



Föreningen Sveriges Habiliteringschefer

Rikstäckande nätverk för barn- och ungdomshabiliteringen i Sverige. Grundad 1994

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

2006-2007

Förord

Föreningen Sveriges Habiliteringschefer har som uppgift att verka för en utveckling av habiliteringsverksamheten för barn och ungdomar utifrån de övergripande mål som beskrivs i hälso- och sjukvårdslagen samt lagen om särskilt stöd och service till vissa funktionshindrade. Föreningen ska på olika sätt stimulera forsknings- och utvecklingsarbete. Våra verksamheter riktar sig till en grupp barn och ungdomar i samhället med stora och komplicerade behov.

Föreningen har en ambition att gemensamt utveckla en kvalitetssäker och effektiv verksamhet. Effektivitet kan ses ur en traditionell kostnadsaspekt men också ur barnets/den unges/familjens levnadsaspekt.

Det finns en flora av interventioner. Inom ett flertal områden behöver metoder, arbetssätt och behandlingsresultat för barn och ungdomar med funktionsnedsättningar beskrivas och dokumenteras. För att med största möjliga säkerhet veta vilka som ska utvecklas och vilka som ska avvecklas krävs ett nationellt samarbete. Därför initierades 2001 ett projekt som fick namnet Evidens Baserad Habilitering (EBH). Syftet var att pröva en nationell arbetsmodell bestående av övergripande arbetsgrupper med uppgift att granska olika interventioners evidens. Detta är den tredje arbetsgruppen där arbetsmodellen har använts.

Arbetsgruppens uppgift har varit att:

göra en litteraturoversikt över aktuell forskning och erfarenhetsbaserade resultat avseende effekter av behandlingsmetoder för dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares (CP), utifrån överenskomna kriterier kritiskt granska de utvärderingar och studier som publicerats, på ett lättfattligt sätt göra erhållna resultat tillgängliga i en rapport.

I oktober 2007 var rapporten färdig och från maj 2008 finns den presenterad via den databas som föreningens medlemmar abonnerar. Resultatet av arbetsgruppens arbete är mycket professionellt och arbetsformen har varit framgångsrik och stimulerande.

Föreningen Sveriges Habiliteringschefer ställer sig bakom de rekommendationer som arbetsgruppen lagt fram. Rapporten bidrar till en fördjupad kunskap. Evidensgrunden för de olika interventionerna är dock måttlig - låg och behovet av forskning är mycket stort.

Ett stort tack till Annika Eng-Olofsson, Ulrika Ferm, Ann Nordberg, Alli-Marie Tuominen-Eriksson, Anneli Åkerberg och Lena Hartelius för att ni med lust och energi har gripit er om uppgiften. Genom er granskning tydliggörs också behovet av fortsatta studier för att säkra en habilitering på säker grund.

Göteborg 2008-05-09

Anna Kågeson
Styrgruppen Evidensbaserad habilitering

Föreningen Sveriges Habiliteringschefer

Inledning

Rapporten gäller metoder, arbetssätt och behandlingsresultat när det gäller dysartri (talstörning) hos barn och ungdomar med cerebral pares, CP. Rapporten vänder sig i första hand till kollegor och företrädare för andra yrkeskategorier inom barn- och ungdomshabiliteringen.

En arbetsgrupp bestående av logopederna Annika Eng-Olofsson, Ulrika Ferm, Ann Nordberg, Alli-Marie Tuominen-Eriksson, Anneli Åkerberg samt Lena Hartelius (docent i logopedi och handledare) åtog sig i juni 2006 att genomföra det arbete som redovisas här. Inledningsvis deltog även logoped Ulrika Tajthy. Tillsammans representerar de en bred och långvarig erfarenhet av logopediskt arbete inom barn- och ungdomshabiliteringen i Västra Götaland- och Skåne-regionen.

Sammanlagt har gruppen träffat åtta arbetsdagar med enskild läsning däremellan. Arbetet avslutades i oktober 2007. I efterhand tycker deltagarna att det har varit en lärorik process, men att en del praktiska problem har uppstått. Trots att antalet artiklar slutligen blev ganska få har det varit svårigheter att få tillgång till dessa via länssjukvårdens bibliotek. Läsningen tog mycket tid i anspråk. Arbetsdagarna var utspridda under ett och ett halvt år och retrospektivt tyckte deltagarna att ett par dagars mer intensivt, något skede hade varit bra. En grupp sammansättning med deltagare med både forskningserfarenhet och klinisk erfarenhet visade sig vara utvecklande och kompetenshöjande och rekommenderas för kommande projekt. En uppdatering av kunskapssammanställningen kommer att göras en gång per år.

***”Dysarthrias in children represent
a clear ongoing research need.”***

Joseph Duffy (Weismer, 2007, s.19)

Rekommendationer, kliniskt-praktiska

Arbetsgruppen har utifrån knappt 60 artiklar granskat 13 relevanta artiklar som beskriver behandling av dysartri vid cerebral pares hos barn och ungdomar. Artiklarna representerar flera olika typer av behandlingsmetoder, allmänna behandlingsmetoder med syfte att minska spasticitet liksom mer specifika metoder inriktade på oral stimulering och artikulatorisk träning, men även andnings- och röstträning. Översikten inkluderar inga randomiserade gruppstudier och bevisstyrkan kan sammanfattas som måttlig – låg.

