Föreningen Sveriges Habiliteringschefer

Rikstäckande nätverk för habiliteringen i Sverige. Grundad 1994

Tal och oral sensomotorisk intervention

Behandling vid talavvikelser, sväljsvårigheter, salivläckage och orala ovanor

Madeleine Brodén, Margareta Gonzalez Lindh, Corinna Krüssenberg, Irvina Ristic, Agneta Rubensson, Anita McAllister & Lotta Sjögreen (vetenskapliga handledare)

2017

Förord

Föreningen Sveriges Habiliteringschefer har som uppgift att verka för en utveckling av habiliteringsverksamheten för barn, ungdomar och vuxna utifrån de övergripande mål som beskrivs i hälso- och sjukvårdslagen samt lagen om särskilt stöd och service till vissa funktionshindrade. Föreningen har ambitionen att gemensamt utveckla en kunskapsbaserad och ändamålsenlig verksamhet som är kostnadseffektiv och till nytta för de som behöver habilitering. I en god kvalitet innefattas även att habiliteringen ska vara brukarfokuserad och ta tillvara personernas och de anhörigas egna erfarenheter och resurser.

Inom ett flertal områden behöver metoder, arbetssätt och behandlingsresultat för personer med funktionsnedsättningar beskrivas och dokumenteras. För att öka kunskapen om vilka åtgärder som ska utvecklas och vilka som ska avvecklas krävs ett nationellt samarbete. Därför initierade föreningen 2001 ett projekt som fick namnet Evidens Baserad Habilitering (EBH). Syftet var att pröva en nationell arbetsmodell bestående av arbetsgrupper med uppgift att systematiskt granska och värdera olika interventioners evidens. Arbetssättet har visat sig vara framgångsrikt när det gäller att sammanställa tillgänglig forskning och har även inneburit rekommendationer inom flera områden. Det område som granskats i denna rapport gäller tal och oralsensomotoriska interventioner.
Arbetsgruppens uppgift har varit att:

- Granska den vetenskapliga evidens som finns för effekter av olika interventioner avseende tal och oralsensomotoriska avvikelser riktade till barn, unga och vuxna med avgränsning till habiliteringens huvudgrupper.
- På ett lättfattligt sätt göra erhållna resultat tillgängliga i en rapport

I maj 2017 var rapporten färdig och från juni 2017 finns den presenterad via databasen www.habiliteringschefer.se

Föreningen Sveriges Habiliteringschefer ställer sig bakom de rekommendationer som arbetsgruppen lagt fram. Rapporten bidrar till en fördjupad kunskap som kommer att bidra till mer kvalitetssäkrade insatser. Evidensgrunden för de olika interventionerna visar dock på ett fortsatt stort behov av forskning. Deltagarna i merparten av de identifierade studierna var barn. Det råder mycket stor brist på studier av intervention för vuxna. I rapporten saknas till stor del därför rekommendationer relaterat till vuxna med olika orofaciala funktionsnedsättningar.

Under vetenskaplig handledning av Anita McAllister och Lotta Sjögreen har arbetsgruppen bestående av Madeleine Brodén, Margareta Gonzalez Lindh, Corinna Krüssenberg, Irvina Ristic och Agneta Rubensson gripit sig an uppgiften med stor nyfikenhet, lust och energi.
Ett stort och varmt tack till er alla!

Malmö 2017-05-07

Margareta Nilsson
Styrgruppen Evidensbaserad Habilitering
Föreningen Sveriges Habiliteringschefer

Innehåll

Inledning 5
Arbetsgruppens sammansättning 5
Metoder 5
Ordlista 7
Sammanfattning 8
Rekommendationer 8
Tal 8
Rekommendationer för barn, ungdomar och vuxna med taldyspraxi 8
Rekommendation för barn och ungdomar med dysartri på grund av central skada inklusive cerebral pares 8
Rekommendationer för barn och ungdomar med dysartri och Downs syndrom 9
Rekommendationer för barn och ungdomar med dysartri och neuromuskulär sjukdom 9
Rekommendationer för vuxna med talavvikelser 9
Sväljning 9
Rekommendationer för barn, ungdomar och vuxna med sväljsvårigheter orsakade av medfödda funktionsnedsättningar – studier med utfallsmått som är direkt relaterade till sväljning 9
Rekommendationer för barn, ungdomar och vuxna med sväljsvårigheter orsakade av medfödda funktionsnedsättningar – studier med del av funktion (se figur 4) som utfallsmått 10
Salivläckage och orala vanor 10
Rekommendationer för barn, ungdomar och vuxna med salivläckage och orala ovanor 10
Motoriska Inlärningsprinciper 10
Revidering 11
Bakgrund 12
Evidens 12
Forskning och evidens för personer inom habiliteringens verksamhetsområde med orala sensomotoriska talavvikelser, sväljsvårigheter eller salivläckage 15
Syfte 15
Frågeställningar 16
Antal möten 17
Metod 18
Gradering 18
Sökprocess 20
Intrabedömarreliabilitet 23
Resultat 24

Studiekvalitet 24
Typ av intervention 27
Evidens 29
Tal 29
Sväljning 37
Salivläckage och orala ovanor 42
Analys av effektstorlek 43
Motoriska Inlärningsprinciper (MIP) 44
Motoriska inlärningsprinciper – Tal 44
Motoriska inlärningsprinciper – Sväljsvårigheter, salivläckage och orala ovanor 47
Diskussion 48
Patient- och anhörigperspektiv - motivation 49
Professionell expertis 51
Överförbarhet 52
Komorbiditet 53
Kunskapsluckor 54
Motoriska inlärningsprinciper 55
Framtida forskningsbehov 57
Pågående forskningsprojekt 57
Slutsatser 58
Referenser 60
Bilagor 69
Bilaga 1. Bedömningsmall 69
Bilaga 2. Exempel på bedömning 72

Inledning

Gruppens uppdrag var att söka och kritiskt granska det vetenskapliga underlaget för olika typer av sensomotorisk intervention vid tal- och oralsensomotoriska avvikelser inklusive sväljsvårigheter, salivläckage och orala ovanor hos barn från 3 års ålder, ungdomar och vuxna inom habiliteringen.

Arbetsgruppens sammansättning

Arbetsgruppen bestod av totalt åtta personer:

- Madeleine Brodén (logoped, Region Kronoberg)
- Margareta Gonzalez Lindh (logoped, doktorand, Region Gävleborg)
- Corinna Krüssenberg (logoped, Region Skåne)
- Anita McAllister (logoped, docent och vetenskaplig handledare, Karolinska Institutet och Karolinska Universitetssjukhuset, Stockholm)
- Irvina Ristic (logoped, Västra Götalandsregionen)
- Agneta Rubensson (logoped, Västra Götalandsregionen)
- Lotta Sjögreen (logoped, med dr och vetenskaplig handledare, Mun-H-Center, Västra Götalandsregionen)
- Linda Södergård (logoped, landstinget i Värmland/ Västra Götalandsregionen) tom mars 2016

Metoder

Arbetet startade med en första sammankomst under två dagar i augusti 2015 och avslutades i mars 2017 med den färdigställda rapporten. Den slutliga rapporten presenterades för föreningen Sveriges habiliteringschefer på ett årligt möte i maj 2017.

Vid första sammankomsten indelades gruppen i tre grupper med två deltagare i varje. Grupperna ansvarade för studier fokuserade på 1) *talavvikelser,* 2) *sväljsvårigheter,* samt 3) *salivläckage och orala ovanor*. Arbetet har bestått i artikelsökning, granskning och värdering av det vetenskapliga underlaget, diskussion och genomgång i storgrupp. Mellan sammankomsterna har deltagarna arbetat individuellt och i de mindre grupperna.

Följande deltagare ansvarade för respektive område:

1) *Talavvikelser,* Corinna Krüssenberg och Linda Södergård
2) *Sväljsvårigheter,* Margareta Gonzalez Lindh och Madeleine Brodén
3) *Salivläckage och orala ovanor,* Agneta Rubensson och Irvina Ristic

En Dropbox upprättades som ett gemensamt arkiv för gruppen vilket underlättade delning av dokument och gav samtliga deltagare en överblick av hur arbetet fortskred. Efter att Linda

Södergård lämnade arbetet i gruppen i slutet av mars 2016 beslutades att grupp ett och tre skulle slås samman. Sammanslagningen baserades på antalet artiklar grupperna hade att värdera. Den slutliga sammansättningen och fördelningen av områden blev följande: *Talavvikelser, salivläckage och orala ovanor,* Corinna Krüssenberg, Agneta Rubensson och Irvina Ristic samt *Sväljsvårigheter,* Margareta Gonzalez Lindh och Madeleine Brodén. Resultat från sökningar och värderingar kommer dock genomgående att redovisas utifrån tre områden; *Talavvikelser, Sväljsvårigheter* samt *Salivläckage och orala ovanor.*

Ordlista

Begrepp	Förklaring
AKK	Alternativ och Kompletterande Kommunikation.
Halitosis	Dålig andedräkt
Kohortstudie	Undersökningar som följer alla individer i en avgränsad och noggrant beskriven population, en kohort.
KP	Knowledge of Performance. Feedback om själva utförandet. Vad gick bra och vad gick mindre bra.
KR	Knowledge of Results. Feedback om resultatet. Hur lät det, blev det korrekt?
Longitudinell studie	Studier där deltagarnas utveckling följs över tid. Upprepade mätningar på samma individ genomförs vanligen.
Metaanalys	Kan ingå i en systematisk översikt. Kräver ett antal publicerade studier inom ett område. Syftet är att ta reda på vilka metoder som har högst evidens.
MSSD	Multiple Single Subject Design, en specifik studiedesign med flera deltagare och upprepad baslinjemätning.
Narrativ	En beskrivande översikt. Oftast inte samma kvalitativa krav för inklusion som i en systematisk översikt. Anses inte ha samma bevisvärde som en systematisk översikt.
Peer review	Den sakkunniga granskning som görs av inskickade artiklar i vetenskapliga tidskrifter.
Publiceringsbias	Den tendens som finns att behandla och publicera studier med ett positivt resultat i högre utsträckning än studier med negativt eller svårtolkade, tvetydiga resultat.
RCT	Randomized controlled trials, på svenska randomiserade kontrollerade studier där deltagarna slumpas till olika intervention.
Review-artikel	En litteraturöversikt baserad på publicerade studier. Ofta har vissa kvalitativa krav för inklusion formulerats. Sk systematisk översikt.
SSD	Single Subject Design, en specifik studiedesign med en deltagare, upprepade baslinjemätningar och kontinuerlig uppföljning av behandlingsresultatet med testord eller testuppgifter; Speech Sound Disorders, på svenska ungefär talljudsstörning eller språkljudsstörning.
Stratifierat urval	En urvalsmetod där den studerade populationen har delats in i delar, så kallade strata, baserat på någon egenskap. En efterstratifiering kan också göras baserat på t ex testresultat.
Talapraxi	Förvärvad motorisk talavvikelse som påverkar precision, koordination och timing av artikulationen hos vuxna
Taldyspraxi	Medfödd motorisk talavvikelse som påverkar precision, koordination och timing av artikulationen hos barn
TBI	Traumatic Brain Injury, traumatisk hjärnskada.
Tvärsnittsstudie	En metod där man studerar ett antal individer, ofta relativt många, vid endast ett tillfälle.

Sammanfattning

Rekommendationerna i föreliggande rapport baseras på en granskning av totalt 100 studier varav 51 inom området tal, 38 inom sväljsvårigheter och 11 inom salivläckage och orala ovanor.

