



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 2009**

Ulrika Ferm
Ann Nordberg
Alli-Marie Tuominen-Erikson
Anneli Åkerberg

2009

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).

Arbetet har genomförts av logopedier verksamma inom Västra Götalandsregionen: Ann Nordberg och Anneli Åkerberg (Handikappförvaltningen, Habiliteringen Göteborg och Södra Bohuslän), Alli-Marie Tuominen-Erikson (Handikappförvaltningen, Habiliteringen FyrBoDal) och Ulrika Ferm (Drottning Silvias barn- och ungdomssjukhus, Regionhabiliteringen, DART). Ulrika Ferm har varit sammankallande och huvudansvarig för arbetet.

Arbetsgruppen har träffats vid fyra tillfällen mellan oktober 2008 och augusti 2009. Vid första tillfället deltog även docent Lena Hartelius som tidigare fungerat som handledare för gruppen. Rapporten sammanställdes i september 2009.

Syfte

Syftet med uppdateringen var att samla studier av effekter av olika behandlingsmetoder för dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares, publicerade 2006-2009, och att utifrån olika evidensgraderingssystem kritiskt granska dessa.

Precis som i tidigare arbete har syftet varit att samla och granska studier där avsikten varit att påverka barnets/ungdomens tal. Detta är inte alltid målet med logopedisk intervention. Logopedisk intervention för barn och ungdomar med dysartri och cerebral pares innehåller ofta olika former av kommunikationsstödjande åtgärder, alternativ och kompletterande kommunikation (AKK).

Det är viktigt att komma ihåg att föreliggande arbete inte innefattar studier där man analyserat effekter av alternativ och kompletterande kommunikation.

Metod

Arbetets upplägg

Arbetsgruppen har träffats vid fyra tillfällen mellan oktober 2008 och augusti 2009.

Vid första tillfället diskuterades den ursprungliga rapporten och upplägg för uppdatering.

Vid andra tillfället beslutades, med utgångspunkt från tidigare arbete, om arbetsgång i sökprocess och granskning; sökord, databaser och evidensgraderingssystem (se nedan). Gemensam sökning i databaser påbörjades.

Vid tredje tillfället avslutades sökningsarbetet. Sökningarna vid tillfälle två och tre resulterade i totalt 201 träffar. Genom att manuellt gå igenom titlar, sammanfattningar och information om försökspersoner i de enskilda artiklarna kunde arbetsgruppen gemensamt besluta om vad som skulle inkluderas i det fortsatta arbetet. Åtta artiklar valdes ut för läsning. Syftet med

läsningen var att ta reda på vilka av de åtta artiklarna som innehöll studier om behandling av dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares och att evidensgradera dessa. De åtta artiklarna fördelades mellan arbetsgruppens fyra deltagare så att varje artikel lästes av två personer. Mellan tredje och fjärde tillfället läste, granskade och evidensgraderade arbetsgruppens deltagare artiklarna på egen hand.

Vid fjärde tillfället diskuterades innehållet i varje enskild artikel och de evidensgraderingar som gjorts. Det visade sig att endast en av de åtta artiklarna innehöll en studie om behandling av dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares. De övriga sju artiklarna handlade om vuxna (1), bestod av abstrakt enbart (2), var översiktsartiklar (2), handlade om andra diagnoser än cerebral pares (1) och om teorier som ligger till grund för behandling av talstörningar (1). De två individuella evidensgraderingar som gjorts av behandlingsstudien diskuterades och gruppen beslutade gemensamt om slutgiltig gradering. Rapportens upplägg diskuterades. Rapporten skrevs efter fjärde tillfället och var klar i september 2009.

Databaser

Sökningar gjordes i följande databaser: Cochrane Reviews, Cochrane Clinical Trials, Pub Med, Pub Med Clinical Queries, Cinahl, PsycINFO, LLBA, ERIC och Trip. Även rapporter från SBU (statens beredning för medicinsk utvärdering) kontrollerades. I tidigare arbete gjordes även sökning i Embase. Embase överlappar till stor del med Pub Med och finns inte längre att tillgå via arbetsgruppens bibliotek. Embase uteslöts därför i denna uppdatering. Trip (turning research into practice) är en relativt ny databas som inte ingick i tidigare arbete men som arbetsgruppen nu valde att inkludera.

Sökord

Sökarbetet baserades på evidensgruppens samlade erfarenheter från tidigare arbete. Följande sökord och kombinationer av sökord användes: I Cochrane enbart *dysarthria* och i övriga databaser *cerebral palsy and dysarthria* 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. Dessa studier sällades bort manuellt ur de 201 artiklar som hittades i samband med sökning.