Utifrån granskningen är det i dagsläget omöjligt att föreslå kliniska rekommendationer när det gäller behandling av dysartri hos barn med CP. Det finns idag ett flertal mer eller mindre väldefinierade behandlingsmetoder vars effekt inte är fastställd. Det är emellertid viktigt att slå fast att logopedisk intervention befinner sig i ett läge där man bör skilja på ”no evidence of effect” respektive ”evidence of (no) effect”, dvs forskningsaktiviteten har hittills varit så begränsad att vi inte tveklöst kan slå fast att någon behandling vare sig har effekt eller inte har effekt, vi vet helt enkelt inte ännu. Klinisk utvärdering av logopedisk behandling kommer att kräva resurser och ett systematiskt arbetssätt under relativt lång tid för att vi ska kunna komma närmare evidensbaserade rekommendationer när det gäller kommunikationsförmågan (och inte bara dysartrin) hos barn och ungdomar med cerebral pares.

Bakgrund

Cerebral pares (CP) betyder förlamning genom hjärnskada och är den vanligaste orsaken till rörelsehinder hos barn och ungdomar. Cerebral pares beskriver en grupp bestående störningar i utvecklingen av rörelseförmåga och kroppshållning som leder till aktivitetsbegränsningar. Orsaken är en icke-progredierande störning som skedde under utvecklingen av det ofödda barnets eller spädbarnets hjärna. De motoriska störningarna vid CP åtföljs ofta av störningar i sensorik, perception, kognition, kommunikation och beteende, av epilepsi samt av sekundära problem i muskler och skelett (Rosenbaum m.fl. 2007). Många barn med cerebral pares har också dysartri (neurologiskt orsakad talstörning). Talmuskulaturens rörelser blir långsamma, svaga, oprecisa och/eller okoordinerade, vilket gör att talet blir långsamt, odistinkt och ofta avvikande när det gäller artikulation, nasalitet, röst, taltempo, intonation och betoning (Yorkston, Beukelman, Strand och Bell 1999). När talet är svårt att uppfatta för lyssnaren leder detta till att kommunikationen påverkas.

För att minska de kommunikativa svårigheterna vid dysartri används flera typer av insatser. Dels kan man fokusera på kommunikation på ett mer övergripande sätt och använda metoder som förbättrar individens funktionella kommunikation (till exempel med hjälp av alternativ och kompletterande kommunikation, AKK). Man kan också fokusera på talstörningen i sig och använda behandlingstekniker som syftar till att minska dysartrin.

Vid specifik träning av talet används många gånger en kombination av olika behandlingstekniker (Joffe och Reilly 2004; Palmer och Enderby 2007) såsom till exempel:

- röst- och talträning genom andnings-, fonations- och artikulationsövningar (Caruso och Strand 1999; Love 1992),
- oralmotorisk behandling vilket innefattar rörelseträning av tunga och läppar (Evans- Morris 1987; Müller 1974),
- orofacial regulationsterapi vilket bl.a. innefattar ansiktsmassage och träning med gomplatta (Castillo Morales 1991),
- elektropalatografi vilket innebär visuell återkoppling av artikulationsposition med gomplatta kopplad till en bildskärm (Hardcastle och Gibbon 1997).

Ordet evidens (av latinets *evidentia* ”tydlighet”) betyder ungefär ”skäl eller stöd för en uppfattning”. I termen evidensbaserad medicin (praktik och/eller behandling) är evidens det sammanvägda resultatet av systematiskt insamlade och kvalitetsgranskade vetenskapliga observationer, vilka ska uppfylla bestämda krav på tillförlitlighet så att de sammantaget kan anses utgöra ”bästa tillgängliga bevis” i en viss fråga. Litteraturen kring evidensbaserad behandling ökar ständigt i omfång och aktuella lättillgängliga och logopediskt tillämpliga böcker är Greenhalgh (2006), Nordenström (2006), Reilly m.fl. (2004) och Schlosser (2003). En av de viktigaste källorna när det gäller tydliga och väl genomförda översikter av olika medicinska behandlingsmetoder är Cochrane Library. Cochrane består av flera olika databaser där en av de viktigaste är Cochrane Reviews. Utförligare information om Cochrane ges på www.thecochranelibrary.com. Statens beredning för medicinsk utvärdering (SBU) ansvarar för att granska de metoder som används inom svensk hälso- och sjukvård. SBU:s rapporter återfinns på www.sbu.se.

Av Cochranes flera tusen översikter innehåller totalt fem sökordet ”dysartri”, varav två kan sägas vara intressanta när det gäller behandling av dysartri hos barn. Morgan och Vogels protokoll (2006) beskriver uppläggningsplanering av en planerad granskning av studier som är inriktade på behandling av dysartri hos barn med förvärvad hjärnskada. Law, Garrett och Nye (2006) innehåller en översikt av studier där man mätt effekterna av olika typer av behandling av tal och språk hos barn och ungdomar med tal- och språkstörning. Den intressantaste Cochrane-översikten i förhållande till föreliggande arbete har genomförts av Pennington, Goldbart och Marshall (2005).

Översikten fokuserar på tal- och språkträning för barn med cerebral pares med inriktning på ökad kommunikativ förmåga, vilket alltså även inkluderar alternativ och kompletterande kommunikation, inklusive behandlingsprogram inriktade på träning av samtalspartnern. Av elva granskade studier handlade sju om behandling som inriktats på det enskilda barnet och fyra om behandling av den vuxna samtalspartnern. Författarna konstaterar att man utifrån deras översikt inte kan dra några slutsatser när det gäller evidens för eller emot de olika behandlingsmetoder som används för att förbättra kommunikation hos barn med cerebral pares.

Syfte

Syftet med föreliggande arbete var att samla utvärderingar och studier av effekter av behandlingsmetoder för dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares och utifrån olika evidensgraderingssystem kritiskt granska de utvärderingar och studier som publicerats och därefter göra resultaten tillgängliga i en rapport.