Rekommendationer

Rekommendationerna nedan bygger på det sammanvägda vetenskapliga underlaget för respektive metod, funktionsområde och patientgrupp. För flera av metoderna är det totala antalet medverkande individer lågt men resultaten är jämförbara. I de fall där det finns ett samstämmigt positivt resultat för en metod har det bedömts stärka det sammanvägda vetenskapliga underlaget. Se tabell 3 för en kortfattad beskrivning av inkluderade interventionsmetoder.

Tal

Det sammanlagda vetenskapliga underlaget för rekommendationerna nedan baseras på totalt 40 studier inklusive översiktsartiklar. Att antalet är lägre än det totala antalet granskade artiklar beror på att alla studier inte bidragit till någon rekommendation.

Rekommendationer för barn, ungdomar och vuxna med taldyspraxi

- *Rapid Syllable Transition Treatment (ReST)* rekommenderas måttligt stark till starkt för barn med taldyspraxi.
- Dynamic Temporal and Tactile Cueing *(DTTC)* ges en måttligt stark rekommendation för barn med taldyspraxi. *DTTC* fokuserar på enklare uppgifter än *ReST* vilket innebär att metoden kan vara mer lämpad för barn med grava svårigheter.
- *Prompts for Restructuring Oral Muscular Phonetic Targets (PROMPT)* ges en begränsad rekommendation för barn med tal- och oral dyspraxi och vuxna med talapraxi.

Rekommendation för barn och ungdomar med dysartri på grund av central skada inklusive cerebral pares

- Begränsade rekommendationer ges för *Lee Silverman Voice Treatment (LSVT), Elektropalatografi (EPG), Andningsfunktion, fonation och talhastighet, Oral myofunktionell behandling* samt *PROMPT* på grund av det låga antalet deltagare i studierna samt motstridiga resultat i några studier med samma metod.

Rekommendationer för barn och ungdomar med dysartri och Downs syndrom

- *Gomplatta* ges en måttligt stark rekommendation för barn med dysartri och Downs syndrom om syftet är att stimulera en specifik aktivitet eller ett artikulationsställe.

Rekommendationer för barn och ungdomar med dysartri och neuromuskulär sjukdom

Det låga antalet studier gör att underlag för rekommendation saknas.

Rekommendationer för vuxna med talavvikelser

Ett mycket litet antal studier rapporterar om resultat efter talbehandling för vuxna individer inom habiliteringens patientgrupper. Det låga antalet studier gör att underlag för rekommendationer för vuxna saknas utöver den begränsade rekommendationen för *PROMPT* vid talapraxi.

Sväljning

Det sammanlagda vetenskapliga underlaget för rekommendationerna nedan baseras på totalt 23 studier.

Rekommendationer för barn, ungdomar och vuxna med sväljsvårigheter orsakade av medfödda funktionsnedsättningar – studier med utfallsmått som är direkt relaterade till sväljning

- Måttligt stark rekommendation att använda *ISMAR* (The Innsbruck Sensorimotor Activator and Regulator) för behandling av måttliga sväljsvårigheter hos barn med cerebral pares. Maximal effekt av behandlingen förväntas uppnås inom ett år och beror sannolikt på en förbättrad käkstabilitet.
- Begränsad rekommendation för intervention med en kombination av sväljträning och oral sensomotorisk stimulering vid sväljsvårigheter orsakade av medfödda funktionsnedsättningar.
- Begränsad rekommendation ges när det gäller oral taktil stimulering vid sväljsvårigheter. Det vetenskapliga underlaget är begränsat pga avsaknad av kontrollgrupper. Samstämmiga och signifikanta positiva resultat ligger till grund för rekommendationen.

Rekommendationer för barn, ungdomar och vuxna med sväljsvårigheter orsakade av medfödda funktionsnedsättningar – studier med del av funktion (se figur 4) som utfallsmått

- Måttligt stark rekommendation att använda gomplatta för behandling av nedsatt läpp- och tungfunktion hos barn och ungdomar med Downs syndrom.
- Begränsad till måttligt stark rekommendation för oral sensomotorisk stimulering (med eller utan redskap) som syftar till att aktivera och stärka läppar, tunga och tuggmuskler hos barn och unga med orofacial funktionsnedsättning.
- Begränsad rekommendation för oral sensomotorisk stimulering efter tandreglering av öppet bett för att minska risken för att bettet öppnar sig igen.

Salivläckage och orala vanor

Det sammanlagda vetenskapliga underlaget för rekommendationerna nedan baseras på totalt sex studier.

Rekommendationer för barn, ungdomar och vuxna med salivläckage och orala ovanor

- Måttligt stark rekommendation att använda gomplatta för behandling av salivläckage hos barn och ungdomar med Downs syndrom, cerebral pares, utvecklingsstörning och/eller orofaciala funktionsnedsättningar. Samstämmigheten mellan tillgängliga studier höjer det sammanlagda bevisvärdet.
- Ingen rekommendation kan ges när det gäller behandling av salivläckage med ISMAR eller med munskärm på grund av otillräckligt vetenskapligt underlag.

Det saknas vetenskapligt underlag för rekommendationer när det gäller vuxna med salivläckage.

Det saknas vetenskapligt underlag för rekommendationer när det gäller barn, ungdomar och vuxna med orala ovanor.

Motoriska Inlärningsprinciper

En sammanfattning av motoriska inlärningsprinciper som identifierats i rekommenderade behandlingsmetoder vid olika typer av sensomotoriskt baserade orofaciala avvikelser beskrivs nedan. De motoriska inlärningsprinciper som ingått i granskningen är 1) antal behandlingstillfällen/v, 2) totalt antal behandlingstillfällen, 3) längd/behandlingstillfälle (min), 4) antal repetitioner/behandlingstillfälle, 5) behandlingsupplägg; varierad eller ensidig träning, 6) typ av uppgifter (enkla/komplexa), 7) vem har genomfört interventionen, 8) typ av feedback, 9) generaliseringseffekter och 10) långtidsuppföljning, se tabell 10 och 11.

De flesta granskade artiklarna poängterar vikten av en hög behandlingsintensitet för att påverka talmotoriken. Vad som är en hög behandlingsintensitet varierar dock kraftigt mellan

de granskade studierna. Behandlingen är oftast individuell och individuellt utformad relaterat till individens svårigheter.

- Hög behandlingsfrekvens >3ggr/vecka. Flera metoder rekommenderar även daglig hemträning.
- Många repetitioner av målljud, stavelser, målord eller liknande/behandlingstillfälle, >60 ggr.
- Strukturerad intervention med ett begränsat antal rörelser, gester, målljud, stavelser, målord eller liknande. Flera studier förordar en slumpmässig variation av tränade uppgifter/ behandlingstillfälle.
- Strukturerad feedback som inkluderar information om hur uppgiften utfördes och om resultatet. Feedback bör successivt glesas ut. Några studier tyder på goda effekter av multimodal feedback (auditiv, visuell, sensorisk).

För sväljning och salivläckage rapporteras om motoriska inlärningsprinciper relaterat till tre behandlingsmetoder: ISMAR, oral taktil stimulering samt och gomplatta och munskärm, se tabell 11. Behandling med intraorala träningsredskap kräver inte alltid aktiv medverkan av patienten vilket gör att det ofta är möjligt att stimulera den orala sensomotoriken samtidigt som barnet utför andra aktiviteter. ISMAR kan även användas nattetid. Behandlingsfrekvensen är hög för båda metoderna med behandling dagligen till flera gånger per dag. Behandlingen är också utsträckt över tid.

Revidering

Rapporten bör revideras senast 2022 då området är i stark utveckling med flera pågående nationella och internationella forskningsprojekt. Initiativet till en revidering bör komma från Föreningen Sveriges Habiliteringschefer. Kontaktperson i gruppen är Margareta Gonzalez Lindh, Region Gävleborg.

Bakgrund

Evidens

Med evidens avses resultatet av systematiskt insamlade, granskade och sammanställda vetenskapliga data som uppfyller uppställda krav på tillförlitlighet (SBU, 2014b). Syftet är att dessa sammanställningar ska utgöra ett underlag för rekommendationer kring insatser. I en av de första artiklarna som använder begreppet evidensbaserad medicin beskriver författarna vad det innebär " *…the conscientious, explicit, and judicious use of current best evidence in making decisions about the care of individual patient."* (Sackett, Rosenberg, Gray, Haynes, & Richardson, 1996). Evidensbaserad medicin har sedan utvecklats till att omfatta även andra professioner inom hälso- och sjukvård och socialtjänst, s.k. evidensbaserad praktik (Kunskapsguiden).

Socialstyrelsen illustrerar de olika delarna i evidensprocessen på följande sätt, se figur 1.

Evidensbaserad praktik innebär en medveten och systematisk användning av flera kunskapskällor för beslut om insatser. Kunskap om patientens eller brukarens erfarenheter, synpunkter och specifika situation skall alltid inhämtas.

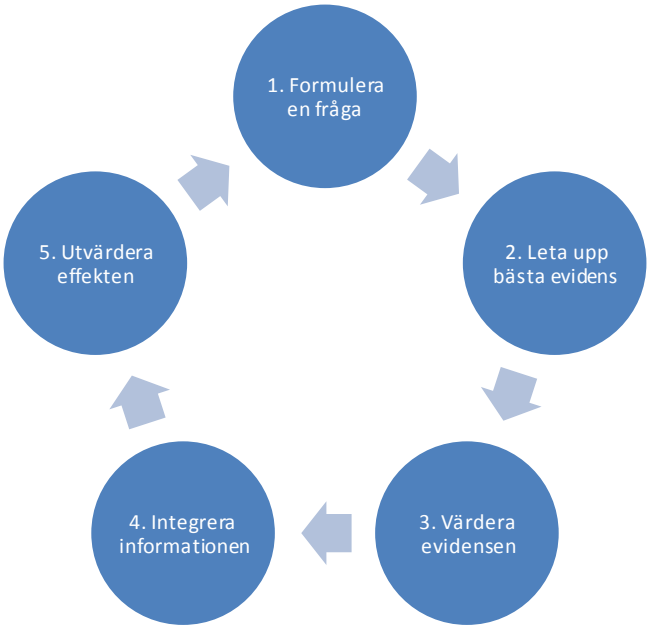
- den bästa tillgängliga kunskapen
- den professionelles expertis
- den berörda personens situation, erfarenhet och önskemål.

Figur 1. Illustration av olika delar och intressenter som samverkar i evidensprocessen. Hämtad från Socialstyrelsens hemsida, 2016-07-12.

Hur informationen från de olika kunskapskällorna vägs samman bestäms av det nationella och lokala sammanhanget, till exempel vilken tillgång som finns vad gäller lagstiftning på området, riktlinjer och sammanställning av lokal kunskap.

För att uppfylla kravet på evidensbaserade insatser är det viktigt att professioner verksamma inom hälso- och sjukvård och habilitering håller sig uppdaterade om förändring och utveckling av bästa befintliga evidens inom det egna området. I takt med utvecklingen och som en följd av den ökade mängden tillgänglig information har det blivit ett alltmer omfattande arbete för den individuella yrkesutövaren. Flera nationella och internationella initiativ har därför tagits för att stötta olika yrkesutövare i det komplexa arbetet. Exempel på det är de professionsövergripande sammanställningar som görs kontinuerligt inom Cochran Reviews (Torres-Lagares) eller av Statens beredning för medicinsk och social utvärdering (SBU) och på Föreningen Sveriges habiliteringschefers initiativ, där föreliggande rapport ingår. Specifikt inom logopedi finns också flera databaser för behandlingsutvärdering som speechBITE (speechBITE) eller sammanställningar gjorda av American Speech and Hearing Association - ASHA (ASHA). Alla dessa utgör en rik och relativt regelbundet uppdaterad källa med sammanställningar av befintlig evidens för olika behandlingsmetoder.

