning. Detta spår ytterligare på mätosäkerheten, exempelvis när det gäller föräldrarnas skattning av sin stressbelastning under interventionen; en liten positiv skillnad i det avseendet uppmättes i den intensivtränade gruppen.

Sammantaget, menar författarna, att man skulle kunna säga att föräldramedierad tidig intervention (Jocelyn) är något effektivare än enbart förskola i att ge språkförbättring mätt på kort sikt och att mödrar och assistenter som fick föräldraträning fick bättre kunskaper i autism. Man skulle också kunna säga att föräldramedierad beteendeorienterad intervention (Smith) är något mer effektiv än enbart förskola, men inte lika effektiv som intensiv, hembaserad beteendeträning utförd av professionella. Den skillnaden kan dock bero på att den sistnämnda gruppen av barnen tränades betydligt intensivare och under längre tidsperiod än barnen i den föräldramedierade gruppen.

Översikten har alltså lite att erbjuda när det gäller implikationer för praktik. Likväl är principen att befördra föräldrars medverkan i sina barns program och att bygga på deras kunskaper och förmåga att handskas med sina barn med autism på ett konstruktivt sätt en självklarhet för de flesta. Vi saknar dock fortfarande mer specifika kunskaper om effekt och eventuella nackdelar.

Författarna räknar med att presentera en substantiell uppdatering av översikten under 2004. Enligt en av författarna (McConachie, 2004) har två nya RCT tillkommit (Aldred *et al.*, 2004; Drew *et al.*, 2002).

Strukturerade sammanfattningar (structured abstracts)

Strukturerade sammanfattningar i Cochranebibliotekets Database of Abstracts of Reviews of Effectiveness (DARE) är kortfattade texter som på ett strukturerat sätt sammanfattar vissa översikter som inte ingår i Cochranebiblioteket men som ändå bedömts vara av god kvalitet. I det här fallet är det granskare (reviewers) från NHS Centre for Reviews and Dissemination

(CRD) som har bedömt översikten utifrån en given uppsättning kvalitetskriterier och ansett att den håller tillräckligt god kvalitet för att kvalificera som strukturerad sammanfattning i DARE.

Ludwigs och Harstalls *Intensive intervention programs for children with autism* (2004) är en strukturerad sammanfattning av en berättande (narrative) översikt på meta-metanivån (alltså en översikt av översikter) utförd av en av de kanadensiska organisationerna för medicinsk utvärdering (Alberta Heritage Foundation for Medical Research, AHFMR, jfr vårt SBU). För att inkluderas i översikten skulle tidiga intensiva (flertalet vakna timmar för barnet: 15-40 timmar/vecka) mångsidiga interventionsprogram för små barn med autism behandlas. Endast kritiska översikter inkluderades av vilka man fann tre stycken (Bassett *et al.*, 2000; ECRI, 2000; Smith, 1999). I dessa tre översikter, analyserades i sin tur, sammantaget 20 olika primärstudier. Många av studierna var gemensamma för alla tre översikterna, se tabell 2. Det framgår inte om och i sådana fall vilka exklusionskriterier författarna tillämpade för att välja översikter.

Programmen som analyserades var olika former av beteende/utvecklingsinriktade program: Lovaas, Rutgers, TEACCH, LEAP, Denver och Autism Preschool program. Det vanligaste utfallsmåttet var intellektuell funktion (IQ) som mättes med ett antal olika test. Vissa andra mått förekom också (skolplacering, föräldraskattningar av olika slag, adaptivt beteende, personlighetsskattningar, osv).

Författarna presenterar de olika översiktens kritiska analyser av varje primärstudie som de sedan sammanfattar. De gör ingen egen bedömning av primärstudierna. Översikten är en berättande syntes. Nedan ges en kort presentation av varje översikt och sedan en sammanfattande slutsats.

ECRI (Emergency Care Research Institution) analyserade 14 (se tabell 2) primärstudier varav 4 exkluderades. Sex stycken hade kontrollgrupp men endast en var randomiserad (Jocelyn *et al.*, 1998). Alla studier rapporterade positiva resultat men metodologiska brister minskar resultatens reliabilitet; på grund av detta går det inte att med säkerhet tillskriva interventionen i sig de rapporterade resultaten, ens i Lovaas studie (Lovaas, 1987). Det tycks däremot möjligt att de undersökta programmen kan leda till att vissa aspekter av funktionsförmågan förbättras hos barn med autism. Det saknas dock kunskapsunderlag för att dra slutsatser om vilket program som är bäst. På grund av de metodologiska bristerna i studierna är det inte möjligt att med säkerhet slå fast att de rapporterade positiva förändringarna hos många barn beror på programmet som använts. ECRI:s övergripande slutsats är att man inte kan utesluta möjligheten att vilka positiva och intensiva ansträngningar som helst riktade mot barn med autism skulle kunna medföra positiva förbättringar, oavsett om dessa ansträngningar är förknippade med ett program eller inte.