Metod

Arbetsgruppen har samlats för sammanlagt åtta gemensamma arbetsdagar. Vid det inledande mötet definierades uppdraget och begreppet dysartri diskuterades som ett underbegrepp till kommunikativa svårigheter vilket i sin tur innefattar faktorer som t.ex. språkförmåga, kognition, motorisk förmåga och perceptuell förmåga. Gruppen diskuterade befintliga behandlingsmetoder som används i Sverige och beslut fattades om sökord och databaser.

Vid tillfälle två sammanställdes en tabell över genomförda sökningar i de olika databaserna och deltagarna delade upp databaserna mellan sig för att läsa abstract från samtliga relevanta sökträffar. Sökningarna var gjorda i databaserna Pub Med, Pub Med Clinical Queries, Embase, Cinahl, PsychInfo, LLBA och ERIC. Sökorden var *cerebral palsy* i kombination med respective *communication*, *communication disorders*, *speech disorders* samt *dysarthria*. Dessutom genomfördes sökningar på *cerebral palsy* och *communication* i kombination med *treatment* samt *intervention*. Annan sökordkombination var *cerebral palsy*, *dysarthria* och *intervention* respektive *dysarthria* och *intervention*.

Vid den tredje sammankomsten upprättades en lista över de 58 artiklar som deltagarna via abstract eller titel bedömt vara relevanta för granskning. Någon enstaka artikel exkluderades därför att den var på ett annat språk än engelska, svenska eller tyska. De 58 artiklarna kontrollerades med avseende på innehållsrelevans: artikeln skulle röra cerebral pares, behandling, åldrarna 0-20 år samt dysartri. Efter denna kontroll reducerades antalet artiklar till 23. Sökningar hade då även gjorts på nätet via sökmotorn Google på sökorden *orofacial regulation therapy*, *conductive education*, *oral screen* (munskärm), *palatal plate* (gomplatta), *Praxis*, *Nuffield centre dyspraxia program*, *electropalatography* samt *oral motor training/therapy*. Dessa sökningar gav inga nya relevanta fynd för kunskapssammanställningen. Dessutom inventerades läroböcker och antologier inom centrala och näraliggande områden.

Till det fjärde mötet hade varje deltagare kritiskt granskat cirka nio artiklar tillsammans med en annan gruppdeltagare (sammanlagt 23 artiklar). Påtagligt var att många icke-relevanta artiklar hittats trots försök att genom val av sökord göra relevanta avgränsningar. Vid detta fjärde tillfälle reducerades antalet artiklar till 13, eftersom 10 av de 23 trots allt visade sig vara irrelevanta. Slutligt beslut fattades om vilka evidensgraderingssystem som skulle användas (dvs. Golper m.fl. 2001; Nordenström 2006; Pennington m.fl. 2005 och Reilly m.fl. 2004, se tabell 1). De flesta evidensgraderingssystem baseras på huruvida studierna är randomiserade gruppstudier eller ej, vilket ger begränsade möjligheter att beskriva ett forskningsområde som logopedi, som är i relativt tidig utveckling och inkluderar små och heterogena patientgrupper. Som komplement till de mer etablerade evidensgraderingssystemen valdes därför även det som förordas av Academy of Neurologic Communication Disorders and Sciences, ANCDs (Golper, m.fl. 2001).

En arbetsgrupp tillsatt av ANCDS verkar sedan 2001 för att utveckla riktlinjer för behandling av individer med neurologiska kommunikationsstörningar. Dessa "evidence-based practice guidelines" utarbetas på basis av vetenskaplig evidens och värderingen sker utifrån vilken utvecklingsfas (snarare än grad av randomisering) som studieuppläggningsen representerar (se tabell 1).

Tabell 1. Evidensgraderingssystem

<p>Evidensgradering enligt Pennington: A = Allocation could not be predicted. B = Method of allocation not made clear. C = Allocation could be predicted/circumvented. D = No random allocation of subject/process.</p>
<p>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).</p>
<p>Evidensgradering enligt Reilly: Level I = Evidence obtained from a systematic review of all relevant randomized controlled trials. Level II = Evidence obtained from at least one properly designed randomized controlled trial. Level III = 1. Evidence obtained from well-designed controlled trials without randomization. 2. Evidence obtained from well-designed cohort or case control analytic studies, preferably from more than one centre or research group. 3. Evidence obtained from multiple time series, with or without the intervention. Dramatic results in uncontrolled experiments. Level IV = Opinion of respected authorities, based on clinical experience, descriptive studies, or reports of expert committees.</p>
<p>Evidensgradering enligt Golper: 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. B: Case, Single subject, Group.</p>

Vid femte och sjätte sammankomsterna sammanställdes slutligen 13 artiklar med ovan nämnda evidensgrader i en tabell (se tabell 2). Sjunde och åttonde sammankomsten ägnades åt att sammanställa och revidera rapporten.

Resultat

Artiklarna är publicerade under åren 1961-2007 och studierna är gjorda i Europa, Asien och USA. Huvuddelen, nio stycken, är publicerade under 2000-talet. Innehållet i de tretton utvalda artiklarna (se tabell 2) har granskats kritiskt av arbetsgruppen gällande metod (typ av studie och kontroll), deltagare och intervention (hur väl den beskrivs), resultat av behandling (hur resultatet beskrivs och värderas) och evidensgrad.

Metod

Av de tretton artiklarna kan åtta betraktas som gruppstudier och fem som fallstudier (med en eller enstaka deltagare). Endast två av gruppstudierna har någon form av kontrollgrupp.

Deltagare

Antalet deltagare varierar mellan 6 och 50 i gruppstudierna och mellan 1 och 5 i fallstudierna. Som regel anges kön och ålder, ibland grad och typ av motorisk påverkan (t.ex. spastisk diplegi), någon gång IQ och grad av dysartri och förståelighet, men i många fall är deltagarna inte beskrivna i tillräcklig detalj.