Baserat på Sacketts och medarbetares modell för evidensarbete har fem viktiga steg för ett systematiskt evidens- och förändringsarbete identifierats (Johnson, 2008), se figur 2.



Figur 2. Fem steg för ett systematiskt evidens- och förändringsarbete (Johnson, 2008) baserat på Sackett och medarbetares artikel (Sackett, 1996).

Följande steg ingår i femstegsmodellen: 1. Formulera en fråga (som kan besvaras). 2. Leta upp bästa tillgängliga evidens. 3. Värdera evidensen. 4. Integrera informationen med klinisk kompetens och patientens värderingar och önskemål. 5. Utvärdera effekten av åtgärden.

Modellen kan även härledas tillbaka till Demings förslag på en strukturerad modell för ett systematiskt förändrings- och förbättringsarbete, det sk PDSA-hjulet agerandefasen (Deming, 1986). Hjulet består av fyra delar P – Plan, planeringsfasen, D – Do, genomförandefasen, S –

Study, studerandefasen och A – Act. På svenska kallas modellen PGSA, Planera, Göra, Studera, Agera. Flera andra liknande modeller har utarbetats som ett stöd i evidens- och förbättringsarbetet. Langley och medarbetare utgår också från Sacket och kollegors modell men har kompletterat med frågor som leder fram till att en idé om ett förbättringsprojekt kan formuleras (Langley, 2009), se figur 3.

Figur 3. Langley och medarbetares utökade modell för förbättringsarbete (Langley, 2009).

Ytterligare en faktor som påverkar det evidensbaserade kliniska arbetet är hur tillgänglig kunskap sprids och implementeras. Implementeringsforskningen undersöker specifikt olika hinder och förutsättningar relaterade till implementering av forskningsresultat. Man har generellt funnit att det ofta tar lång tid från rapporterade resultat om en metod och dess effekter till att dessa har införts i det kliniska arbetet (Wallen et al., 2010). Trögheten i implementeringen av nya forskningsresultat beror på ett stort antal organisatoriska och personella faktorer som bristen på kliniska forskare i en verksamhet, resursbrist inom någon profession eller andra svårigheter med att omorganisera en verksamhet (Aarons, 2005). Det kan även finnas anledning att avvakta med införandet av nya och obeprövade metoder. Ur flera aspekter, inte minst ekonomiska, anses det bättre att avvakta något med införandet av en potentiellt effektiv behandling (*Typ II-fel*) än att betrakta en ineffektiv behandling som effektiv (*Typ I-fel*). Skälet är att en felaktig rekommendation kan leda till införande av metoder som inte är effektiva. Det är kostsamt att implementera nya metoder; det tar tid från klient/patientarbetet och det förhindrar i realiteten implementering av andra (och eventuellt mer effektiva) metoder (Socialstyrelsen).

Innan en rekommendation om lämpliga åtgärder kan ges har en mängd frågor bearbetats, t ex: Är det sannolikt att den åtgärd och metod som förordas kommer att leda till avsedd förändring? Är den förordade metoden bättre, mer verksam, än alternativa metoder? Finns nödvändiga resurser inom och runt individen för att genomföra interventionen? För att kunna besvara dessa frågor och förbättra effekt och effektivitet av en åtgärd behövs kunskap om olika alternativa åtgärders evidens dvs. i vilken utsträckning ett alternativ är evidensbaserat för en viss patientgrupp och för ett visst problem. I det evidensbaserade arbetet kan även den enskilda klinikern eller enheten bidra genom att systematiskt samla, utvärdera och rapportera behandlingsresultat. I den professionella kompetensen ingår även att informera sig om den

aktuella individens unika problematik, önskemål och värderingar. Inför en rekommendation om lämpliga åtgärder ska all tillgänglig information värderas och integreras. Beslutet kring lämpliga åtgärder görs alltid i samråd med klienten/patienten. För barn och vuxna inom habiliteringens verksamheter involveras även vårdnadshavare, assistenter och närstående. Det slutliga beslutet om vilken föreslagen åtgärd som är bäst lämpad utifrån individuella förutsättningar och resurser är klient/patient samt, för barn, vårdnadshavaren och i förekommande fall god man.

Forskning och evidens för personer inom habiliteringens verksamhetsområde med orala sensomotoriska talavvikelser, sväljsvårigheter eller salivläckage

Antalet befintliga forskningsöversikter inom området är relativt lågt. Flera Cochraneöversikter inom granskade områden har publicerats under senare år, men med begränsat värde för rapporten på grund av ett bristande underlag i flera av studierna (Lee & Gibbon, 2015; Morgan, Dodrill, & Ward, 2012; Morgan & Vogel, 2008, 2009). För att en studie ska kvalificeras att ingå som underlag i en Cochraneöversikt krävs att den är en randomiserad kontrollerad studie, vilket hittills varit ovanligt när det gäller sensomotorisk intervention. Därutöver är ämnesområdet som helhet relativt ungt och forskningen underfinansierad jämfört med mer etablerade områden (Marshall, Goldbart, Pickstone, & Roulstone, 2011) vilket bidragit till en historiskt mer begränsad forskningsaktivitet. Den forskning som finansierats och rapporterats har ofta genomförts i samarbete med någon medicinsk specialitet och fokuserat på mer sällsynta tillstånd och diagnoser vilket gjort att flera logopediskt stora patientgrupper studerats i begränsad omfattning (Bishop, 2010).

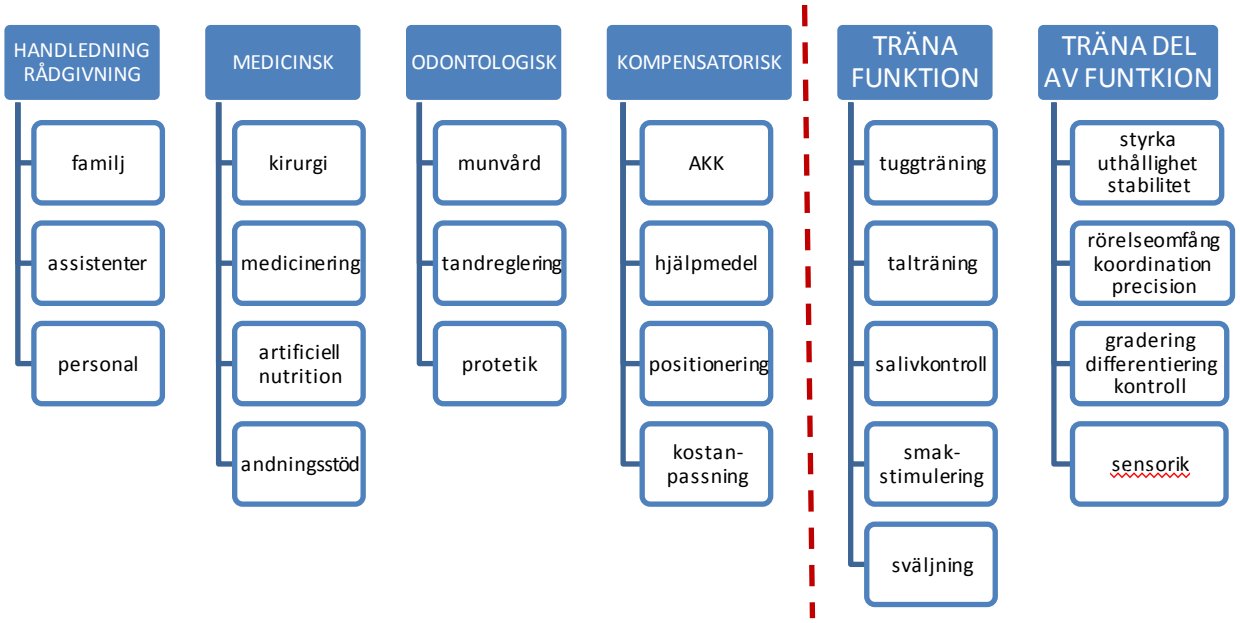
Under de senaste åren har dock intresset för oral sensomotorisk intervention ökat. Forskningen har framför allt inriktats på några avvikelser som exempelvis beskrivningen av symptom vid taldyspraxi hos barn och differentialdiagnostik gentemot dysartri respektive fonologisk språkstörning, intraorala metoder för stimulans och effekter av olika typer av feedback samt undersökningar av motoriska inlärningsprinciper baserat på erfarenheter från generell motorisk inlärning (Maas et al., 2008).

Syfte

Syftet med rapporten är att systematiskt beskriva bästa tillgängliga evidens för oral sensomotorisk intervention, där funktion eller del av en funktion behandlas, vid tal- och andra orala sensomotoriska avvikelser hos barn från 3 års ålder, ungdomar och vuxna inom habiliteringens verksamhetsområde.

Ytterligare syften är att på basis av litteraturgenomgången ge rekommendationer om evidensbaserade arbetssätt för att förbättra eller bibehålla olika typer av tal- och orala sensomotoriska funktioner hos personer med dessa funktionsnedsättningar. Slutligen är ett syfte att identifiera befintliga kunskapsluckor inom området.

De olika typer av interventionsmetoder som ingår i rapporten redovisas i figur 4. Endast motorisk och/eller sensorisk intervention eller stimulans ingår i granskningen. I några fall har den motoriska och/eller sensoriska behandlingen genomförts i kombination med andra insatser till vänster om strecket i figur 4. Dessa studier har då inkluderats i granskningen. Det gäller även viss odontologisk behandling där syftet varit att förbättra muskelfunktionen, sk myofunktionell behandling.



Figur 4. En översikt över olika typer av intervention vid tal- och oralsensomotoriska funktionsnedsättningar. Insatser till höger om den streckade röda linjen har ingått i granskningen.

Frågeställningar

För att formulera genomtänkta vetenskapliga frågeställningar som kan besvaras i rapporten utgick vi från PICO-modellen (Problem, Intervention, Comparison (jämförelse), Outcome (resultat) (Richardson, Wilson, Nishikawa, & Hayward, 1995; Sackett et al., 1996). Modellen har även utökats med Environment (miljö, omgivning) och Stakeholders (intressenter) till akronymen PESICO av Schlosser, Koul och Costello (Schlosser, Koul, & Costello, 2007) för att vara bättre anpassad till tal- och kommunikationsforskning där omgivningsfaktorer kan vara viktiga. Modellen har tidigare använts i två tidigare EBH-rapporter (Backman et al., 2015; Eberhart et al., 2015) och ligger till grund för de formulerade frågeställningarna även i denna rapport.

Den övergripande frågeställningen för arbetet som helhet är: *Vilka rekommendationer gällande oral sensomotorisk intervention för personer inom habilitering kan ges baserat på litteraturgenomgången och nuvarande kunskapsläge.*

Därutöver formulerades ytterligare fyra frågeställningar relaterat till Talfunktion, Sväljförmåga samt Salivkontroll och orala ovanor:

Talproduktion:

- *Vilken vetenskaplig evidens finns för oral sensomotorisk intervention för personer inom habilitering (från 3 år) med talsvårigheter?*

Sväljning:

- *Vilken vetenskaplig evidens finns för oral sensomotorisk intervention för personer inom habilitering (från 3 år) med sväljsvårigheter?*

Salivläckage och orala ovanor:

- *Vilken vetenskaplig evidens finns för oral sensomotorisk intervention för personer inom habilitering (från 3 år) med salivläckage?*
- *Vilken vetenskaplig evidens finns för oral sensomotorisk intervention för personer inom habilitering (från 3 år) med orala ovanor?*

Antal möten

Totalt har hela gruppen träffats vid sex tillfällen under en eller två dagar mellan augusti 2015 och februari 2017. Vid ett tillfälle träffades hela gruppen över videolänk. Därutöver har flera ytterligare möten genomförts live eller via Skype eller annan videolänk i de mindre ämnesspecifika grupperna.