Bassett och medarbetare (Bassett *et al.*, 2000) är en systematisk översikt utförd av forskare vid British Columbias Health Technology Assessment-organisation (BCOHTA). Den är utförd enligt den systematiska översiktens metodologi. Frågeställningen är vilken evidens det finns för att tidiga, intensiva beteendeträningsprogram jämfört med alternativa strategier för förskolebarn med autism kan medföra en övergripande förbättring i utfallet. Inklusionskriterier var att det fanns kontrollgrupp och att utfallsmått redovisades. Av ursprungligen över tusen studier kontrollerades 150 men endast fyra inkluderades: Lovaas (1987) + McEachin (1993), Birnbrauer & Leach (1993), Sheinkopf & Siegel (1998) samt Ozonoff & Cathcart (1998).

Trots att Lovaas (Lovaas, 1987) och McEachin (McEachin *et al.*, 1993) är metodologiskt starkare än andra publicerade studier av alternativa program är de otillräckliga för att fastslå i vilken grad detta program kan befordra normal funktion, hur man än definierar denna. Däremot finns gott underlag för att TBA (ABA) är effektiv när det gäller att lära in nya färdigheter och minska problembeteenden vid autism (Matson *et al.*, 1996). Avsaknaden av stöd för att det går att bota autism skall därför inte förminska värdet av TBA vid autism som kan främja utvecklingen på ett kliniskt signifikant sätt även om barnen inte uppnår 'normal funktion'.

Av delvis samma översiktsförfattare finns också en systematisk cost-benefit-analys (Green *et al.*, 2000) som inte oväntat konstaterar att det inte finns tillräckligt empiriskt underlag om något programs effektivitet för att det skall vara möjligt att göra sådana analyser i dagsläget.

Smith (Smith, 1999) uppfyller inte alla krav för en systematisk översikt men är en välgjord, kritisk granskning av 12 referentbedömda effektstudier om tidig intervention vid autism publicerade efter 1980. Smith inkluderar nio studier av beteendeanalytiska program, en av TEACCH och två av Colorado Health science (som också kallas Denver model).

Smith menar sammantaget att man måste vara mycket försiktig när man drar slutsatser utifrån det här underlaget och att de positiva resultaten vid en närmare granskning tyvärr visar sig mindre än vad vissa andra översiktsförfattare tidigare hävdat. Studiernas metodologiska brister är stora och förhindrar oss att dra säkra slutsatser. Vi vet inte hur intensitet och program specifikt korrelerar med utfall. Det verkar som om de som är mest begåvade vid träningens början gör störst framsteg men undantagen är många. Vi vet inte om resultaten är bestående eftersom det i stort saknas långsiktig uppföljningsdata, vilket om så inte var fallet skulle utmana hela idén med tidig intervention.

Som stöd för att tidiga, intensiva beteendeträningsprogram i allmänhet och Lovaas program i synnerhet är effektiva påpekar Smith att Lovaas program fortfarande är det bäst dokumenterade, har de metodologiskt starkaste studierna och har uppnått de bästa resultaten. Dessutom finns det också ett starkt empiriskt stöd för att mer fokuserade beteendeanalytiska strategier är effektiva när det gäller att förbättra en rad problembeteenden och lära in nya färdigheter hos barn med autism. Lovaas och andra beteendeträningsprogram är uppbyggda av sådana mer fokuserade strategier och borde därmed rent logiskt också vara effektiva. Smith konstaterar att i de flesta granskade studier gör en grupp stora framsteg men att varje studie också innehöll en stor undergrupp vars IQ-värden stod stilla eller sjönk.

Sammanfattningsvis kommer alla tre översikterna fram till snarlika slutsatser: De flesta program visade effekt när det gällde att hos en del av barnen befordra utvecklingsframsteg, ökad IQ och mindre restriktiva skolplaceringar. Alla översikter diskuterar studier av interventioner utförda enligt Lovaas manual (Lovaas *et al.*, 1981) och konstaterar att de alla är metodologiskt bristfälliga. Detta gäller även Lovaas ursprungliga studie (Lovaas, 1987; McEachin *et al.*, 1993) även om den har den starkaste designen av de granskade studierna. Kunskapsunderlaget är otillräckligt för att kunna slå fast något samband mellan mängd träning (intensitet och längd) och utfallsmåttet (IQ-test, språkutveckling och adaptivt beteende). Primärstudiernas metodologiska brister begränsar och gör evidensen för efficacy (resultaten under ideala förhållanden i en forskningsundersökning, ungefär intern validitet) och effectiveness (resultat i den vardagliga praktiken, ungefär extern validitet) osäker för alla program. Alla de undersökta programmen verkar vara effektiva men man kan inte säga vilket

program som är bäst, eller hur intensitet och/eller längd på träningen, IQ eller något annat korrelerar med utfall så som det hittills har mätts.