Intervention

De interventioner som beskrivs i artiklarna är dels mer medicinskt inriktade behandlingsmetoder som baclofen, rhizotomi och biofeedback med elektromyografi (EMG), samtliga metoder för att minska graden av spasticitet (studie 1, 2 och 12) och dels specifikt logopediska behandlingsmetoder. Till de logopediska behandlingsmetoder som använts i de granskade studierna hör oralmotorisk stimulering och träning samt träning av tal med eller utan gomplatta (studie 4, 7, 8, 11 och 13). I en studie utvärderas effekterna av elektropalatografi EPG (studie 5). Andra logopediska behandlingsmetoder fokuserar på andnings- och röstkontroll samt ökad röststyrka (studie 3, 6, 9). I studie 10 utvärderas en kombinerad behandlingsmetod med fokus både på oral praxis och andnings- och röstträning. När det gäller beskrivning av interventioner gäller i ännu högre grad än när det gäller deltagare att beskrivningen är knapphändig och studierna skulle svårligen kunna replikeras. Undantag här är studie 3 (Lee Silverman Voice Treatment LSVT), studie 5 (EPG) och studie 9, som alla är väl beskrivna metoder.

Resultat av intervention

Som regel rapporteras måttliga till goda resultat av samtliga typer av intervention (se tabell 2 för en mer detaljerad beskrivning). Dock är ibland beskrivningen av interventionens omfattning och innehåll, liksom beskrivningen av vilka parametrar som utvärderats så otillräcklig att resultatet blir svårt att värdera.

Evidensgrad

Tabell 3 sammanfattar antalet granskade artiklar på respektive evidensgraderingsnivå enligt kriterierna i Tabell 1. Sammanfattningsvis kan sägas att ingen studie är av typen RCT, randomiserad kontrollstudie, utan har måttlig-låg evidens – eller i Gollpers termer befinner sig i utveckling från mer deskriptivt, hypotesformulerande arbete mot mer systematiska studier med "single-subject" eller gruppstudiemetodik.

Tabell 3 Antal artiklar fördelade på olika evidensnivåer

Pennington		Nordenström		Reilly		Golper	
A-nivå		A-nivå		I		Fas I	1
B-nivå		B-nivå	4	II		Fas I-II	4
C-nivå	2	C-nivå	7	III	9	Fas II	3
D-nivå	11	D-nivå	2	IV	4	Fas III	5

Starkast evidens, i betydelsen högsta kvalitet, får studie 3 (LSVT) och studie 11 (orofacialt träningsprogram). Studie 3 är en doktorsavhandling, som inte ännu finns publicerad i artikelform i vetenskaplig tidskrift.

Resultatanalys/Diskussion

Sammanfattningsvis kan konstateras, att en kritisk granskning av publicerade behandlingsstudier med inriktning på dysartri (dvs. med syfte att minska den hörbara talstörningen) ger ett mycket begränsat resultat. De tretton studierna beskriver flera olika behandlingsalternativ och utvärderingen av behandlingen lämnar i många fall metodologiskt mycket i övrigt att önska. I arbetet med granskningen och i diskussioner har arbetsgruppen ändå kunnat konstatera och vill framhålla att:

1. Granskningen omfattar endast behandling som syftar till att påverka talet. Detta är normalt sett inte alltid målet med logopedisk intervention, som ofta syftar till ökad funktionell kommunikation och kan vara inriktad på alternativ och kompletterande kommunikation.
2. Värt att notera är att behandlingsmetoder som inte i första hand är logopediska (som i tre fall av åtgärder som syftar till att minska spasticitet) kan ha en gynnsam påverkan på talet.
3. Värt att notera är även att behandlingsmetoder som är inriktade på andnings- och röstfunktionen kan ha en sekundär påverkan på artikulation och tal (vilket stämmer väl överens med resultat inom forskningen när det gäller dysartri hos vuxna).
4. Träningsintensiteten kan tänkas ha en avgörande inverkan på behandlingsresultatet. Studie 3, 9 och 11 omfattar tre olika typer av behandlingar men i samtliga fall sker träningen intensivt och man redovisar tydliga behandlingseffekter. Träningsintensiteten är en variabel som bör utforskas ytterligare när logopedisk behandling utvärderas.

Ytterligare en icke-logopedisk behandlingsmetod, där man ibland använder påverkan på talet som effektmått är konduktiv pedagogik. Det är inte ovanligt att barn med cerebral pares deltar i behandlingsprogram där konduktiv pedagogik tillämpas. I en översiktsartikel (Darrah, Watkins, Chen och Bonin 2003) på uppdrag av AACPD (American Academy for Cerebral Palsy and Developmental Medicine) granskades 15 av 88 artiklar. Precis som i föreliggande arbete fann Darrah m.fl. att beskrivningarna av de behandlingsmetoder som använts var så undermåliga att resultaten från olika studier inte kunde jämföras. Granskningen visar att det inte finns någon vetenskaplig evidens vare sig för eller emot konduktiv pedagogik som behandlingsmetod för barn med cerebral pares.

Arbetsgruppen har granskat analyser liknande den som presenterats i detta arbete, i vilka evidens på något sätt fokuseras. Joffe och Reilly (2004, i Reilly m.fl.) behandlar evidens för bedömning och behandling av talstörningar hos barn. I kapitlet definieras dysartri i förhållande till dyspraxi (CAS – Childhood Apraxia of Speech). Författarna belyser det faktum att det saknas ett tydligt system för att klassificera talstörningar hos barn. Det faktum att man så ofta använder och tar för givet att system avsedda för vuxna fungerar lika bra för barn, har bidragit till att den grund vi nu står på, när det gäller evidens för olika sorters behandlingar av talstörningar hos barn, är mycket bräcklig. Författarna ger en översikt av angreppssätt och behandlingsmetoder som använts i olika studier och lyfter också fram det faktum att trots att logopedier som regel är överens om att familjeinriktad träning är ett mycket viktigt inslag i behandling av talstörningar hos barn, så har effekterna av sådan träning inte utvärderats.