Vid det första mötet fastställdes sökorden för de olika grupperna samt vilka databaser som sökningarna skulle genomföras i. Baserat på frågeställningarna genomfördes sedan sökningar av artiklar som uppfyllde följande inklusionskriterier: (a) publicerade i vetenskapliga tidskrifter mellan år 2000-01-01 och februari 2016-02-29, (b) deltagare i åldern tre år och uppåt, (c) deltagare med relevanta diagnoser inom habiliteringens verksamhetsområden samt (d) tal- och orala sensomotoriska avvikelser inklusive sväljsvårigheter, salivläckage och orala ovanor rapporteras. För diagnosen taldyspraxi hos barn beslutades att samtliga artiklar som beskriver en sensomotorisk intervention skulle ingå. Anledningen var främst att en hög komorbiditet med andra funktionsnedsättningar beskrivits (Shriberg, Potter, & Strand, 2011; Tierney et al., 2015) samt att flera studier inte beskrivit deltagarna så detaljerat att eventuella ytterligare funktionsnedsättningar framgår.

Metod

Interventioner för barn från 3 års ålder, ungdomar och vuxna med tal- och orala sensomotoriska avvikelser inklusive sväljsvårigheter, salivläckage och orala ovanor inom habiliteringens verksamheter har ingått i granskningen.

Genomgången har inkluderat vetenskapligt granskade artiklar publicerade i vetenskapliga tidskrifter med extern granskning sk peer review. Artiklar publicerade på engelska, svenska och tyska mellan år 2000 tom februari 2016 har ingått.

Gradering

Evidensgraderingen gjordes utifrån riktlinjer fastställda av Statens Beredning för medicinsk Utvärdering (SBU, 2014a). The Grading of Recommendations Assessment, Development and Evaluation (GRADE) användes i bedömningen av de granskade studiernas kvalitet (Atkins et al., 2004). GRADE bygger på erfarenheter från andra graderingssystem men har ett tydligare fokus på risk–nyttaperspektivet. GRADE:s evidensgradering enligt SBU:s modell bygger på en fyrgradig skala från stark-4, måttligt stark-3, begränsad-2 till otillräcklig-1 evidens för en metod. I arbetet med GRADE utgår man från en preliminär evidensstyrka som baseras på studieupplägg/studiedesign. Den preliminära evidensstyrkan justeras sedan uppåt eller neråt beroende på ett antal kvalitetsfaktorer. Högt rankade är randomiserade studier där deltagarna slumpats till en av två eller flera jämförda behandlingsmetoder (sk randomized controlled trials, RCT), metaanalyser och systematiska översikter, som samtliga erhåller graderingen 4 initialt. Fyra innebär att studien har den högsta graden av bevisvärde, se faktaruta 10.1 SBU, s 144. En studies bevisvärde kan sedan sänkas eller höjas med maximalt två poäng beroende på sänkande eller höjande faktorer. Exempel på sänkande faktorer är en ofullständigt beskriven rekrytering och intervention, liten studiepopulation eller ett otydligt dos-responssamband. Höjande faktorer kan vara om studien har en tydlig klinisk relevans och en detaljerad beskrivning av genomförandet samt att författarna tar upp frågor som kan ha påverkat resultatet t ex eventuella yttre faktorer (Roback, 2009).

Observationsstudier startar enligt den preliminära bedömningen på GRADE 2 och fallstudier och single-case-studies GRADE 1. I föreliggande granskning är det preliminära bevisvärdet för *Multiple single subject design studier* (MSSD) initialt grade 2, vilket även använts som startvärde i en tidigare EBH-rapport (Backman et al., 2015).

En bedömning med GRADE består av två delar, dels bedömning och gradering av de studier som selekterats och dels en sammanfattande bedömning av en metods bevisvärde. Bevisvärdet är kopplat till antalet studier, liknande resultat, patientgrupp mm och resulterar slutligen i en rekommendation om att införa, avvakta eller avvisa den granskade metoden (Roback, 2009). Vid granskning av en studie beskrivs följande komponenter: tillståndet/sjukdomen,

patientgruppen, interventionen, eventuella alternativ till metoden samt effektmått och rapporterade biverkningar.

För att bedöma den vetenskapliga kvaliteten på systematiska och narrativa översikter kompletterades
GRADE med granskningsmallen *Assessment of Multiple Systematic Reviews* (AMSTAR) (SBU, 2014a; Shea, Bouter, et al., 2007; Shea, Grimshaw, et al., 2007). En sammanställning av granskningarna gjordes i form av en checklista. Checklistan har utarbetats av Backman och medarbetare (2015) (Backman et al., 2015) och kompletterades här med ytterligare kategorier relaterade till motoriska inlärningsprinciper (MIP) (Maas et al., 2008) för respektive behandling (se bilaga 1). Inga graderingar gjordes blindade vare sig vad gäller studiens titel eller författare. Graderingarna fördes in i ett exceldokument som var gemensamt för varje område. I exceldokumentet sammanfattades bedömningen från checklistan så att författare, titel, studiepopulation, antal deltagare, utfallsmått, resultat samt gradering för varje studie angavs. Narrativa översikter redovisar oftast inte samma systematiska sökningsförfarande som systematiska översiktsartiklar. En narrativ översikt är en översiktsartikel där studier relaterade till en metod, feedbackfrekvens, eliciteringsteknik eller liknade jämförs. Det anses vara en metod som är lämplig om författaren vill öka kunskapen kring en behandlingsmetod eller övergripande diskutera principerna för en intervention som författaren själv har stor erfarenhet av. Analysmetoderna i narrativa översikter varierar. Narrativa översikter anses generellt ha ett lägre bevisvärde än systematiska översikter.

De slutliga rekommendationerna av en viss metod, för en viss patientgrupp, baseras på en sammanvägning av GRADE-bedömningarna och rekommendationer i befintliga översiktsartiklar inom varje område. Rekommendationerna följer SBUs riktlinjer för värdering av det vetenskapliga underlaget (SBU, 2014a) och avspeglar arbetsgruppens samlade bedömning.

1. *Starkt vetenskapligt underlag*

Bygger på studier med hög eller medelhög kvalitet utan försvagande faktorer vid en samlad bedömning.

2. *Måttligt starkt vetenskapligt underlag*

Bygger på studier med hög eller medelhög kvalitet med förekomst av försvagande faktorer vid en samlad bedömning.

3. *Begränsat vetenskapligt underlag*

Bygger på studier med hög eller medelhög kvalitet med kraftigt försvagande faktorer vid en samlad bedömning.

4. *Otillräckligt vetenskapligt underlag*

När studier saknas, tillgängliga studier har låg kvalitet eller där studier av likartad kvalitet visar motsägande resultat, anges det vetenskapliga underlaget som otillräckligt.

I de fall arbetsgruppen funnit att underlaget för en metod är otillräckligt har ingen rekommendation utfärdats.

Bevisvärdet kan vara olika för olika utfallsmått inom en och samma studie, vilket innebär att studiekvalitet och bevisvärde måste bedömas separat för varje relevant utfallsmått. Det innebär också att en studie kan förekomma inom flera områden och då ha graderats olika.

Sökprocess

Söktermer valdes baserat på MeSH-termer relaterat till de olika områdena. Landstingens respektive universitetens bibliotekarier har varit mycket behjälpliga i det praktiska arbetet med sökningarna i olika databaser. I det initiala sökförfarandet ingick studier publicerade på engelska, svenska, norska, danska och tyska.

För Talavvikelser valdes följande sökord: *Intervention OR therapy OR treatment; dysarthria OR apraxia OR dyspraxia AND speech AND therapy, oral motor, oral facial myofunctional, NOT Parkinsons disease NOT stroke*

För Sväljsvårigheter valdes följande sökord: *Intervention study OR therapy OR treatment; oromotor OR oral sensory- motor OR orofacial OR oropharyngeal; disability OR rehabilitation OR impairment OR disorder OR deficit OR dysfunction OR insufficiency OR quality; dysphagia OR feeding OR breathing OR respiration OR velopharyngeal OR swallowing OR chewing mastication OR aspiration OR cough OR tongue protrusion OR cognition OR deglutition disorder, NOT Parkinsons disease NOT stroke*

För Salivläckage och orala ovanor valdes följande sökord: *Siahlorreea OR hypersalivation OR drooling, therapy OR rehabilitation OR treatment, motor speech, oral sensory-motor, orofacial, NOT Parkinsons disease NOT stroke*

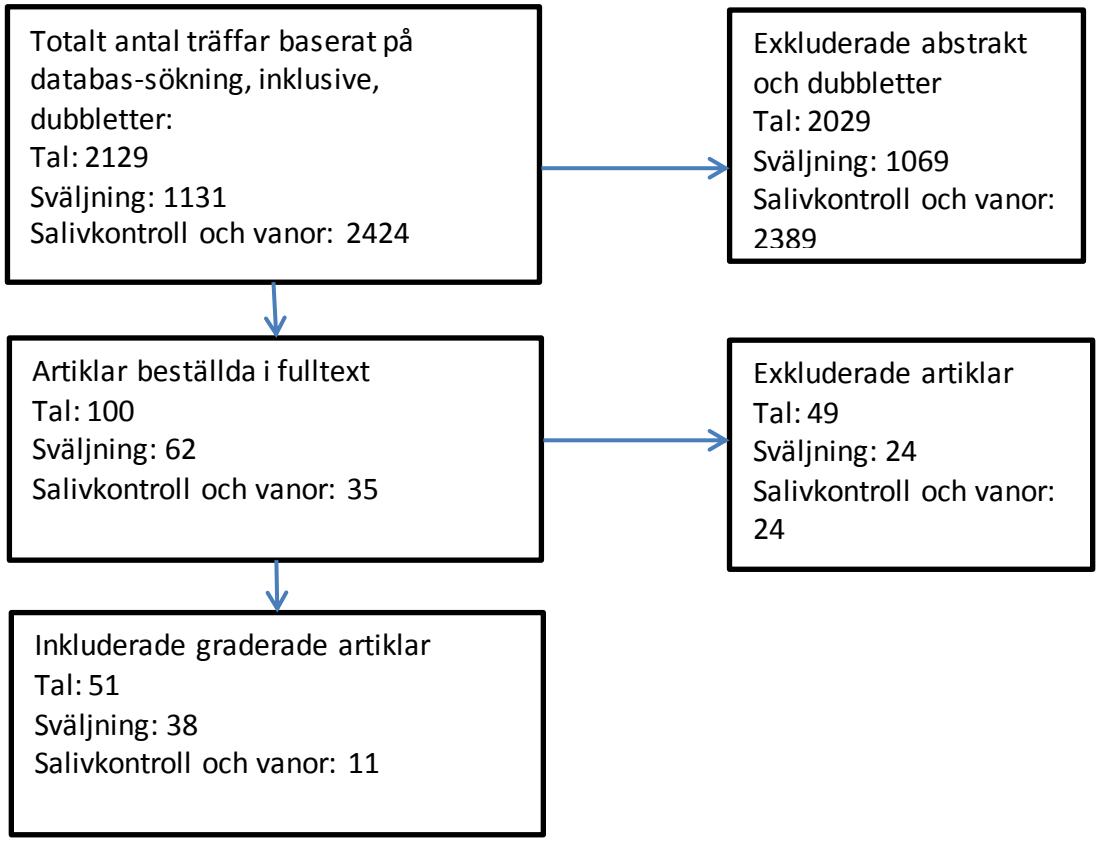
Ett exempel på en sökning inom salivläckage och orala ovanor i PubMed redovisas nedan:

"sialorrhea"[MeSH Terms] OR sialorrhea[tiab] AND (("therapy"[Subheading] OR "therapy"[All Fields] OR "treatment"[All Fields] OR "therapeutics"[MeSH Terms] OR "therapeutics"[All Fields]) AND orofacial[All Fields] AND ("bruxism"[MeSH Terms] OR "bruxism"[All Fields])) AND (("2000/01/01"[PDAT] : "3000/12/31"[PDAT]) AND (Swedish[lang] OR Norwegian[lang] OR English[lang] OR Danish[lang] OR German[lang]))

Följande databaser användes för sökningar: CINAHL, Medline, SpeechBITE, PubMed, OVID, ERIC, Cochrane och inom området salivläckage och orala ovanor även Google Scholar. De huvudsakliga sökningarna gjordes mellan september 2015 och januari 2016 med sökord utifrån de fastställda frågeställningarna för varje område.