Andra kritiska översikter

Early intervention in autism (Dawson & Osterling, 1997)

Dawsons och Osterlings kritiskt resonerande översikt ingår som ett kapitel i Guralnicks bok om tidig interventionsforskning i allmänhet (Guralnick, 1997). De diskuterar åtta program: Lovaas, TEACCH, LEAP, Denvermodellen (som här kallas Health sciences) och några andra TBA-(ABA)program: Princeton, May, Walden och Douglass. De frågar sig om programmen är effektiva och om effektiviteten i sådana fall beror på programmen, deras filosofi eller på barnkaraktäristika som initialt IQ eller verbal förmåga? Dessutom försöker de beskriva gemensamma element eller faktorer som finns i varje program oavsett filosofi och som de menar ingår i varje program därför att arbete med barn som har autism så att säga föder vissa förhållningssätt, användningen av likartade undervisningsstrategier och liknande. Dessa gemensamma faktorer har flitigt citerats och förts vidare i flera andra översikter, bland annat *Educating children with autism* (National Research Council, 2001) och New Yorks Hälsodepartements riktlinjer (New York State Department of Health, 1999). Det finns också studier som utvecklat temat gemensamma faktorer och bland annat noggrannare undersökt hur gemensamma de olika faktorerna egentligen är (Hurth *et al.*, 1999). Andra har försökt förstå dessa faktorer utifrån neuropsykologisk forskning (Rogers, 1998b). De gemensamma faktorerna kommer att behandlas på annat ställe.

Dawson och Osterling konstaterar att bara i en av de granskade studierna fanns kontrollgrupp (Lovaas). Lovaas-studiens resultat är trots de metodologiska bristerna uppmuntrande. Man konstaterar vidare att alla de granskade programmen var ganska effektiva när det gällde att befördra mindre restriktiv skolplacering och tydliga utvecklingsframsteg för en stor del av de deltagande barnen. Inga slutsatser går att dra när det gäller hur barnkaraktäristika som IQ och språkförmåga är relaterade till utfall eller hur stor intensiteten behöver vara. Sammantaget menar de att den undersökta populationen var representativ och att hälften av den gjorde stora framsteg i de undersökta programmen. Kanske borde forskarnas ansträngning idag fokusera på att sprida det vi vet så att de program som finns kan nå ut till en bredare allmänhet snarare än att försöka utveckla nya program, menar författarna.

Empirically supported comprehensive treatments for young children with autism (Rogers, 1998)

1998 presenterade ett flertal forskare genomgångar och metodologiska resonemang som byggde på American Psychological Association (APA) Task Force on Psychological Intervention Guidelines (1995) i *Journal of Clinical Child Psychology*, 27(2). I det här sammanhanget gick Sally Rogers genom kunskapsunderlaget avseende mångsidiga program för barn med autism för att undersöka om något av programmen kunde bedömas vara 'väletablerat' (evidensbaserat) eller 'troligen effektivt' utifrån de kriterier som APAs Task Force hade satt upp för empiriskt underbyggda interventioner. Rogers översikt följer inte den systematiska översiktens format men är en kritiskt granskande genomgång av ett antal program som finns i USA. Hon granskar ett antal studier publicerade i referentbedömda tidskrifter från åtta olika forskargrupper. Det framgår inte hur hon gjort sitt urval eller vilka sökstrategier hon använt, men som man kan se i tabell 2 behandlar hon i stort samma studier

som återfinns i de andra översikterna: Lovaasprogrammet, andra TBA-inriktade program och Rogers egen Denvermodell.

Rogers konstaterar att inget program uppfyller kriterierna för att vara någon väletablerad eller troligen effektiv psykosocial intervention för barn med autism. Lovaas-programmet har presenterat data på det metodologiskt minst svaga sättet. För att besvara frågor om vilket program som är effektivast samt frågor om intensitet, och vilken betydelse barnens initiala IQ och/eller språkförmåga har för utfallet måste resultaten från ytterligare studier inväntas; det går inte att besvara dem utifrån dagens kunskapsläge. Rogers framhåller att det vid en yttlig jämförelse är slående hur lika resultaten är när det gäller hur olika utvecklingsförmågor, IQ och språk mellan de olika, här granskade programmen utvecklas. I dagsläget tyder de här studierna sammantaget på att det finns ”hopp om påtaglig förbättring av de autistiska symtomen”.

Educational interventions for children with autism: A literature review of recent and current research (Jordan *et al.*, 1998)

Rita Jordan och medarbetare genomförde 1998 på det brittiska utbildningsdepartementets uppdrag en brett upplagd genomgång av publicerad forskning och läget i Storbritannien när det gäller pedagogiska interventioner för barn med autism. Genomgången är närmast en kritiskt diskuterande översikt. Den har kritiserats av Sallows (Sallows, 2000).

Jordan konstaterar att alla undersökta program (se tabell 2) har någon typ av empiriskt underlag för sin effektivitet men att kvaliteten på underlaget är skiftande samtidigt som ännu inget program till fullo har lyckats genomföra en metodologiskt oklanderlig utvärdering. Det saknas bevis för något programs överlägsenhet. Ingen studie kontrollerade för intensitet och därför vet vi inte om man mäter ett programs effektivitet eller intensitetens effekt. I alla undersökningar gjorde en del barn stora framsteg och andra mindre eller inga alls; vi vet ännu ej med säkerhet vad som predicerar gott utfall.