En systematisk översikt av behandling av icke-progredierande dysartrier hos vuxna ges i Palmer och Enderby (2007). Tjugotre studier granskades i detalj och presenteras i förhållande till vilken del av talsystemet som fokuserats med olika behandlingsmetoder. Även studier som fokuserat på effekten av alternativa och kompletterande kommunikationssätt har studerats och översikten, med en omfattande specifikation av olika behandlingsmetoder och med flera hänvisningar till annan litteratur, är heltäckande och användbar.

I Cochraneöversikten av Law, Garrett och Nye (2006) granskades totalt 25 studier och de resultat som presenteras handlar inte främst om dysartri hos barn med cerebral pares men rapporten innehåller annan intressant information när det gäller behandling av tal och språk hos barn. Endast randomiserade studier har granskats och detta är en av få översikter som antyder att det faktiskt finns viss evidens när det gäller behandling av fonologi och expressivt ordförråd hos barn.

Genomgången av de granskade artiklarna, liksom även ytterligare litteratur visar att även om renodlade högkvalitativa behandlingsstudier med inriktning på dysartri hos barn med cerebral pares i princip saknas, så finns det en del läsvärda, allmänna och mer specifika, beskrivningar av olika metoder som används vid behandling av dysartri hos barn. Till dessa hör Solomon och Charron (1998) och Stanger och Oresic (2004).

Forskningsaktiviteten, liksom antalet översiktsartiklar, förefaller ha ökat markant de senaste 5-10 åren, vilket kan förväntas påverka utvecklingen av behandlingsmetoder och dokumentation av evidens framöver. En specifik tidskrift för översiktsartiklar med evidensgranskning inom logopedi publiceras också sedan 2007, Evidence-Based Communication Assessment and Intervention (Taylor & Francis förlag, editor Ralf W Schlosser).

Rekommendationer, kliniskt-praktiska

Arbetsgruppen har utifrån knappt 60 artiklar granskat 13 relevanta artiklar som beskriver behandling av dysartri vid cerebral pares hos barn och ungdomar. Artiklarna representerar flera olika typer av behandlingsmetoder, allmänna behandlingsmetoder med syfte att minska spasticitet liksom mer specifika metoder inriktade på oral stimulering och artikulatorisk träning, men även andnings- och röstträning. Översikten inkluderar inga randomiserade gruppstudier och bevisstyrkan kan sammanfattas som måttlig – låg.

Utifrån granskningen är det i dagsläget omöjligt att föreslå kliniska rekommendationer när det gäller behandling av dysartri hos barn med CP. Det finns idag ett flertal mer eller mindre väldefinierade behandlingsmetoder vars effekt inte är fastställd. Det är emellertid viktigt att slå fast att logopedisk intervention befinner sig i ett läge där man bör skilja på ”no evidence of effect” respektive ”evidence of (no) effect”, dvs forskningsaktiviteten har hittills varit så begränsad att vi inte tveklöst kan slå fast att någon behandling vare sig har effekt eller inte har effekt, vi vet helt enkelt inte ännu. Klinisk utvärdering av logopedisk behandling kommer att kräva resurser och ett systematiskt arbetssätt under relativt lång tid för att vi ska kunna komma närmare evidensbaserade rekommendationer när det gäller kommunikationsförmågan (och inte bara dysartrin) hos barn och ungdomar med cerebral pares.

Referenser

Caruso AJ, Strand EA. Clinical management of motor speech disorders in children. New York: Thieme; 1999.

Castillo Morales R. Die Orofaziale Regulationstherapie. München: Pflaum Verlag; 1991.

Darrah J, Watkins B, Chen L, Bonin C. Effects of conductive education intervention for children with a diagnosis of cerebral palsy: An AACPD evidence report 2003; 1-34.

Duffy JR. History, current practice, and future trends and goals. I: Weismer G, redaktör. Motor speech disorders. San Diego: Plural Publishing; 2007, s. 7-56.

Evans Morris S, Dunn Klein M. Pre-Feeding Skills. Tucson, AZ: Therapy Skill Builders; 1987.

Golper LAC, Wertz RT, Frattali CM, Yorkston K, Myers P, Katz R, Beeson P, Kennedy MRT, Bayles K, Wambaugh J. Evidence-based practice guidelines for the management of communication disorders in neurologically impaired individuals: Project introduction. ANCDs; 2001.

Greenhalgh T. How to read a paper: The basics of evidence-based medicine. Malden, MA: Blackwell Publishing; 2006.

Hardcastle W, Gibbon F. Electropalatography and its clinical applications. I: Ball MJ, Code C, redaktörer. Instrumental clinical phonetics. London: Whurr Publishers; 1997, s. 149-193.

Joffe B, Reilly S. The evidence base for the evaluation and management of motor speech disorders in children. I: Reilly S, Douglas J, Oates J, redaktörer. Evidence based practice in speech pathology. London: Whurr Publishers; 2004, s. 219-257.

Law J, Garrett Z, Nye C. Speech and language therapy interventions for children with primary speech and language delay or disorder (review). The Cochrane Library 2006; 4.

Love RJ. Childhood motor speech disability. New York: Macmillan Publishing Company; 1992.

Morgan A, Vogel A. Intervention for dysarthria associated with acquired brain injury in children and adolescents (protocol). The Cochrane Library 2006; 4.

Müller H. Feeding. Speech. I: Finnie NR, redaktör. Handling the young cerebral palsied child at home. London: William Heinemann Medical Books Ltd; 1974, s. 111-138.