Deltagarna genomförde individuella sökningar som dokumenterades i gemensamma excelfiler i Dropbox. Den första gemensamma genomgången inleddes med en presentation av sökprocessen och antalet identifierade artiklar inom varje område. På mötet uppstod en diskussion kring gallringen baserat på relevans för rapporten och behovet av ytterligare sökningar. Efter presentation av sökresultat relaterat till olika databaser beslutade gruppen gemensamt att utöka sökningen inom området salivläckage och orala ovanor då endast ett fåtal relevanta artiklar erhållits. Därför gjordes kompletterande sökningar t o m 29 februari 2016 som blev därmed blev slutdatum för artiklar i rapporten.

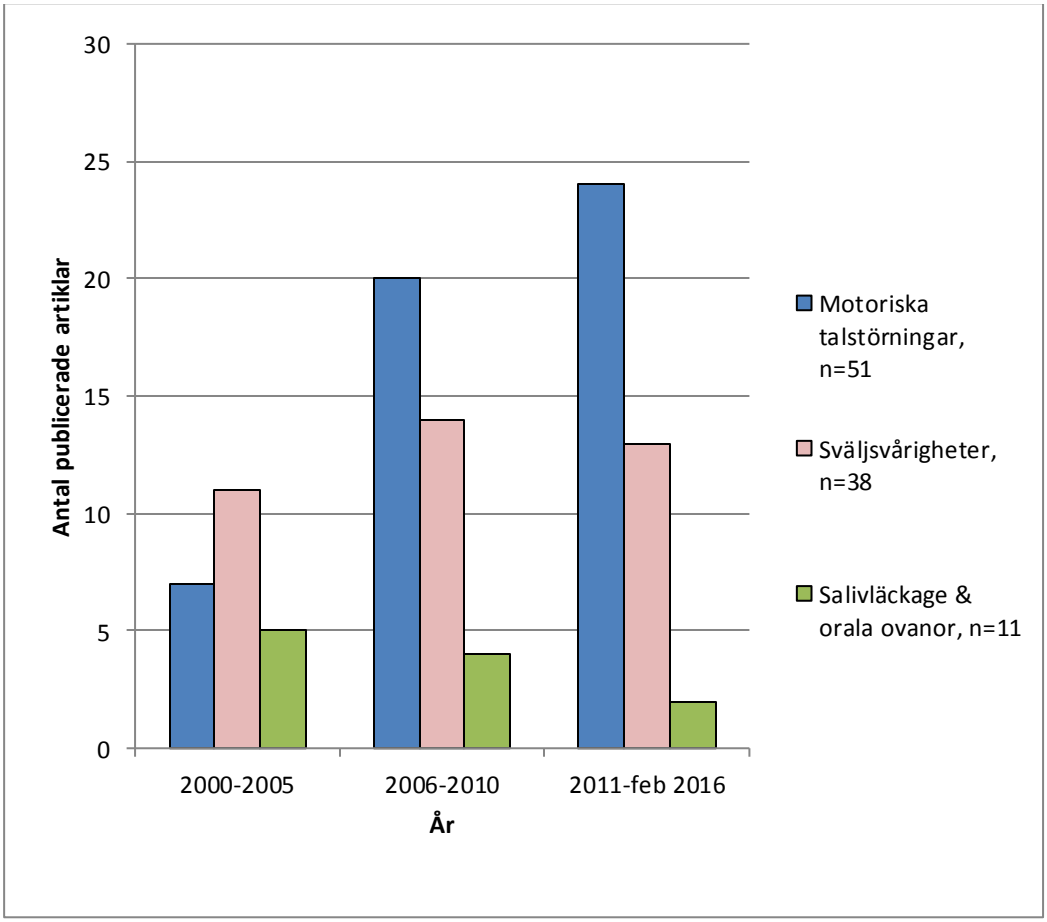
Totalt erhölls 5684 artiklar uppdelat på 2129 för tal, 1131 för sväljsvårigheter och 2424 för salivläckage och orala vanor, se figur 5. En första gallring av dubbletter och uppenbart irrelevanta artiklar gjordes parvis av deltagarna inom varje funktionsområde baserat på titel och abstract. För kvarstående artiklar lästes abstract och kategoriserades efter deltagare, diagnosgrupp och intervention för att identifiera om målgrupper aktuella inom habiliteringen ingått i studien. Relevanta artiklar beställdes i sin helhet. Därutöver identifierades några enstaka artiklar via referenslistor i beställda översiktsartiklar.



Figur 5. Sökprocessen för inkluderade områden. I flödesdiagrammet anges det totalt antal träffar, exklusion av studier baserat på abstrakt och dubbletter, exklusion efter beställning och genomläsning av den fullständiga artikeln pga bristande relevans eller felaktig population och slutligen antalet inkluderade och graderade artiklar som utgör underlag i rapporten.

Inom två områden (talavvikelser och sväljsvårigheter) resulterade den initiala sökningen i ett mycket stort antal träffar medan området salivläckage och orala ovanor behövde göra kompletterande sökningar i fler och bredare databaser som Google Scholar för att identifiera >50 artiklar. De artiklar som genererades via Google Scholar hittades dock sedan även i Pubmed, men först när sökningar gjordes baserade på de fullständiga titlarna för varje enskild studie.

Antalet träffar inom respektive område fördelat över tre perioder fram till februari illustrerar en ökad forskningsaktivitet inom området generellt, se figur 6. Perioderna är inte helt jämförbara i längd, 2000-2005 omfattar sex år, 2006-2010 omfattar fem år och 2011- sista februari 2016 omfattar 5 år och två månader. Undantaget från den generellt ökade forskningsaktiviteten är salivläckage och orala ovanor där trenden är den motsatta. Det beror dock inte på en minskad aktivitet inom området utan på att sökningen identifierade en stor mängd studier som beskriver alternativa behandlingsmetoder till sensomotorisk intervention, vilka således inte ingår i denna granskning.



Figur 6. Antal publicerade och graderade artiklar relaterat till respektive område och tidsintervall.

Intrabedömarreliabilitet

För att undersöka reliabiliteten i bedömningar och graderingar användes Cronbach's alfa. Totalt 28 artiklar slumpades fram som därefter bedömdes av ytterligare en person i gruppen, vilket motsvarar 28 % av det totala antalet graderade artiklarna. Slumpningen för områdena tal, salivläckage och orala ovanor genomfördes gemensamt. Både översiktsartiklar och primärstudier ingick i urvalet. En beräkning av den totala interbedömarreliabiliteten för samtliga 28 artiklar var α= .986 vilket innebär en mycket hög samstämmighet i bedömningarna.

Resultat

Det slutliga underlaget artiklar som graderades och utgör underlag för rekommendationerna i rapporten var totalt 100 artiklar uppdelade på områdena: *Talavvikelser, Sväljsvårigheter* samt *Salivläckage och orala ovanor*. Samtliga studier i rapporten var publicerade mellan januari 2000 och 29 februari 2016 och innefattar 14 systematiska översikter, 19 narrativa översikter, 6 randomiserade kontrollerade studier samt 61 single subject studier (SSD), kohort- och observationsstudier med olika studieupplägg och uppföljning, se tabell 1. Inga omfattande metaanalyser påträffades inom något av de granskade områdena men en första ansats till en metaanalys finns i en av de systematiska översikterna (Murray, McCabe, & Ballard, 2014) där olika behandlingsmetoder vid taldyspraxi hos barn granskats och dess effekter värderats. Författarna påpekar att analysen baseras på ett litet antal deltagare.

Tabell 1. Antal, typ och studiedesign för granskade artiklar i rapporten uppdelat på respektive granskningsområde.

	Systematiska översikter	Narrativa översikter	Randomiserade kontrollerade studier	Övriga
Talavvikelser	8	4	3	36
Sväljsvårigheter	4	12	3	19
Salivläckage	2	3	0	6

Studiekvalitet

Baserat på graderingen med GRADE kategoriserades studierna i fyra kategorier relaterat till värderingen av det vetenskapliga underlaget. Därutöver bidrog slutsatserna i de systematiska översikterna att stärka bevisvärdet för flera behandlingsmetoder inom respektive område vilket redovisas närmare under rubriken evidens. Avsaknaden av randomiserade kontrollerade studier för utvärdering av sensomotoriska metoder för behandling av sväljsvårigheter och salivläckage gjorde att de systematiska översikterna ofta saknade underlag och därmed inte kunde bidra till bevisvärdet inom dessa områden.

Totalt 12 översiktsartiklar identifierades inom området motoriska talstörningar. Studiekvalitén graderades med en checklista enligt AMSTAR (SBU, 2014b). Totalt kan elva poäng erhållas. För de åtta systematiska översiktsartiklarna inom området motoriska talstörningar var medelpoängen 7,75 (variation 5-11 poäng) och för de fyra narrativa översikterna var medelpoängen 5,5 (variation 4-6). I fem av översikterna kunde författarna inte dra några slutsatser då randomiserade kontrollerade studier saknades, det gäller tre Cochrane översikter

där endast RCT-studier inkluderas (Morgan & Vogel, 2008, 2009; Pennington, Miller, & Robson, 2009) och i två översiktsartiklar där underlaget ansågs vara bristande (Lee & Gibbon, 2015; Palmer, 2007). I tre översiktsartiklar granskades rapporterade effekter av *Non-speech Oral Motor Treatment (NSOMT)* för barn med talstörning (SSD) och andra motoriskt baserade talavvikelser (Kent, 2015; Lee & Gibbon, 2015; McCauley, 2009). Översiktsartikeln av Maas och medarbetare (2014) granskade övergripande principer för metoderna *Rapid Syllable Transition Treatment (ReST), Dynamic Temporal and Tactile Cueing (DTTC), Prompts for Restructuring Oral Muscular Phonetic Targets (PROMPT), Nuffield Dyspraxia Program3 (NPD3)* och metoder som har en motorisk hypotes om grunden till svårigheterna, se tabell 3. Granskningen inkluderar även multimodal biofeedback (Maas, Gildersleeve-Neumann, Jakielski, & Stoeckel, 2014). I den narrativa översikten av Kent granskas definitioner av NSOMT och rapporterade behandlingsresultat relaterat till NSOMT och en mängd orofaciala funktionsnedsättningar inklusive talstörningar (Kent, 2015).