Tidsbegränsning

Sökningen tidsbegränsades från och med 2006 (då sökningarna till den ursprungliga rapporten genomfördes) till och med 2009-03-17 (arbetsgruppens första söktillfälle) och 2009-04-21 (arbetsgruppens andra söktillfälle).

Språk

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

Evidensgradering

I den ursprungliga rapporten användes fyra olika evidensgraderingssystem baserade på arbeten av Golper m.fl. (2001), Nordenström (2006), Pennington, Goldbart och Marshall (2005), och Reilly, Douglas och Oates (2004). Arbetsgruppens erfarenhet från tidigare evidensgradering är att Nordenström och Golper m.fl. var de system som gav mest i

förhållande till föreliggande arbetes syfte och de studier vi fann. Därför beslutade gruppen att i uppdateringen endast utgå från 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 201 träffar. Åtta artiklar valdes ut för läsning. En av dessa åtta artiklar innehöll en behandlingsstudie. Denna har evidensgraderats. Studien presenteras under resultat och i tabell 1 och diskuteras under resultatanalys och diskussion.

Under arbetets gång har gruppen funnit andra artiklar (även sådana som publicerats före 2006) som är viktiga att känna till när det gäller behandling av dysartri hos barn, ungdomar och vuxna. Dessa presenteras under resultatanalys och diskussion.

Resultat

En studie (Marchant, McAuliffe och Huckabee, 2008) har granskats vad gäller metod (typ av studie och kontroll), beskrivning av deltagare, beskrivning av intervention och beskrivning och värdering av resultat. Därefter har studien evidensgraderats (tabell 1).

Marchant, McAuliffe och Huckabee (2008) är en fallstudie med single-subject design (ABACA). I studien deltar en 13-årig flicka med spastisk cerebral pares och grav spastisk dysartri. Flickans bakgrund, problematik och egna önskemål beskrivs på ett detaljerat sätt. Två interventioner (a) uttalsträning av konsonanter (PPT phonetic placement therapy) med auditiv och visuell återkoppling och (b) biofeedback via sEMG (elektromyografi) på orofacial muskulatur i tonussänkande syfte har jämförts. Bägge interventionerna gavs intensivt; 5 ggr/vecka i 2 veckor. Perceptuell (av oberoende bedömare) och akustisk analys liksom fysiologiska mätningar (sEMG) genomfördes. Flickans upplevelser utvärderades. Intervention och bedömning beskrivs i detalj. Intensiv uttalsträning hade effekt på förståeligheten av flickans tal på ordnivå. Effekten kvarstod och tendenser till ytterligare förbättring noterades efter intensiv behandling med sEMG. Författarna värderar och diskuterar resultaten på ett relevant sätt.

Evidensgrad

Evidensgradering av Marchant, McAuliffe och Huckabee (2008) enligt Nordenström: B och enligt Golper m.fl.: III. Sammantaget gäller att studien bedöms ha måttlig – hög evidens.

Resultatanalys och diskussion

Denna uppdatering av evidens kring behandling av dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares resulterade i evidensgradering av en studie. Studien av Marchant, McAuliffe och Huckabee (2008) med single-subject design, en deltagare och jämförelse av två interventioner är en väl genomförd behandlingsstudie. Ur logopedisk synvinkel är studiens resultat upplyftande: Intensiv, individuellt utformad och väl strukturerad uttalsträning med auditiv och visuell feedback kan ha effekt när det gäller förståelighet av enskilda ord hos motiverade barn och ungdomar med cerebral pares och grav spastisk dysartri. Denna intervention bör prövas på yngre barn och på barn med lätt – måttlig dysartri för att testa effekter på sammanhängande tal. Studien visar också att för föreliggande målgrupp bör logopeder vara öppna för alternativa behandlingsmetoder (t.ex. biofeedback med sEMG) och kombinationer av metoder (t.ex. uttalsträning i kombination med biofeedback via sEMG). Återigen (se tidigare rapport) påminns vi om att intensitet är en viktig faktor när det gäller behandling av tal hos barn och ungdomar. I studien av Marchant, McAuliffe och Huckabee genomfördes sammanlagt 20 behandlingstillfällen, för en flicka, under en period av 4 veckor.