Nordenström J. Evidensbaserad medicin: I Sherlock Holmes fotspår. Stockholm: Karolinska University Press; 2006.

Palmer R, Enderby P. Methods of speech therapy treatment for stable dysarthria: A review. Advances in Speech-Language Pathology 2007; 9(2):140-153.

Pennington L, Goldbart J, Barshall J. Speech and language therapy to improve the communication skills of children with cerebral palsy (review). The Cochrane Library 2005; 4.

Reilly S, Douglas J, Oates J, redaktörer. Evidence based practice in speech pathology. London: Whurr Publishers; 2004.

Rosenbaum P, Paneth N, Leviton A, Goldstein M, Bax M. A report: the definition and classification of cerebral palsy. Developmental Medicine & Child Neurology 1997; 49:1-44.

Schlosser RW. The efficacy of augmentative and alternative communication: Toward evidencebased practice. San Diego, CA: Elsevier Science; 2003.

Solomon N, Charron S. Speech breathing in able-bodied children and children with cerebral palsy: A review of the literature and implications for clinical intervention. *American Journal of Speech-Language Pathology* 1998; 7:61-78.

Stanger M, Oresic S. Rehabilitation approaches for children with cerebral palsy: Overview. *Journal of Child Neurology* 2004; 18(suppl 1):879-889.

Yorkston KM, Beukelman DR, Strand EA, Bell KR. Management of motor speech disorders in children and adults. Austin, TX: Pro-Ed; 1999.

Internetadresser:

Cochrane www.thecochranelibrary.com

Evidence-Based Communication Assessment and Interventions

www.tandf.co.uk/journals/titles/17489539.asp

SBU - Statens beredning för medicinsk utvärdering www.sbu.se

Referenser till granskade artiklar

Bjornson KF, McLaughlin JF, Loeser JD, Nowak-Cooperman KM, Russel M, Bader KA, Desmond SA. Oral motor, communication, and nutritional status of children during intrathecal baclofen therapy: A descriptive pilot study. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation* 2003; 84(4):500-506.

Finley WW, Niman C, Standley J, Ender P. Frontal EMG-biofeedback training of athetoid cerebral palsy: a report of six cases. *Biofeedback Self Regulation* 1976; 1(2):169-182.

Fox CM. Intensive voice treatment for children with spastic cerebral palsy. Avhandling, University of Arizona 2003.

Gerek M, Ciyiltepe M. Dysphagia management of pediatric patients with cerebral palsy. *British Journal of Developmental Disabilities* 2005; 51(1):57-72.

Gibbon FE, Wood SE. Using electropalatography (EPG) to diagnose and treat articulation disorders associated with mild cerebral palsy: a case study. *Clinical Linguistics & Phonetics* 2003; 17(4-5):365-374.

Havstam C, Buchholz M, Hartelius L. Speech recognition and dysarthria: A single subject study of two individuals with profound impairment of speech and motor control. *Logopedics Phoniatics Vocology* 2003; 28(2):81-90.

Iammatteo PA, Trombly C, Luecke L. The effect of mouth closure on drooling and speech. *The American Journal of Occupational Therapy* 1990; 44(8):686-691.

Olsson-Hedlund E. Phoniatic treatment of children with cerebral palsy (from the Eugenia Home, Stockholm). *Cerebral Palsy Bulletin* 1961; 3(3):222-226.

Pennington L, Smallman C, Farrier F. Intensive dysarthria therapy for older children with cerebral palsy: findings from six cases. *Child Language Teaching and Therapy* 2006; 22:255-273.

Puyuelo M, Rondal JA. Speech rehabilitation in 10 Spanish-speaking children with severe cerebral palsy: A 4-year longitudinal study. *Pediatric Rehabilitation* 2005; 8(2):113-116.

Ray J. Functional outcomes of orofacial myofunctional therapy in children with cerebral palsy. *International Journal of Orofacial Myology* 2001; 27:5-17.

White DA, Craft S, Hale S, Schatz J, Park TS. Working memory following improvements in articulation rate in children with cerebral palsy. *Journal of the International Neuropsychological Society* 1995; 1(1):49-55.

Wu PY, Jeng JJ. Efficacy comparison between two articulatory intervention approaches for dysarthric cerebral palsy (CP) children. *Asia Pacific Journal of Speech, Language and Hearing* 2004; 9:28-32.