Inom området sväljning identifierades fyra systematiska översikter (Arvedson, Clark, Lazarus, Schooling, & Frymark, 2010; Morgan et al., 2012; Seubert, Fryling, Wallace, Jiminez, & Meier, 2014; Speyer, Baijens, Heijnen, & Zwijnenberg, 2010). Medelpoängen för dessa på AMSTAR var 8,25 (variation 7-10). Därutöver identifierades tolv narrativa översikter. Medelpoängen för samtliga narrativa översikter var 1,4 enligt AMSTAR-bedömningen (variation 0-6). Samtliga systematiska översikter bekräftar att det vetenskapliga underlaget är otillräckligt för att kunna ge starka behandlingsrekommendationer. Exempelvis försvårades utvärderingarna av att inkluderade studier innehöll heterogena och dåligt beskriva patientgrupper samt att olika behandlingsmetoder kombinerats i flera studier (Arvedson et al., 2010). I en cochraneöversikt (Morgan et al., 2012) konstaterades att det finns ett angeläget behov (”an urgent need”) för storskaliga randomiserade studier för att utvärdera effekten av behandling vid orofaryngeal dysfagi.

Två systematiska översikter har utvärderat behandling av salivläckage (Arvedson et al., 2010; Walshe, Smith, & Pennington, 2012a). Båda får 10 poäng på AMSTAR. Endast randomiserade och kontrollerade kliniska studier ingick i utvärderingarna och man fann inga studier kring effekter av oral sensomotorisk behandling av salivläckage som kunde inkluderas. Därutöver identifierades tre narrativa översikter med medelpoäng 4 (variation 2-5) enligt AMSTAR-bedömningen.

Tabell 2. Antal granskade primärstudier och GRADE-bedömningar uppdelat på respektive granskningsområde.

	GRADE 4	GRADE 3	GRADE 2	GRADE 1
	Starkt vetenskapligt underlag	Måttlig starkt vetenskapligt underlag	Begränsat vetenskapligt underlag	Otillräckligt vetenskapligt underlag
Talavvikelser	1	8	19	11
Sväljsvårigheter	3	3	8	8
Salivläckage/orala ovanor	0	1	2	3

Typ av intervention

Tabell 3. Interventioner vid talavvikelser, sväljsvårigheter, salivläckage och orala ovanor.

Intervention	Behandlingsinnehåll
DTTC	Dynamic Temporal and Tactile Cueing. En metod som genom samtidig produktion och taktilt stöd, stödjer och guidar barn med CAS. En föregångare till metoden är Integral stimulation (integrerad stimulering)
EPG	Elektropalatografi. En individuellt utformad gomplatta med elektroder kopplade till ett datorprogram som ger omedelbar och detaljerad feedback om kontakten tunga-gom i löpande tal.
Face former	Mjuk variant av munskärm (se nedan) som kan individanpassas.
Gomplatta	Individuellt utformad gomplatta med stimulator för ökad rörlighet och precision i tungan vid tal (särskilt dentalt/velart artikulationsställe), sväljning eller viloläge.
Integrated phonological awareness intervention	En behandlingsmetod för att öka barns fonologiska medvetenhet. Utvecklad för förskolebarn och tidig skolålder.
ISMAR*	The Innsbruck Sensorimotor Activator and Regulator. Ett individuellt utformat intraoralt hjälpmedel för att ge ökad käkstabilitet, minska tungpress och förbättra läppslutning.
LSVT, Loud	Lee Silverman Voice Treatment ofta med tillägget Loud, är en behandlingsmetod som fokuserar på ökad röststyrka och förlängd fonationstid. Ursprungligen utvecklad för patienter med Parkinson. Jmf LSVT Big
Munskärm	Ett prefabricerat eller individuellt utformat intraoralt hjälpmedel för att förbättra läppslutning, näsandning och sväljning.
*NPD3® -Nuffield Dyspraxia Program3	NPD3 är ett bildbaserat träningsprogram för barn 3-7 år. Behandlingen utgår från barnets befintliga produktion och är individualiserad. I NPD3 ingår olika verktyg för att skapa en översikt av barnets svårigheter.
NSOMT/OME/ NSOM	Non-speech Oral Motor Treatment, Oral Motor Exercises, Nonspeech Orofacial Movement. Icke talrelaterad träning eller rörelse.
OPT	Oral Placement Therapy. En taktil-proprioceptiv behandlingsteknik med syfte att ge ökad käkstabilitet, förbättrat muskelminne och säkrare oralmotorisk precision vid tal och ätande.
Oral myofunktionell behandling	Ofta en odontologisk behandling som syftar till att påverka orofacial motorik, sväljmönster och/eller tungan och läpparnas viloläge.
Oral sensomotorisk stimulering	Aktivering och ökad viljemässig kontroll av den orala muskulaturen genom sensorisk stimulering.
Oral taktil stimulering	Metod som fokuserar på sensorisk stimulering i och runt munnen. Ofta är syftet att desensibilisera vid överkänslighet i munhålan och lättutlöst kräkreflex.
PROMPT	Prompts for Restructuring Oral Muscular Phonetic Targets. En behandlingsmetod som utgår från en hierarki för talproduktion och innehåller olika taktila ledtrådar för att stimulera och förstärka målet med en rörelse.
ReST*	Rapid Syllable Transition Treatment. En behandlingsmetod som bygger på repetition av stavelser, nonord och riktiga ord. Metoden innehåller även prosodiska drag och kontraster.
Träning av andningsfunktion, fonation och talhastighet	En metod som fokuserar på andning, fonation och taltempo utvecklad för barn med cerebral pares och dysartri.

* Metoden ej introducerad i Sverige (februari 2017)

Ett stort antal behandlingsmetoder med inriktning på talmotorik, sväljfunktion samt salivläckage och orala ovanor har ingått i granskningen. Flera behandlingar innehåller även mer basala orofaciala motoriska eller sensoriska inslag, sk NSOMs (Non Speech Oral Motor (Non Speech Orofacial treatment) eller OMEs (Oral Motor Exercises) varför även dessa har granskats. I tabell 3 listas en översikt av de olika behandlingsmetoder som ingår i rapporten samt metodens akronym, innehåll och huvudsakliga fokus. Metoderna har i flera fall använts för behandling av olika patientgrupper i en och samma studie och, i några fall, för olika typer av orofaciala avvikelser.

Evidens

Tal

Sammanlagt identifierades 51 artiklar inom temat. Diagnoserna talapraxi (AOS) (vuxna), taldyspraxi (CAS)(barn), dysartri relaterat till CP, Downs syndrom (DS), CHARGE, neuromuskulär sjukdom och ospecificerad motorisk talstörning med eller utan kognitiv funktionsnedsättning förekom i materialet. Därutöver tre översiktsartiklar som granskade effekterna av NSOMT/OME relaterat till tal.

Intervention för barn, ungdomar och vuxna med talavvikelse eller taldyspraxi med eller utan ytterligare funktionsnedsättningar

Sammanfattning: Totalt 18 primärstudier och sju systematiska översikter beskriver intervention för barn, ungdomar och vuxna med taldyspraxi respektive talapraxi (vuxna personer) med eller utan ytterligare funktionsnedsättningar. I primärstudierna deltar totalt 71 barn och ungdomar som var mellan 3 och 13 år vid behandlingsstart. Ett stort antal behandlingsmetoder redovisas. Studiernas kvalitet varierar från GRADE 1 till 4.

De systematiska och narrativa översikterna bidrar med viktig information och slutsatser om olika eliciteringsstrategier, behandlingsintensitet och behandlingsmetoder för barn, ungdomar och vuxna med medfödd eller förvärvad talapraxi. I tre översikter har effekterna av OME (Oral Motor Exercises) eller *NSOMT* (Non speech oral motor treatment/therapy) på talavvikelser granskats (Kent, 2015; Lee & Gibbon, 2015; McCauley, 2009). McCauley och medarbetare granskade artiklar publicerade mellan 1960 och 2007 (McCauley, 2009). Totalt åtta artiklar rapporterade effekter av *OMEs* i behandling av barn med talavvikelser. Lee och Gibbon granskade effekterna av *NSOMTs* på avvikande /s/ och /z/ produktion (Lee & Gibbon, 2015). Endast tre studier med totalt 22 deltagare inkluderades i översikten. Kent (2015) granskade effekter av olika typer av motorisk träning på både tal och andra orofaciala funktioner som sväljning, läppslut, läpprundning mm, se tabell 2 i artikeln för en översikt (Kent, 2015). Slutsatsen i översikterna av McCauley och medarbetare och Lee och Gibbon var att det saknas underlag att både avråda och rekommendera metoden då antalet granskade studier som uppfyllde kriterierna var få och kvaliteten mycket varierande samt resultaten i studierna delvis motstridiga (Lee & Gibbon, 2015; McCauley, 2009). Kent diskuterar definitionen av en NSOMT-uppgift och beskriver ett tydligt överlapp när det gäller aktiverade neurologiska strukturer mellan tal- och andra oralmotoriska uppgifter, se tabell 4 i artikeln. Det innebär att gränsen mellan en OMS/NSOM-uppgift och en taluppgift inte är helt entydig. Han slutsats är att ett förkastande av OME/NSOMT är förhastat och saknar stöd i litteraturen (s 774). Dessutom argumenterar Kent för att flera behandlingsmetoder med dokumenterat god effekt har inslag med OME/NSOMT, det gäller exempelvis LSVT.

Maas och medarbetare granskade effekten av olika motoriska inlärningsprinciper (Maas et al., 2014). Fem olika motoriskt baserade behandlingsmetoder undersöktes: *DTTC/integrerad stimulering, ReST, NDP3, PROMPT* och olika typer av biofeedback. Gemensamt för metoderna var att de kombinerade flera olika motoriska inlärningsprinciper som hög behandlingsfrekvens

(ofta inklusive hemträning), ett relativt litet antal målljud/stavelser eller ord, feedback via olika modaliteter (t ex visuellt och taktilt) och feedback om utförande och resultat. Slutsatsen i granskningen var att *DTTC* hade högst evidens men att även de andra granskade metoderna, inklusive de med olika typer av biofeedback, visat goda resultat vilket är en grund för större jämförande randomiserade behandlingsstudier.

Översikten av DeThorne och medarbetare undersökte effekter av olika eliciteringsmetoder i intervention för barn med autism, taldyspraxi och kognitiva funktionsnedsättningar (DeThorne, Johnson, Walder, & Mahurin-Smith, 2009). Total granskades elva artiklar från 1969 till 2008. Sex eliciteringsstrategier bedömdes som effektiva enligt granskade studier, de är: Erbjuda AKK (alternativ och kompletterande kommunikation), minimera kraven att tala, imitera barnet, använda överdriven betoning och intonation, förstärkt auditiv, visuell, taktil eller proprioceptiv feedback, undvika fokus på icke talrelaterade rörelser i artikulatorerna. I översiksartikeln av Wambaugh ingår totalt 43 studier från 1973 till 2002 med sammanlagt mer än 90 vuxna deltagare med huvudsakligen förvärvad talapraxi (Wambaugh, 2002). Författaren redovisar fyra behandlingsmetoder, *PROMPT, Sound Production Treatment (SPT), 8-step continuum* och *Metronomic pacing*. Av dessa bedöms *PROMPT* och *SPT* ha något starkare vetenskapligt stöd. Effekter av *PROMT* för barn med talstörningar redovisas under primärstudierna nedan.

I en av de senare översiktsartiklarna granskade Murray och medarbetare (Murray et al., 2014) totalt 42 studier publicerade mellan 1970 och 2012. Sju olika metoder granskades varav tre rekommenderas baserat på studiernas kvalitet och resultat. De tre metoderna är *Rapid Syllable Transition Treatment (ReST), Integrerad stimulering/Dynamic Temporal and Tactile Cueing (DTTC)* och *Integrated Phonological Awareness Intervention. V*iktiga principer för metoder med bättre behandlingsresultat var behandling minst två gånger/vecka, under minst 60 minuter och med minst 60 repetitioner/behandlingstillfälle. *Integrated Phonological Awareness Intervention* bedöms inte som en sensomotorisk intervention och ingår därför inte i granskningen i denna rapport. Metoden har vissa likheter med *SPT.* I artikeln presenteras även en metaanalys av de rekommenderade metodernas effekt.