Clinical practice guideline (New York State Department of Health, 1999)

Staten New Yorks Hälsodepartement gav 1999 ut, som de kallar det, evidensbaserade riktlinjer för diagnostik och intervention avseende barn med autism i åldrarna 0-3 år. Riktlinjerna bygger på en systematisk genomgång av befintlig evidens utifrån specifika frågeställningar. Man har gjort grundliga och redovisade sökningar i olika databaser. När det gäller mångsidiga program för små barn med autism fann man 232 artiklar som granskades. Av dem inkluderades endast fem kontrollerade studier (fyra dataserier) (Birnbauer & Leach, 1993; Lovaas, 1987; McEachin *et al.*, 1993; Sheinkopf & Siegel, 1998; Smith *et al.*, 1997). Ingen av dessa studier är randomiserad men till skillnad från granskarna i övriga översikter bedömer man att detta inte på något nämnvärt sätt har påverkat resultatens tillförlitlighet. Utifrån detta drar man tämligen bestämda slutsatser om till exempel hur intensitet och IQ är relaterade till utfall och att större intensitet verkar bättre. Bland annat rekommenderar man med starkaste evidensgradering utifrån detta underlag att alla upplägg för små barn med autism skall använda TBA-strategier (ABA) som ett viktigt element och att varje barn skall ha minst 20 timmar per vecka individualiserad en-till-en-träning som bygger på detta.

Sammantaget domineras *Clinical practice guideline* av rekommendationer på svagaste evidensnivå (expertåsikter) vilket beror på det bristfälliga kunskapsläget inom detta område

samtidigt som rekommendationer med de starkaste graderingarna kan ifrågasättas eftersom man bedömt underlaget på ett mycket mindre strängt sätt än vad som är brukligt.

Behavioural interventions for preschool children with autism (McGahan, 2001)

Den här översikten på meta-meta- (och ibland meta-meta-meta-)nivå av McGahan och medarbetare är en kanadensisk HTA-rapport. Det är en systematisk översikt av översikter och expertåsikter. Den diskuterar och värderar tre kliniska riktlinjer eller rekommendationer av arbetsgrupper och fem översikter av olika slag. Frågeställningen är hur kunskapsläget och expertåsikterna beträffande beteendeträning och utfall för förskolebarn med autism ser ut.

Inga av översikterna uppfyller de högre evidenskraven vilket begränsar möjligheten att dra säkra slutsatser.

Rekommendationerna som granskats är alla från USA: NY State Departments of Health riktlinjer (1999), California Department of education of services for children with disabilities (*Best practices designing and delivering effective programs for individuals with autistic spectrum disorders: recommendations of the collaborative work group on autistic spectrum disorders*, 1997) och Maine administrators of services for children with disabilities (*Maine administrators of services for children with disabilities (MADSEC) Autism task force.*, 2000). McGahan och medarbetare konstaterar att alla tre riktlinjer i olika mån bygger på mindre rigorös översiktsmetodologi och uttrycker expertåsikter. De rekommenderar bland annat att programmen skall bygga på strategier som är förankrade i dagens forskning och att en mängd strategier skall användas konsekvent och systematiskt i olika miljöer av kompetent personal och liknande.

Flera av översikterna som granskas har redan berörts i föregående diskussion: ECRI (ECRI, 2000), Bassett och medarbetare eller BCOHTA (Bassett *et al.*, 2000), Ludwig och Harstall eller AHFMR (Ludwig & Harstall, 2001) och Smith (1999). Den femte översikten är en fransk HTA-rapport från 1994 (Agence Nationale pour le Développement de l'Évaluation Médicale (ANAES), 1994).

Sammantaget konstaterar McGahan och medarbetare att det finns mycket få publicerade kontrollerade primärstudier och att de som finns alla har metodologiska brister vilket begränsar möjligheten att dra säkra slutsatser. Flera av de granskade översikterna kommer fram till samma slutsatser. Nuvarande, begränsade, kunskapsunderlag tyder på att beteendeträning (minst 20 timmar/vecka en-till-en) kan förbättra vissa aspekter av funktionsnivån, särskilt resultat på IQ-test. Vi vet däremot inte hur intensiv träningen behöver vara, vad som predicerar utfallet, vilka barn som kommer att göra störst framsteg, vilka komponenter som är verksamma i träningen, om resultaten skulle bli likadana om barnen var äldre när de började träningen, om resultaten vidmakthålls eller om höjd IQ resulterar i lyckligare människor som fungerar bättre i samhället.

Elterntrainings im Rahmen der Rehabilitation autistischer Kinder: Konzepte und Ergebnisse [Föräldraträning inom ramen för habilitering av barn med autism: begrepp och resultat] (Probst, 2001).

Probsts studie syftar till en kritisk och metaanalytisk genomgång av begrepp som används i litteraturen i samband med interventioner som bygger på träning av barn med autism där föräldramedverkan ingår och resultaten av sådana interventioner. Översikten är alltså inte systematisk. Den inkluderar alla typer av gruppstudier, även där inga barnutfallsdata ingår,

både de kontrollerade och andra; denna översikt blir därmed en av de mer inklusiva med trettio studier (se tabell 2). Man företar inte någon ingående kritisk analys av primärstudierna i denna studie.