Tabell 2. Granskning av vetenskaplig evidens i utvalda artiklar

Studie 1	<i>Bjornson 2003</i>
Metod	Deskriptiv pilotstudie med kontrollgrupp Utvärdering med GMFM (Gross Motor Function Measurement) Tal och salivkontroll utvärderades genom intervjuvar från föräldrar och barn.
Deltagare	Experimentgrupp: 30 barn (18 pojkar och 12 flickor), 6-20 år, medelålder 12 år Kontrollgrupp: 12 barn, 8-26 år, medelålder 17 år
Intervention	Baclofen intratekalt (pump) mot spasticitet
Resultat	Tal: 10 barn blev bättre och 2 sämre, salivkontroll: 10 barn blev bättre och 8 sämre
Noteringar	Kontrollgruppen var äldre och hade lindrigare motoriska symtom och utvärderades inte med avseende på tal och salivkontroll. Artikeln utmynnar i riktlinjer för framtida studier.
Evidensgrad	P: D, N: C, R: IV, G: I-II
Studie 2	<i>Finley 1976</i>
Metod	Experimentell gruppstudie utan kontrollgrupp Utvärdering av andning, röst och artikulation före och efter behandling
Deltagare	6 deltagare varav ett barn (pojke 14 år med måttlig cp)
Intervention	Sex veckors med träning av m. frontalis genom visuell och auditiv feedback med elektromyografi (EMG) i syfte att minska muskelspänningen, 2 ggr (upp till 50 minuter varje gång) per vecka
Resultat	Den 14-årige pojken förbättrades i 13 av 18 tal- och röstparametrar.
Noteringar	
Evidensgrad	P: D, N: C, R: III, G: I-II
Studie 3	<i>Fox 2002</i>
Metod	Fallstudie med single-subject design replikerad på 5 deltagare Jämförelser av olika perceptuella och akustiska parametrar vad avser röst och tal
Deltagare	5 barn (3 pojkar, 2 flickor), 5-7 år, med spastisk cp och lätt-måttlig dysartri Kontrollgrupp: matchade barn utan neurologiska avvikelser
Intervention	LSVT (röstträning Lee Silverman Voice Treatment) med fokus på röststyrka 4 tillfällen/vecka i 4 veckor. Utvärdering genom jämförelser mellan baslinjemätning med cirka 4 inspelningar före behandling, 2 efter behandling och 2 inspelning 6 veckor efter avslutad behandling.
Resultat	Akustisk analys: Betydande positiv förändring av en- eller flera tal- och röstparametrar för samtliga barn. Perceptuell bedömning: Klar preferens för inspelningar gjorda efter behandling (professionella lyssnare). Alla föräldrar ansåg att deras barns tal, röst och kommunikation förbättrats på något sätt. Samtliga var nöjda med behandlingen. En del effekter kvarstod för samtliga barn 6 veckor efter avslutad behandling.
Noteringar	Doktorsavhandling, väl beskriven metod
Evidensgrad	P: C, N: B, R: III, G: III

Studie 4	Gerek 2005
Metod	Experimentell gruppstudie utan kontrollgrupp
Deltagare	7 barn (3 pojkar och 4 flickor, 8-17 år), CP av varierad svårighetsgrad och dysfagi Fyra hade förståeligt tal och tre använde någon form av kommunikationshjälpmedel (var icke-talande).
Intervention	Gomplatta (enligt Castillo-Morales, med bakre stimulanspunkt) från sex timmar dagligen första veckan till hela dagen fjärde veckan. Samtidig tal- och språkträning enligt Vojta med oralmotoriska övningar (2 ggr/vecka i 12 veckor)
Resultat	Efter behandling kunde samtliga deltagare sluta läpparna under fler sekunder än före behandling. Flera av barnen kunde ha tungan inne i munnen på uppmaning, producera bilabialer, bättre kontrollera saliv, hade mindre aspiration och kunde inta mat med grövre konsistens. Fler vokaliseringar hos de icke-talande barnen
Noteringar	Flera olika behandlingar pågick samtidigt
Evidensgrad	P: D, N: C, R: III, G: I-II
Studie 5	Gibbon 2003
Metod	Experimentell fallstudie Utvärdering med analys av elektropalatografiska kontaktmönster
Deltagare	Ett barn, pojke 8 år med spastisk hemiplegi
Intervention	Träning med visuell återkoppling med elektropalatoграфи (EPG) av språkljuden k, g och ng Femton träningstillfällen (45 min) under fyra månader, fr.o.m. tillfälle 5 även hemträning
Resultat	Signifikant mer posterior artikulation av velarerna efter träning (COG-värdet förändrades signifikant)
Noteringar	Information om förändring av artikulation och förståelighet i spontant tal finns i en avhandling som författaren refererar till.
Evidensgrad	P: D, N: C, R: III, G: I-II
Studie 6	Havstam 2003
Metod	Fallstudie med single-subject design ABA Utvärdering genom mått på inmatningseffektivitet och talproduktion före (under stabil baseline), kontinuerligt under behandlingen och en månad efter avslutad behandling Självskattning av egen prestation samt grad av tillfredsställelse i situationen
Deltagare	Två deltagare, en 12-årig pojke och en 22-årig man, båda med spastisk cp och grav dysartri
Intervention	Användning av röststyrning (Dragon Dictate) som styrsätt till dator
Resultat	Endast 22-åringen fullföljde sitt deltagande. För honom ökade antal korrekta inmatningar med 40 %, ingen effekt på talet (bedömt av en logoped).
Noteringar	
Evidensgrad	P: D, N: B, R: III, G: III

Studie 7	<i>Iammatteo 1990</i>
Metod	Fallstudie med single-subject ABA design Utvärdering av förmågan att stänga munnen (effektmått dregling/mängd saliv samt produktion av bilabiala ljud) Baseline vid 5 respektive 10 tillfällen före behandling och vid 7 tillfällen efter behandling
Deltagare	2 pojkar, 2:07 och 2:11 år med spastisk cp och utvecklingsförsening
Intervention	Oralmotorisk stimulering runt läpparna och i munnen vid 12 tillfällen före och under matning
Resultat	Deltagare 1: Minskad dregling men ingen effekt på antal bilabialer Deltagare 2: Tendens till ökat antal vokaliseringar, minskad dregling och ökad oralmotorisk kontroll
Noteringar	
Evidensgrad	P: D, N: C, R: III, G: III
Studie 8	<i>Olsson-Hedlund 1961</i>
Metod	Deskriptiv studie
Deltagare	50 barn (31 pojkar och 19 flickor), 3-18 år
Intervention	Stämgaflar och spatlar användes både för sensorisk och motorisk stimulans, t ex att hitta artikulationsställe och rörelsemönster. Visuellt stöd med bilder och speglar Träning i varierande grad under två läsår
Resultat	Ett flertal förbättrades i viss mån, särskilt beträffande nasalitet, artikulation, röst och språk
Noteringar	Oklar beskrivning av omfattning av träning och vilka parametrar som utvärderats
Evidensgrad	P: D, N: D, R: IV, G: I
Studie 9	<i>Pennington 2006</i>
Metod	Experimentell gruppstudie utan kontrollgrupp Inspelningar gjorda vid baseline (3 tillfällen), efter avslutad terapi (3 tillfällen) och efter 7 veckor (3 tillfällen) Utvärdering av förståelighet på ordnivå och i sammanhängande tal genomförd av 36 ovana lyssnare. Barnen intervjuades om terapin.
Deltagare	6 barn/ungdomar (2 pojkar och 4 flickor) med lätt-grav dysartri, 10-18 år
Intervention	Träning av andningskontroll (reglera intensitet, markera betoning) samt nedsaktat taltempo i ord, meningar och löpande tal Tydliga instruktioner vad gäller sittställning och andningens funktion i talproduktionen. Vissa fick också artikulationsträning. Individuell träning 5 gånger/vecka i 5 veckor, varje session 20-30 min, eleverna fick vardera 15-22 träningstillfällen
Resultat	Tendens till ökad förståelighet för flera av deltagarna på ordnivå och i sammanhängande tal, förändringen var inte statistiskt signifikant. Deltagarna var genomgående positiva.
Noteringar	Bra och detaljerad beskrivning av deltagare och träningsprogram
Evidensgrad	P: D, N: C, R: III, G: II