Primärstudier, metoder, patientpopulation och GRADE-nivå redovisas i tabell 4. Behandlingsresultat för *Rapid Syllable Transition Treatment (ReST)* ingår i en RCT-studie med hög kvalitet (Murray, McCabe, & Ballard, 2015) och tre multiple singel subject design studier med måttlig kvalitet (McCabe, Macdonald-D'Silva, van Rees, Ballard, & Arciuli, 2014; Thomas, McCabe, & Ballard, 2014; Ballard, Robin, McCabe, & McDonald, 2010), se tabell 6. Totalt ingår 24 deltagare mellan 4 och 12 år i studierna. Samtliga barn förbättrade talet enligt något eller samtliga utfallsmått. Därutöver ingår *ReST* i två översiktsartiklar som båda rekommenderar behandlingen för utvärdering i större RCT studier (Maas et al., 2014; Murray, McCabe & Ballard, 2014). Sammantaget anses studierna utgöra ett måttligt starkt till starkt vetenskaplig underlag. *Dynamic Temporal and Tactile Cueing (DTTC)* och *Integrerad Stimulering* ingår i en systematisk översikt (Murray, McCabe & Ballard, 2014), en narrativ översikt (Maas et al., 2014) och i ytterligare sju studier med måttlig till otillräcklig kvalitet, se tabell 4. Totalt ingår 19 deltagare i studierna. Samtliga studier visar god effekt av behandlingen för en majoritet av deltagarna. Två

studier redovisar motstridiga resultat med avseende på behandlingens utformning (blocked vs random). Eftersom DTTC fokuserar på enklare uppgifter än ReST kan metoden vara mer lämpad för barn med grava svårigheter. Sammantaget anses studierna utgöra ett begränsat till måttligt starkt vetenskapligt underlag.

Nuffield Dyspraxia Program (NDP3®) ingår i en narrativ översikt (Maas et al., 2014) och i en RCT-studie som redovisar goda resultat efter behandling (Murray, McCabe & Ballard, 2014), se tabell 4. RCT-studien har hög kvalitet och utgör ett starkt vetenskapligt underlag. Inga ytterligare granskade primärstudier där metoden använts har upptäckts. Totalt ingår 13 deltagare i studierna. Sammantaget anses underlaget utgöra ett begränsat vetenskapligt underlag för metoden.

Prompts for Restructuring Oral Muscular Phonetic Targets (PROMPT) har använts i totalt tre studier (Square, Namasivayam, Bose, Goshulak, & Hayden, 2014; Yu et al., 2014; Dale & Hayden, 2013) och en narrativ översikt (Wambaugh, 2002) som alla visat god behandlingseffekt, se tabell 4. Totalt ingår 15 barn i primärstudierna och minst 91 vuxna med talstörning i den narrativa översikten. Primärstudierna har i de flesta fall genomförts av grundare och utvecklare av metoden verksamma vid det privata PROMPT-Institutet, vilket ökar risken för att positiva resultat överskattats. Sammantaget anses studierna utgöra ett begränsat vetenskapligt underlag.

Utöver ovan beskrivna metoder som ingår i tabellen har sensomotoriska behandlingar för barn med dyspraxi beskrivits i ytterligare fyra studier med totalt 211 barn. I en studie beskrivs stimulering av specifika fonem och utvecklingen av lexikon för tre barn (Iuzzini & Forrest, 2010). I två studier beskrivs träning med gomplatta, dels för barn med ospecificerad motorisk talstörning och effekterna på talproduktion för 168 barn (Koskimies, Pahkala, & Myllykangas, 2011) samt effekter på röstkvalitet hos 38 barn (McAllister, 2003). Därutöver beskrivs en kombinerad behandling med eltandborstestimulering och EPG för ett barn med taldyspraxi (Lundeborg & McAllister, 2007). Alla fyra studierna redovisar signifikanta förbättringar men det vetenskapliga underlaget för metoderna bedöms som begränsat till lågt.

Rekommendationer:

- *ReST* rekommenderas måttligt starkt till starkt för barn med taldyspraxi.
- *DTTC* ges en begränsad till måttligt stark rekommendation för barn med taldyspraxi. Studierna innehåller få deltagare men har samstämmigt positiva resultat.
- *PROMPT* ges en begränsad rekommendation för barn, ungdomar och vuxna med SSD med eller utan inslag av dyspraxi. Ett observandum är det låga antalet deltagare i primärstudierna och att flera studier har genomförts av grundare och utvecklare av metoden verksamma vid det privata PROMPT-Institutet.
- *Nuffield Dyspraxia Program (NDP3®)* ges en begränsad rekommendation för barn och vuxna med taldyspraxi.

Tabell 4. Primärstudier med resultat för olika behandlingsmetoder och studiedesign för barn, ungdomar och vuxna med taldyspraxi, antal deltagare, ålder och GRADE-värde anges.

Referens	Intervention	Studiedesign	Antal deltagare och ålder	Typ av svårighet	GRADE
(Murray, McCabe, & Ballard, 2015)	*ReST* och *NDP3*, 4 ggr/v under 3 v	RCT	26, 4–12 år	Mild till grav taldyspraxi	4
(McCabe, Macdonald-D'Silva, van Rees, Ballard, & Arciuli, 2014)	*ReST*, 4 ggr/v i 3 v	MSSD	4, 5:5-8:6 år	Taldyspraxi	2
(Thomas, McCabe, & Ballard, 2014)	*ReST*, 2 ggr/v i 3 v	MSSD	4, 4:8-8:0 år	Taldyspraxi	2
(Ballard, Robin, McCabe, & McDonald, 2010)	Stavelserepetition (*ReST*-föregångare)	MSSD	3, 7-10 år,	Taldyspraxi	2
(Baas BS, 2008)	*DTTC*	SSD	1, 12:8 år	Taldyspraxi och CHARGE	2
(Strand, Stoeckel, & Baas, 2006)	*DTTC*	MSSD	4, 5:5-6:1 år	Taldyspraxi	2
(Maas & Farinella, 2012)	*DTTC*	MSSD	4, 5:0-7:9 år	Taldyspraxi	2
(Maas, Butalla, & Farinella, 2012)	*DTTC*	MSSD	4, 5;4-8:4 år	Taldyspraxi	2
(Skelton & Hagopian, 2014)	Variant av *DTTC*	MSSD	3, 4-6 år	Taldyspraxi	2
(Edeal & Gildersleeve-Neumann, 2011)	Variant av *DTTC*	MSSD	2, 3:4 resp 6:2 år	Taldyspraxi	1
(Strand & Debertine, 2000)	Integrerad stimulering (*DTTC)*	SSD	1, 5:9 år	Taldyspraxi	1
(Square, Namasivayam, Bose, Goshulak, & Hayden, 2014)	*PROMPT*, 2 ggr/v i 15 v	MSSD	5, 4:0-4:9 år	Speech Sound Disorder (SSD) och SSD med motoriska inslag (MSI)	3
(Yu et al., 2014)	*PROMPT*	MSSD + kontrollgrupp	6, (medel 5:1 år	SSD	3
(Dale & Hayden, 2013)	*PROMPT*, 2 ggr/v i 15 v	MSSD	4, 3:6-4:8 år	Taldyspraxi	2

Intervention för barn med dysartri på grund av central skada inklusive cerebral pares

Tre EBH rapporter har tidigare granskat olika typer av intervention vid dysartri hos barn och ungdomar med cerebral pares (Eng-Olofsson, 2007; Ferm, Nordberg, Tuominen-Eriksson, Åkerberg, 2009; Ferm, Nordberg, Åkerberg, Millgård, 2011). Den senaste uppdateringen resulterade i sex arbeten, inklusive en masteruppsats, publicerade mellan 2009 och 2011. I föreliggande rapport ingår endast vetenskapliga artiklar publicerade i tidskrifter med så kallad sakkunnig granskning (peer review). Endast studier som rapporterar effekter av oral sensomotorisk intervention vid dysartri på grund av central skada inklusive cerebral pares har granskats. Studier med patientgrupper som inte ingår i habiliteringens verksamhetsområde har exkluderats.

Sammanfattning: Totalt identifierades 11 studier och fem systematiska översikter som beskriver intervention för barn, ungdomar och vuxna med dysartri på grund av cerebral pares (CP) med eller utan ytterligare funktionsnedsättningar (autismspektrumstörning, dyspraxi, språkstörning). Primärstudierna redovisas i tabell 5. Undersökningarna representerar totalt 73 barn och ungdomar mellan 3 och 18 år vid behandlingsstart samt ett stort antal behandlingsmetoder. I två systematiska översikter ingår också ett fåtal vuxna individer. Av de systematiska översikterna bidrar endast en översikt med rekommendationer kring olika typer av intervention (Enderby, Cantrell, John, Pickstone, Fryer, Palmer, 2010). Övriga systematiska översikter lämnar inga rekommendationer på grund av bristande underlag.

De metoder som beskrivs i identifierade studier är *Lee Silverman Voice Treatment (LSVT Loud), träning av andningsfuktion, fonation och talhastighet*, *oral myofunktionell behandling*, *EPG, PROMPT, fonetisk placering* och *EMG.* Studiernas kvalitet varierar mellan GRADE 1-3, se tabell 5.

Lee Silverman Voice Treatment – Loud (LSVT Loud), beskrivs i tre studier där det totalt ingår nio barn med CP i studierna. I samtliga studier redovisas varierande resultat. Det vetenskapliga underlaget för metoden och patientgruppen bedöms därför bristande. Det låga antalet deltagare i studierna och de kopplingar några av författarna, som medverkat i samtliga tre studier, har till institutet och metoden bidrar till bedömningen.

Andningsfunktion, fonation och talhastighet har varit fokus i tre studier med totalt 37 deltagare mellan 5 och 18 år. Studierna redovisar förbättrad röstkvalitet och taluppfattbarhet. I en studie redovisas avtagande effekt av behandlingen efter sju veckor. De andra två studierna saknade långtidsuppföljning.

Oral myofunktionell behandling för att förbättrad läpp-, tung- och käkkontroll hos totalt 16 deltagare mellan 7 och 10 år. Signifikant förbättrad tydlighet i uttalet av enstaka ord. Tungfunktion och talfunktion korrelerade.

Elektropalatografi (EPG) har använts i tre studier med totalt 6 deltagare mellan 7 och 15 år. Två studier redovisar signifikanta förbättringar enligt perceptuell analys och analys av EPG-data.

Studien med ungdomar med traumatisk hjärnskada (TBI) redovisar också signifikant förbättrat tal enligt perceptuell analys vilket stödjs av EPG men förändringen gav ingen effekt i vardagen enligt föräldrarna. Rapportering om eventuella generaliseringseffekter saknas i de första två studierna.

Prompts for Restructuring Oral Muscular Phonetic Targets (PROMPT) har använts i två studier med totalt sex deltagare mellan 3 och 11 år. Studierna har, i de flesta fall, genomförts av grundare och utvecklare av metoden, verksamma vid det privata PROMPT-Institute, vilken ökar risken för att positiva resultat överskattats.