Probst delar in materialet i fem olika teoretiska inriktningar: Schopler-Mesibov (TEACCH-programmet), Lovaas, Koegel-Schreibman (incidental teaching), andra TBA(ABA)-influerade program och Howlin-Rutter (Howlin & Rutter, 1987). Han räknar ut ett effektmått med hjälp av data från de nio kontrollerade studierna. Effektmåtten säger egentligen ingenting, enligt honom, eftersom data kommer från så metodologiskt svaga och olikartade studier. Man kan utifrån kunskapsläget inte besvara frågan om vilket program som är effektivast. Inte heller frågorna om intensitetens eller startålderns betydelse går att besvara utifrån befintliga data. Annan neurologisk/utvecklingspsykologisk forskning talar däremot för vikten av att påbörja träning så tidigt som möjligt.

Probst sammantagna slutsats är att alla de undersökta inriktningarna erbjuder empiriskt grundande alternativ samtidigt som det inte går att säga att alla alternativen är likvärdiga.

Educating children with autism (National Research Council, 2001) och *Assessing change in early intervention programs for children with autism* (Kasari, 2002)

Educating children with autism, som samordnats och organiserats av bland annat USA:s utbildnings- och hälsodepartement, är en av flera publikationer där ett antal välrenommerade forskare sammanfattar kunskapsläget, bland annat när det gäller tidig intervention vid autism. Den föregicks och har följts av ett antal forskarkonferenser och temanummer i *Journal of autism and developmental disorders* 2000:30(5) och 2002:32(5), och ännu en artikel i samma tidskrift 2005 (Lord *et al.*, 2005). I dessa publikationer görs en genomgång av kunskapsläget i allmänhet när det gäller interventioner för barn med autism, både när det gäller mångsidiga program och mer fokuserade strategier. När det gäller mångsidiga program diskuteras resultaten mindre i detalj medan metodologiska faktorer i studierna och gemensamma element i de olika programmen behandlas mer ingående. Kapitlet i *Educating children with autism* följs upp i en artikel av Kasari (Kasari, 2002). *Educating children with autism* innehåller också rekommendationer.

Man konstaterar att det saknas välkontrollerade, randomiserade studier som jämför olika program och att det därför finns mycket litet data för att bestämma om något program är bättre än något annat. Man anser att mycket talar för att många barn kan ha stor nytta av de program som idag finns i USA, trots att studierna som utvärderar dem har stora metodologiska brister. Utmaningen ligger snarast på planet att implementera de program som idag finns i mer reguljära sammanhang. *Educating children with autism* ägnar utrymme åt och rekommenderar att varje upplägg bör innehålla ett antal element eller beståndsdelar. Dessa beståndsdelar är gemensamma i de olika programmen och det råder konsensus om att de är viktiga för effektiviteten. Det saknas däremot än så länge stöd i forskningen för att så skulle vara fallet. Dessa faktorer kommer att diskuteras mer ingående på annat ställe.

Assessing change in early intervention programs for children with autism

Kasari (Kasari, 2002) går utifrån ett metodologiskt perspektiv (APA Task force 12) igenom tio studier som utvärderar mångsidiga program för barn med autism. Kasari konstaterar att trots att många av dessa program rapporterar framgångar när det gäller att förbättra prognosen för barn med autism saknas ännu kunskapsunderlag för att göra sådana utfästelser. Inget program uppfyller ännu kriterierna för en 'väletablerad' intervention (se Rogers, 1998 och

ovan). Detta beror på att ingen studie jämför olika program med varandra, att det i stort saknas RCT inom det här området, att studierna innehåller mycket få deltagare och att barnen som ingår är otillräckligt beskrivna. Dessutom är mätprocedurena bristfälliga, t ex används olika instrument vid för- och eftermätningarna. Därför vet vi inte hur intensitet, undervisningsstrategi, innehåll i träningen eller om några och i sådana fall vilka barnkaraktäristika interagerar med utfallet.

Riktlinjer, rekommendationer och handlingsprogram

Det finns mängder av riktlinjer, rekommendationer och liknande inom det här området. Några exempel skall presenteras lite närmare här.

New York State Department of Health. (New York State Department of Health, 1999), etc. Olika delstater i USA har gett ut riktlinjer i det här avseendet, t ex New York State (New York State Department of Health, 1999), California (*Best practices designing and delivering effective programs for individuals with autistic spectrum disorders: recommendations of the collaborative work group on autistic spectrum disorders*, 1997) och Maine (*Maine administrators of services for children with disabilities (MADSEC) Autism task force.*, 2000). De två sistnämnda kan laddas ned från Internet. New York-rapporten har presenterats närmare ovan eftersom den bygger på en redovisad, omfattande översikt. De andra två granskas i McGahan (McGahan). Dessa två redovisar inte evidensläget lika ambitiöst som New York-rapporten. Sammantaget kan sägas att alla dessa tre dokument ger riktlinjen att interventionsstrategier för barn med autism skall byggas på befintlig forskning, bestå av mångsidiga strategier och förhållningssätt som tillämpas i olika miljöer av utbildad personal och liknande. Alla tre dokumenten anser att programmen skall använda sig av TBA-(ABA)principer och flera bedömer TEACCH-programmet vara lovande. Allmänt kan sägas att den här typen av riktlinjer inte alltid tillämpar de striktaste granskningsmetodologier när de graderar sina rekommendationer. De har kritiserats för att dra allt för långtgående och säkra slutsatser utifrån evidensläget (se t ex Bassett *et al.*, 2000; McGahan, 2001). Trots detta innehåller t ex New York-rapporten mestadels rekommendationer på lägsta evidensgraderingsnivå (konsensusnivå).