Evidenssökningen påminner oss om att det bedrivs en hel del logopedisk forskning när det gäller dysartri hos vuxna; forskning om behandling av dysartri hos barn och ungdomar är fortfarande ett mycket eftersatt område (se även Yorkston, Hakel, Beukelman och Fager, 2007). Av denna anledning är evidensen för talinriktad logopedisk behandling av dysartri hos barn och ungdomar oklar. Enklare uttryckt: 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! Det finns också exempel på enstaka studier med måttlig till hög evidens för att behandling av tal hos barn och ungdomar med dysartri och cerebral pares har positiv effekt.

Mer forskning när det gäller dysartri hos barn och ungdomar är på väg. Genom personlig kontakt med Lindsay Pennington vet vi att Pennington, Goldbart och Marshall (2003) kommer att uppdateras och att det snart kommer en ny översiktsartikel i Cochrane med följande titel *Speech therapy for children with dysarthria acquired before three years of age* (Pennington, Miller och Robson, 2008). En gruppstudie om intensiv behandling av dysartri hos äldre barn med cerebral pares (Pennington, Robson, Miller och Steen, 2006) publiceras inom kort i *Developmental Medicine and Child Neurology* och en studie om effekterna av visuell feedback (EPG, elektropalatografi) i behandling av dysartri hos barn med cerebral pares är under bearbetning (Nordberg, 2006).

Såväl klinisk erfarenhet som forskning har visat att alternativ och kompletterande kommunikation har positiv effekt på kommunikativ förmåga och faktisk produktion och förståelighet av tal hos personer med dysartri. Även här ser vi att forskning som involverar vuxna är vanligare än forskning som involverar barn och ungdomar. Effekterna av AKK och AKK i kombination med andra metoder när det gäller tal hos barn och ungdomar med dysartri och cerebral pares bör utforskas vidare (se t.ex. Hustad, Morehouse och Gutmann, 2002; Hustad och Lee, 2008; Palmer, Enderby och Hawley, 2007).

Behandling och bedömning och samband mellan olika funktionsnedsättningar hos barn och ungdomar med dysartri och cerebral pares behandlas också av Kennes m.fl. (2002), Pachalska m.fl. (2001), Pennington (1999), Pennington, Goldbart och Marshall (2004) och Pirila m.fl. (2007).

En ständigt aktuell och viktig fråga inom logopedin 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. Den som vill fördjupa sig i teori och empiri kring behandling av talstörningar hänvisas till Weismer (2006).

Slutligen rekommenderas följande översiktsartikel av Yorkston, Hakel, Beukelman och Fager (2007): *Evidence for Effectiveness of Treatment of Loudness, Rate, or Prosody in Dysarthria: A Systematic Review*. Artikeln är en utmärkt sammanställning av kunskapsläget när det gäller behandling av dysartri och innehåller även barnrelaterade studier som inte kommit med i vår granskning (t.ex. Thomas-Stonell, Leeper och Young, 2001).

Rekommendationer

Arbetsgruppen har utifrån 201 träffar och åtta artiklar publicerade mellan 2006 och 2009 evidensgraderat en studie som jämför två olika metoder för behandling av grav spastisk dysartri hos en 13-årig flicka med spastisk cerebral pares. Studien är av typen single-subject design och håller måttlig till hög kvalitet på alla bedömda områden. De metoder som prövats är specifik uttalsträning och biofeedback med sEMG.

Utvärdering av behandling inriktad på tal hos barn och ungdomar med cerebral pares är fortfarande ett tämligen utforskat område. Mer omfattande gruppstudier saknas fortfarande men som nämnts i denna rapport är mer forskning på väg.

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. Andra metoder som till exempel biofeedback med sEMG och AKK bör också prövas.

Slutligen, logopedisk intervention som avser att påverka talet hos barn och ungdomar med cerebral pares bör genomföras intensivt och måste på ett mer systematiskt sätt än hittills utvärderas och dokumenteras. Först när så sker kan vi fastställa effekterna och evidensen av det vi gör.