Studie 10	Puyuelo 2005
Metod	Longitudinell behandlingsstudie över 4 år Utvärdering med hjälp av dysartritest, dvs. oralmotorik, andning, röst, artikulation, förståelighet och prosodi före och efter varje behandlingsperiod dvs. före och efter år 2 och efter år 4. Efter behandlingsperiod 2 även utvärdering med spektrografisk analys av talet.
Deltagare	10 barn (3 flickor och 7 pojkar), medelålder 3:2 då studien började, ingen kontrollgrupp
Intervention	Behandling år 1-2 med oral praxis, övningar inriktade på ökad sensibilitet och rörlighet av artikulatorisk muskulatur, förbättrad tuggförmåga och andningskontroll. Behandling år 3-4 med fonation och röstträning, särskilt koordination in- och utandning, postural kontroll och prosodi. Behandlingen genomfördes 2 ggr per vecka 30 min i 11 månader per år. Därtill behandling med Bobath-metoden samt kommunikationsträning och information om språk och tal till föräldrar och lärare.
Resultat	Signifikant skillnad före och efter behandlingsperiod 1 när det gäller röst (trots att behandlingen inte fokuserat på detta). Vid bedömning efter period 2 (efter 4 år) sågs signifikanta skillnader i förhållande till basnivån men också i förhållande till mätningen efter behandling 1 för alla dysartrisymtom utom oral praxis.
Noteringar	För oklara orsakssamband för att man ska kunna säga något om behandlingseffekten
Evidensgrad	P: D, N: D, R: IV, G: III
Studie 11	Ray 2001
Metod	Experimentell gruppstudie utan kontrollgrupp Två logopeders jämförde inspelningar av ord före och efter behandling Logopederna samt arbetsterapeut, föräldrar och tandläkare bedömde oralmotorisk förmåga före och efter behandling.
Deltagare	16 barn (9 pojkar och 7 flickor), medelålder 8,6 år, normal IQ
Intervention	Orofacial myofunktionellt träningsprogram, 5 dagar per vecka under 4 månader, vid varje tillfälle 15 min individuell träning och 10 min i grupp, hemträningsovningar 12 uppgifter à max 2 minuter 4-5 gånger dagligen
Resultat	15 deltagare uppvisade statistiskt signifikant förbättring i läpparnas och tungans rörelsemönster, på gruppnivå även en förbättring av talförståelighet i ord på engelska, diadochokinetisk förmåga oförändrad
Noteringar	Resultaten utvärderades på engelska och inte på barnens modersmål.
Evidensgrad	P: C, N: B, R: III, G: II
Studie 12	White 1995
Metod	Experimentell gruppstudie med kontrollgrupp Utvärdering med bedömning av artikulationshastighet (antal ord per sekund) samt arbetsminne Utvärdering vid baseline dagen före behandling och 6-11 månader efter behandling
Deltagare	Experimentgrupp: 11 barn, 5-11 år, med spastisk diplegi och IQ över 80 Kontrollgrupp: 25 barn, 4-11 år
Intervention	Selektiv dorsal rhizotomi (för att minska spasticitet)
Resultat	Inga signifikanta skillnader i arbetsminne före och efter behandling i någon av grupperna, artikulationshastigheten ökade signifikant i experimentgruppen efter behandling, ingen ökad hastighet i kontrollgruppen
Noteringar	Selektiv dorsal rhizotomi kan påverka talförmågan.
Evidensgrad	P: D, N: B, R: III, G: III

Studie 13	Wu 2004
Metod	Fallstudie, jämförelse av två behandlingsmetoder Utvärdering av procentuell andel korrekt uttalade ljud (de fyra ljud som tränades) i stavelseupprepningar, före och efter behandling och uppföljning efter 2 månader
Deltagare	2 barn (pojke 11 år, flicka 12 år)
Intervention	Träning av fyra fonem (språkljud), två sessioner/vecka à 30 min, totalt 8 träningstillfällen per fonem. Interventionen varade totalt 4 månader (en månad per språkljud). De två deltagarna behandlades enligt var sin träningsmetod: (1) Fonologisk träning med minimala par (2) Artikulatorisk träning
Resultat	Båda deltagarna gjorde framsteg, barnet som fått motorisk träning hade gjort större framsteg direkt efter avslutad träning. Efter 2 månader hade bådas prestationer gått tillbaka men barnet som fått fonologisk träning lyckades bättre och kunde generalisera till andra ord och andra situationer.
Noteringar	Otillräcklig beskrivning av deltagarna
Evidensgrad	P: D, N: C, R: IV, G: II