National autism plan for children (NAPC) (NIASA National Initiative for Autism Screening and Assessment, 2003)

I Storbritannien offentliggjordes under 2003 National autism plan for children (NAPC) utarbetad av National Autistic Society (ungefär Riksföreningen Autism i Storbritannien), Royal College of Psychiatrists, Royal College of Paediatrics and Child Health och en partiöverskridande parlamentarisk grupp av politiker. Den innehåller många rekommendationer som ofta rör sig på en konkret men ändå allmän nivå och som skall ses som ett antal minimikrav för hur stöd för personer med autism bör läggas upp. Man talar och beskriver helhetssituationen för familjer med barn som har autism med allt från informationsbehov till vad som behöver beaktas när det gäller insatser till barnen: särskilt anpassade upplägg där det som är typiskt vid autism och just den här individens behov beaktas och som bygger på vetenskap (som inte har så mycket att säga med säkerhet i det här sammanhanget) och beprövad erfarenhet. TBA(ABA)-principer är viktiga. Man talar också bland annat talar om system för positivt beteendestöd, alltså att man fokuserar på positiva aspekter av både barnets beteende och omgivningen, som viktigt.

Cochranesamarbetets Evidence-Based Medicine Guidelines (EBMG,
<http://www.terveysportti.fi/pls/ebmg/ltk.koti?u=9003921&hakusana=autism>).

Cochranesamarbetet har också riktlinjer knutna till sig (EBM Guidelines). Även här är rekommendationerna tämligen allmänt hållna: varje barn skall ha ett individuellt program, att ändamålsenlig och effektiv rehabilitering kan reducera de autistiska symtomen och liknande. Resultatet från den systematiska Cochrane-översikten som diskuterats tidigare har infogats som rekommendation med stöd på C-nivå: det finns begränsad forskningsbaserad evidens för att föräldraträning kan vara fördelaktigt för såväl barn som föräldrar i behandlingssammanhang vid autism. Övriga rekommendationer är ograderade. Man har inkluderat påståendet att 'holding terapi' skulle kunna vara effektivt för vissa barn med autism (!).

U.S. Department of Health, 1999

I USA har ett flertal dokument med uttalanden från myndigheter och andra publicerats. USAs hälsodepartment (U.S. Department of Health and Human Services, 1999) har genom Surgeon General uttryckt att tidiga och intensiva specialpedagogiska och beteendeprogram kan öka möjligheten hos barn att lära sig prata och tillgodogöra sig viktiga färdigheter. Man nämner Lovaas program (man bedömer studierna som "well-designed"), TEACCH-programmet och andra centerbaserade TBA (ABA)-program.

American Academy of Child and Adolescent Psychiatry

Likaså har American Academy of Child and Adolescent Psychiatry (Volkmar & et al., 1999) gett ut rekommendationer om utredningsförfarande och behandling vid autism. När det gäller psykosociala insatser uttalar man sig också tämligen allmänt men bestämt. Man slår fast att den centrala aspekten när det gäller behandling vid autism är pedagogiska insatser (educational services), vilket innebär specialpedagogik, beteendemodifikation och annan service som logopedi, arbetsterapi och liknande. Bästa tillgängliga evidens antyder att anpassade och intensiva interventioner kan befördra tillägnet av grundläggande sociala, kommunikativa och kognitiva färdigheter. Programmen behöver snarare vara kontinuerliga och långsiktiga än korta och föräldrar skall inkluderas.

Educating children with autism (National Research Council, 2001)

Det mest omfattande amerikanska arbetet kring behandling (treatment) vid autism är sannolikt det som 1999 tog sig uttryck i en konferens med många av de ledande auktoriteterna i USA i just detta ämne, temanummer av *Journal of autism and developmental disorders* (30(5) och 32(5)) och en bok, *Educating children with autism* (National Research Council, 2001). Konferensen syftade till att dra upp riktlinjerna för vilken forskning som behövdes på området och var en fortsättning av den konferens som hållits året innan angående screening och diagnostik (Filipek *et al.*, 2000; Filipek *et al.*, 1999). Det här arbetet organiserades av National Institute of Mental Health (NIMH) samt ett flertal andra federala myndigheter i USA som Office of Special Education och National Institute of Health (NIH). Det första temanumret (*JADD* 30(5)) innehöll artiklar av bland annat Cathrine Lord, Sally Rogers, Lynn Koegel och Mark Wolery om viktiga färdighetsområden som barn med autism särskilt brukar behöva arbeta med. År 2001 följdes till en del dessa artiklar upp i *Educating Children with autism* (National Research Council, 2001) som i sin tur följdes upp av en konferens i september 2002 (<http://www.nimh.nih.gov/events/autismconference.cfm>) och ett temanummer i *Journal of autism and developmental disorders* (32(5)), där flera teman från boken utvecklades. *Educating children with autism* innehöll också tämligen detaljerade rekommendationer avseende tidiga insatser för barn med autism. *Educating children with autism* har diskuterats ovan.