Referenser

- Eng-Olofsson A, Ferm U, Hartelius L, Nordberg A, Tuominen-Eriksson A-M, Åkerberg A. Intervention vid dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares – en evidensbaserad kunskapssammanställning. Föreningen Sveriges habiliteringschefer <http://www.habiliteringschefer.se/>; 2007.
- 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.
- Hustad KC, Lee J. Changes in speech production associated with alphabet supplementation. *Journal of Speech Language, and Hearing Research* 2008; 51:1438-1450.
- Hustad KC, Morehouse TB, Gutmann M. AAC strategies for enhancing the usefulness of natural speech in children with severe intelligibility challenges. I: Reichle J, Beukelman DR, Light JC, redaktörer. *Exemplary Practices for Beginning Communicators Implications for AAC*. Baltimore: Paul H. Brookes; 2002, s. 433-452.
- Kennes J, Rosenbaum P, Hanna SE, Walter S, Russell D, Raina P, Bartlett D, Galuppi B. Health status of school-aged children with cerebral palsy: information from a population-based sample. *Developmental Medicine & Child Neurology* 2002; 44:240-247.
- Lass NJ, Pannbacker M. The application of evidence-based practice to nonspeech oral motor treatments. *Language, Speech, and Hearing Services in Schools* 2008; 39(3):408-421.
- Nordberg A. Visual feedback in treatment of dysarthria in children with cerebral palsy (preview). *Developmental Medicine & Child Neurology* 2006; 48: (suppl 107): 39.
- Nordenström J. Evidensbaserad medicin: I Sherlock Holmes fotspår. Stockholm: Karolinska University Press; 2006.
- Pachalska M, Frańczuk B, Macqueen BD, Jastrzebowska G, Perzanowski Z, Neldon K. The impact of art therapy on the intelligibility of speech in children with cerebral palsy. *Ortopedia traumatologia Rehabilitacja* 2001; 30;3(4):508-518.
- Palmer R, Enderby P, Hawley M. Addressing the needs of speakers with longstanding dysarthria: Computerized and traditional therapy compared. *International Journal of Language & Communication Disorders* 2007; 42(1):61-79.
- Pennington L. Assessing the communication skills of children with cerebral palsy: does speech intelligibility make a difference? *Child Language Teaching and Therapy* 1999; 15:159-169.
- Pennington L, Goldbart J, Marshall J. Interaction training for conversational partners of children with cerebral palsy: a systematic review. *International Journal of Language & Communication Disorders* 2004; 39(2):151-170.
- Pennington L, Goldbart J, Marshall J. Speech and language therapy to improve the communication skills of children with cerebral palsy. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 2003; 3.
- Pennington L, Miller N, Robson S. Speech therapy for children with dysarthria acquired before three years of age. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 2008; 1.
- Pennington L, Robson S, Miller N, Steen IN. Intensive speech therapy for older children with dysarthria: a pilot study (preview). *Developmental Medicine & Child Neurology* 2006; 48: (suppl 107): 42.
- Pirila S, van der Meere J, Pentikainen T, Ruusu-Niemi P, Korpela R, Kilpinen J, Nieminen P. Language and motor speech skills in children with cerebral palsy. *Journal of Communication Disorders* 2007; 40: 116-128.
- Reilly S, Douglas J, Oates J, redaktörer. *Evidence based practice in speech pathology*. London: Whurr; 2004.

- Thomas-Stonell N, Leeper HA, Young P. Evaluation of computer-based program for training speech with children and adolescents with dysarthria. *Journal of Medical Speech-Language Pathology* 2001; 9(1):17-30.
- Yorkston KM, Hakel M, Beukelman DR, Fager S. Evidence for effectiveness of treatment of loudness, rate or prosody in dysarthria: A systematic review. *Journal of Medical Speech-Language Pathology* 2007; 15(2):xi-xxxvi.
- Weismer G. Philosophy of research in motor speech disorders. *Clinical Linguistics & Phonetics* 2006; 20(5):315-349.

Referens till granskad artikel

- Marchant J, McAuliffe MJ, Huckabee M-L. Treatment of articulatory impairment in a child with spastic dysarthria associated with cerebral palsy. *Developmental Neurorehabilitation* 2008; 11(1):81-90.

Tabell 1. Gradering av vetenskaplig evidens i utvald artikel

Studie	<i>Marchant, McAuliffe, Huckabee, 2008</i>
Metod	Fallstudie med single-subject design (ABACA).
Deltagare	Flicka 13 år, spastisk cerebral pares, hemiplegi, grav spastisk dysartri.
Intervention	1) Intensiv uttalsträning (PPT phonetic placement therapy) av 5 konsonanter, auditiv och visuell återkoppling (5 ggr/vecka i 2 veckor). 2) Biofeedback - sEMG på orofacial muskulatur i tonussänkande syfte (5 ggr/vecka i 2 veckor).
Resultat	Förbättrad förståelighet på ordnivå av PPT och effekten kvarstår med tendens till ytterligare förbättring efter sEMG. Ej förbättrad förståelighet på sammanhängande tal. Flickan upplever ingen förändring.
Noteringar	Väl genomförd studie och utförlig beskrivning av deltagare.
Evidensgrad	N: B, G: III