Referenser

- Agence Nationale pour le Développement de l'Évaluation Médicale (ANAES). (1994). *L'Autisme*. Paris: Agence nationale pour le développement de l'évaluation médicale, Service des études.
- Aldred, C., Green, J., & Adams, C. (2004). A new social communication intervention for children with autism: pilot randomised controlled treatment study suggesting effectiveness. *J Child Psychol Psychiatry*, 45(8), 1420-1430.
- Bassett, K., Green, C. J., & Kazanjian, A. (2000). *Autism and Lovaas treatment: a systematic review of effectiveness evidence* (No. BCOHTA 00 1T, 57): British Columbia Office of Health Technology Assessment (BCOHTA).
- Best practices designing and delivering effective programs for individuals with autistic spectrum disorders: recommendations of the collaborative work group on autistic spectrum disorders*. (1997). from <http://www.sna.com/msm/cabp/Best%20Practices2.html>
- Birnbrauer, J. S., & Leach, D. J. (1993). The Murdoch Early Intervention Program after 2 years. *Behaviour Change*, 10(2), 63-74.
- Clarke, M., & Oxman, A. D. (Eds.). (2003). *Cochrane Reviewers' Handbook 4.2.0 [updated March 2003]*. Oxford: Update.
- Dawson, G., & Osterling, J. (1997). Early intervention in autism: Effectiveness and common elements of current approaches. In M. J. Guralnick (Ed.), *The Effectiveness of Early Intervention: Second Generation Research* (pp. 307-326). Baltimore, MD: Paul H. Brookes Publishing.
- Diggle, T., McConachie, H. R., & Randle, V. R. (2004). Parent-mediated early intervention for young children with autism spectrum disorder. *Cochrane Database Syst Rev*(1), CD003496.
- Drew, A., Baird, G., Baron-Cohen, S., Cox, A., Slonims, V., Wheelwright, S., et al. (2002). A pilot randomised control trial of a parent training intervention for pre-school children with autism Preliminary findings and methodological challenges. *Eur Child Adolesc Psychiatry*, 11(6), 266-272.
- ECRI. (2000). *Comprehensive programs for the treatment of children with autism*. Plymouth Meeting (PA): ECRI.
- Filipek, P. A., Accardo, P. J., Ashwal, S., Baranek, G. T., Cook, E. H., Jr., Dawson, G., et al. (2000). Practice parameter: screening and diagnosis of autism: report of the Quality Standards Subcommittee of the American Academy of Neurology and the Child Neurology Society. *Neurology*, 55(4), 468-479.
- Filipek, P. A., Accardo, P. J., Baranek, G. T., Cook, E. H., Jr., Dawson, G., Gordon, B., et al. (1999). The screening and diagnosis of autistic spectrum disorders. *J Autism Dev Disord*, 29(6), 439-484.
- Green, C., Bassett, K., & Kazanjian, A. (2000). *Critical appraisal of submitted cost-benefit models of 'Lovaas' early intensive behavioural intervention for autism* (No. BCOHTA 00:28T). Vancouver: BC Office of Health Technology Assessment.
- Guralnick, M. J. (1997). *The Effectiveness of Early Intervention: Second Generation Research*. Baltimore, MD: Paul H. Brookes Publishing.
- Howlin, P., & Rutter, M. (1987). *Treatment of autistic children*. New York: Willey.
- Hurth, J., Shaw, E., Izeman, S. G., Whaley, K., & Rogers, S. J. (1999). Areas of Agreement about Effective Practices among Programs Serving Young Children with Autism Spectrum Disorders. *Infants and Young Children*, 12(2), 17-26.
- Jocelyn, L. J., Casiro, O. G., Beattie, D., Bow, J., & Kneisz, J. (1998). Treatment of children with autism: a randomized controlled trial to evaluate a caregiver-based intervention program in community day-care centers. *J Dev Behav Pediatr*, 19(5), 326-334.

- Jordan, R., Jones, G., & Murray, D. (1998). *Educational interventions for children with autism: A literature review of recent and current research*. Sudbury: Department of education and employment.
- Kasari, C. (2002). Assessing change in early intervention programs for children with autism. *J Autism Dev Disord*, 32(5), 447-461.
- Lord, C., Wagner, A., Rogers, S., Szatmari, P., Aman, M., Charman, T., et al. (2005). Challenges in Evaluating Psychosocial Interventions for Autistic Spectrum Disorders. *J Autism Dev Disord*.
- Lovaas, O. (1987). Behavioral treatment and normal educational and intellectual functioning in young autistic children. *Journal of Consulting & Clinical Psychology*, 55(1), 3-9.
- Lovaas, O. I., Ackerman, A. B., Alexander, D., Firestone, P., Perkins, J., & Young, D. (1981). *Teaching developmentally disabled children: The me book*. Austin, TX: Pro-Ed.
- Ludwig, S., & Harstall, C. (2001). *Intensive intervention programs for children with autism* (No. 20010936 27072001): Alberta Heritage Foundation for Medical Research (AHFMR).
- Ludwig, S., & Harstall, C. (2004). *Intensive intervention programs for children with autism (Structured abstract)*. 2001. Retrieved 20040325, 2004.
- Maine administrators of services for children with disabilities(MADSEC) Autism task force. (2000).
- Matson, J. L., Benavidez, D. A., Compton, L. S., Paclawskyj, T., & Baglio, C. (1996). Behavioral treatment of autistic persons: a review of research from 1980 to the present. *Res Dev Disabil*, 17(6), 433-465.
- McConachie, H. (2004). Update of Parent-Mediated.... In E. Zander (Ed.).
- McEachin, J. J., Smith, T., & Lovaas, O. I. (1993). Long-term outcome for children with autism who received early intensive behavioral treatment. *Am J Ment Retard*, 97(4), 359-372; discussion 373-391.
- McGahan, L. (2001). *Behavioural interventions for preschool children with autism*. Ottawa: Canadian Coordinating Office for Health Technology Assessment (CCOHTA).
- National Research Council. (2001). *Educating children with autism. Committee on Educational Interventions for Children with Autism. Division on Behavioral and Social Sciences and Education*. Washington, DC: National academy press.
- New York State Department of Health. (1999). *Clinical practice guideline. The Guideline Technical Report. Autism/Pervasive developmental disorder. Assessment and intervention for young children (Age 0-3 years)*. New York: New York State Department of Health.
- NIASA National Initiative for Autism Screening and Assessment. (2003). *National Autism Plan for Children (NAPC) Plan for the identification, assessment, diagnosis and access early interventions for pre-school and primary school aged children with autism spectrum disorders (ASD): The National Autistic Society for NIASA in collaboration with The Royal College of Psychiatrists (RCPsych), The Royal College of Paediatrics and Child Health (RCPCH) and the All Party Parliamentary Group on Autism (APPGA)*.
- Nye, C., & Brice, A. (2004, 2002). *Combined vitamin B6-magnesium treatment in autism spectrum disorder (Cochrane Review)*. In: *The Cochrane Library, Issue 2, 2004*. Retrieved 20040824, 2004, from <http://search.epnet.com/direct.asp?an=CD003497&db=chh&loginpage=login.asp&site=ehost>
- Ozonoff, S., & Cathcart, K. (1998). Effectiveness of a home program intervention for young children with autism. *J Autism Dev Disord*, 28(1), 25-32.

- Probst, P. (2001). Elterntrainings im Rahmen der Rehabilitation autistischer Kinder: Konzepte und Ergebnisse [Parent training in a rehabilitation setting for autistic children: concepts and outcome]. *Zeitschrift für Klinische Psychologie, Psychiatrie und Psychotherapie*, 49(1), 1-32.
- Rogers, S. J. (1998). Empirically supported comprehensive treatments for young children with autism. *J Clin Child Psychol*, 27(2), 168-179.
- Rogers, S. J. (1998b). Neuropsychology of autism in young children and its implications for early intervention. *Mental retardation and developmental disabilities research reviews*, 4(2), 104-112.
- Sallows, G. (2000). Educational interventions for children with autism in the UK. *Early Child Development & Care*, 163, 25-47.
- Sheinkopf, S. J., & Siegel, B. (1998). Home-based behavioral treatment of young children with autism. *J Autism Dev Disord*, 28(1), 15-23.
- Sinha, Y., Silove, N., Wheeler, D., & Williams, K. (2004). Auditory integration training and other sound therapies for autism spectrum disorders. *Cochrane Database Syst Rev*(1), CD003681.
- Smith, T. (1999). Outcome of early intervention for children with autism. *Clinical Psychology-Science & Practice*, 6(1), 33-49.
- Smith, T., Eikeseth, S., Klevstrand, M., & Lovaas, O. I. (1997). Intensive behavioral treatment for preschoolers with severe mental retardation and pervasive developmental disorder. *Am J Ment Retard*, 102(3), 238-249.
- Smith, T., Groen, A. D., & Wynn, J. W. (2000). Randomized trial of intensive early intervention for children with pervasive developmental disorder. *Am J Ment Retard*, 105(4), 269-285.
- Smith, T., Groen, A. D., & Wynn, J. W. (2001). Errata. *Am J Ment Retard*, 106(3), 208.
- U.S. Department of Health and Human Services. (1999). *Mental Health: A report of the Surgeon General*. Rockville, MD: U.S. Department of Health and Human Services, Substance Abuse and Mental Health Services Administration, Center for Mental Health Services, National Institutes of Health, National Institute of Mental Health.
- Volkmar, F., & et al. (1999). Practice Parameters for the Assessment and Treatment of Children, Adolescents, and Adults With Autism and Other Pervasive Developmental Disorders. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry* December, 38(12), 32S-54S.