Utöver ovan beskrivna metoder har sensomotorisk behandling för ett barn med dysartri pga CP beskrivits i en studie. Behandling kallas fonetisk placering (*Phonetic placement therapy, PPT*) och kombinerades med elektromyografi (EMG) för förbättrad feedback och avspänning (Marchant, McAuliffe, & Huckabee, 2008). Författarna redovisar signifikant förbättrad talförståelighet för enstaka ord efter behandlingen.

Rekommendationer*:*

- Endast begränsade rekommendationer kan ges för *LSVT loud, EPG, Andningsfunktion, fonation och talhastighet, Oral myofunktionell behandling* samt *PROMPT* på grund av det låga antalet deltagare i studierna och delvis motstridiga resultat i studier som använt samma metod. Övriga behandlingar som ingått i granskningen bedöms sakna underlag för en rekommendation.

Tabell 5. Primärstudier med resultat för olika behandlingsmetoder och studiedesign för barn, ungdomar och vuxna med cerebral pares eller annan central skada, antal deltagare, ålder och GRADE-värde anges i tabellen.

Referens	Intervention	Studiedesign	Antal deltagare och ålder	Typ av svårighet	GRADE
Fox, 2012	LSVT loud	MSSD + kontroll grupp	5, 5-7 år	CP, kontrollgrupp kön och åldersmatchade typiskt utvecklade barn	3
Boliek & Fox, 2014	LSVT loud	MSSD	2, 10:9	CP	2
Levy, 2012	LSVT loud	Jämförande fallserie	3, 3:3, 8:10, 9:7 år,	CP, taldyspraxi	1
Pennington, Smallman, & Farrier, 2006	Andningsfunktion, fonation och talhastighet	Observations-studie	6, 10-18 år (medel 15 år)	CP	2
Miller et al., 2013	Andningsfunktion, fonation och talhastighet	Observations-studie, multipel baseline	16, 12-18 år, (medel 14 år, SD 2 år)	CP, 1 med Worster Droughts syndrom	2
Pennington et al., 2013	Andningsfunktion, fonation och talhastighet	MSSD	15, 5-11 år, medel 8 år, SD 2 år	CP, 2 med Worster Droughts syndrom	2
Ray, 2001	Oral myofunktionell behandling	MSSD	16, 7 – 10 år	CP	2
Gibbon & Wood, 2003	EPG	SSD	1, 8 år	CP	1
Morgan, Liegeois, & Occomore, 2007	EPG	MSSD	3, 14:10-15:1 år	Traumatisk hjärnskada (TBI)	1
Nordberg, Carlsson, & Lohmander, 2011	EPG	MSSD	5, 7:4 - 13:9 år medel 9:4 år	CP	1
Ward, Strauss, & Leitao, 2013	PROMPT	MSSD	6, 3-11 år	CP utan intellektuell funktionsnedsättning	3
Ward, Leitao, & Strauss, 2014	PROMPT	MSSD	6, 3-11 år	(samma som ovan)	3

Intervention för barn, ungdomar och vuxna med dysartri och Downs syndrom

Sammanfattning: Totalt identifierades sex primärstudier som beskriver intervention för barn, ungdomar och vuxna med dysartri vid Downs syndrom, se tabell 6. Studierna representerar 61 individer från 3:6 till 34 år. Tre studier beskriver behandling med *Gomplatta* ad modum Castillo Morales för totalt 57 barn. Två av dessa studier är randomiserade kontrollerade och longitudinella studier med totalt 20 barn med Downs syndrom varav 9 randomiserats till behandling med gomplatta. Samtliga barn i studierna har även erhållit språklig och oralmotorisk träning enligt Karlstadsmodellen, utvecklad av professor Irene Johansson (AB). Samtliga tre studier redovisar positiva effekter på tal eller på delfunktioner som kan vara viktiga för tal t ex läpprundning eller tunglyft. Gomplattans bidrag till att dessa funktioner överförs till spontantalet är dock oklar. Därutöver identifierades två studier med totalt åtta deltagare där *EPG* använts i behandlingen av barn och ungdomar med Downs syndrom. Båda studierna rapporterar ökad tydlighet och förbättrad artikulation enligt EPG och perceptuell analys för 5/6 respektive för båda deltagarna.

En studie beskriver resultatet efter behandling med *LSVT Loud* för två vuxna deltagare med Downs syndrom. Efter behandling erhölls förbättrad/ökad röststyrka och förbättrad röstkvalitet hos båda deltagarna och ökad uppfattbarhet och tydlighet i talet hos en deltagare.

Rekommendationer:

- *Gomplatta* ges en måttligt stark rekommenderas för barn med Downs syndrom om syftet är att stimulera en specifik aktivitet eller ett artikulationsställe.
- *LSVT och EPG* lämnas utan rekommendation på grund av det sammanlagda låga antalet deltagare i de granskade studierna.

Tabell 6. Primärstudier med resultat för olika behandlingsmetoder och studiedesign för barn, ungdomar och vuxna med cerebral pares eller annan central skada, antal deltagare, ålder och GRADE-värde.

Referens	Intervention	Studiedesign	Antal deltagare och ålder	Typ av svårighet	GRADE
Carlstedt, Henningsson, McAllister, & Dahllöf, 2001	Gomplatta	RCT	20, 5:6 år +/- 1.5 år, varav nio behandlade med gomplatta	Downs syndrom	3
Carlstedt, Henningsson, & Dahllöf, 2003	Gomplatta	RCT (longitudinell studie)	Samma barn som ovan, ålder 9:6 år +/- 1.5 år	Downs syndrom	3
Bäckman, Grever-Sjölander, Bengtsson, Persson, & Johansson, 2007	Gomplatta	Observations-studie. Två kontrollgrupper	37, 48 mån +/-6 mån med Downs syndrom. Två kontrollgrupper: barn med Downs syndrom utan gomplatta och typiskt utvecklade barn	Downs syndrom	2
Cleland, Timmins, Wood, Hardcastle, & Wishart, 2009	EPG	Fallserie	6, 10:1 – 18:9 år	Downs syndrom	2
Wood, Wishart, Hardcastle, Cleland, & Timmins, 2009	EPG	Fallserie	2, 11:7 & 14:11 år,	Downs syndrom	1
Mahler & Jones, 2012	LSVT loud	MSSD	**2 vuxna**, 33 & 34 år	Downs syndrom	2

Intervention för barn, ungdomar och vuxna med dysartri och neuromuskulär sjukdom

Sammanfattning: Endast en studie identifierades som beskriver intervention för åtta barn och ungdomar mellan 7 och 19 år med diagnosen dysartri pga dystrofia myotonika (Sjögreen, Tulinius, Kiliaridis, & Lohmander, 2010). I studien beskrivs behandling med munskärm. Syftet var att stärka läppmuskulaturen, förbättra läpprörelser i talproduktion och generellt, förbättra ätfunktion och salivkontroll. Resultatet visade att 7/8 ökade läppstyrka, varav 4 signifikant. Ökad läppstyrka ledde inte automatiskt till ökad funktion. Det var en stor variation i gruppen avseende effekter på talproduktion. Inga resultat relaterat till vuxna har identifierats.

Rekommendationer:

- Ingen rekommendation kan ges pga det begränsade underlaget.

Sväljning

Tjugotvå primärstudier har identifierats som utvärderar oral sensomotorisk behandling associerat med sväljsvårigheter. Studierna inkluderar sammanlagt 579 forskningspersoner. Elva av dessa studier visade sig vid närmare granskning inte ha sväljning som utfallsmått utan endast

någon specifik del av sväljfunktionen, här benämnd ”del av funktion”. Dessa studier redovisas därför för sig i tabell 8.

Intervention för barn, ungdomar och vuxna med sväljsvårigheter orsakad av medfödda funktionsnedsättningar

Behandling av sväljsvårigheter hos personer med olika medfödda funktionsnedsättningar har utvärderats i tio studier. Sammanlagt ingick 257 personer varav tre vuxna. I ett flertal studier kombineras oral sensomotorisk stimulering (med eller utan redskap) med ät- och sväljträning. Den orala sensomotoriska stimuleringen utgör oftast en del av ett behandlingskoncept där olika typer av måltidsanpassningar ingår. Studierna redovisas i tabell 7.

Tjugo barn med cerebral pares och måttliga sväljsvårigheter fick under ett års tid behandling med *ISMAR*. Tio av dessa randomiserades till att vara kontroller och fick avvakta med att påbörja behandlingen. Förmågan att äta med sked, bita av, tugga, dricka ur mugg och svälja förbättrades under behandlingsperioden (ett år). Framstegen var signifikant större än vad som kunde förväntas av den spontana mognaden. I en uppföljningsstudie sågs däremot ingen skillnad i slutresultat mellan patienter som fått behandlingen i två år och kontrollgruppen som avslutat behandlingen efter ett år.

Att använda *EPG* som biofeedback vid sväljträning visade sig vara effektivt i en MSSD-studie med tre deltagare. Två av tre uppfyllde sina mål helt och en delvis. Underlaget är dock otillräckligt för att kunna ge någon rekommendation.

I fem interventionsstudier med totalt 119 barn mellan 4 månader och 15 år med ätovilja (food refusal) fokuseras behandlingen på *oral taktil stimulering* men den kombineras ofta med andra insatser som t ex sväljträning och beteendemodifikation. I en studie behandlades 45 barn som hade grava sväljsvårigheter med intraoral taktil stimulering. Före påbörjad behandling var de helt beroende av artificiell nutrition. Vid uppföljning 1-2 år senare kunde nästan alla (93 %) äta fulla mål per os. Samtliga studier där interventionen varit oral taktil stimulering redovisar ett signifikant positivt resultat. Ingen av studierna har redovisat någon kontrollgrupp men de samstämmiga resultaten ligger till grund för en begränsad rekommendation.

Rekommendationer:

- Begränsad rekommendation för intervention med en kombination av ät- och sväljträning och oral sensomotorisk stimulering vid sväljsvårigheter orsakade av medfödda funktionsnedsättningar.
- Måttligt stark rekommendation att använda ISMAR för behandling av måttliga sväljsvårigheter hos barn med cerebral pares. Behandlingseffekten förväntas uppnås inom ett år och beror sannolikt på en förbättrad käkstabilitet. En av medförfattarna är grundare till metoden.
- Begränsad rekommendation ges när det gäller oral taktil stimulering vid sväljsvårigheter. Det vetenskapliga underlaget är begränsat pga avsaknad av kontrollgrupper. Samstämmiga och signifikanta positiva resultat ligger till grund för rekommendationen.

Tabell 7. Behandlingsmetoder för personer med sväljsvårigheter orsakade av medfödda funktionsnedsättningar, studiedesign, deltagare och studiekvalitet.

Referens	Intervention	Studiedesign	Antal deltagare & ålder	Typ av svårighet	GRADE
Haberfellner, Schwartz, & Gisel, 2001	ISMAR	RCT	20, 4,2-13,1 år varav 10 kontroller	CP, måttliga sväljsvårigheter	4
Gisel, Haberfellner, & Schwartz, 2001	ISMAR (uppföljning)	Observations-studie med kontrollgrupp	17, 6-15 år varav 8 kontroller	CP, måttliga sväljsvårigheter	3
Mantie-Kozlowski & Pitt, 2014	EPG (biofeedback vid sväljning)	MSSD	3 flickor/kvinnor, 8, 21, 44 år	Oralmotorisk funktionsnedsättning	3
Schwarz, Corredor, Fisher-Medina, Cohen, & Rabinowitz, 2001	Sväljträning, måltidsanpassning	Observations-studie utan kontrollgrupp	79 barn	Sväljsvårigheter	2
Clawson, Kuchinski, & Bach, 2007	Sväljträning, oral sensomotorisk stimulering	Observations-studie utan kontrollgrupp.	18, 18 mån-4,7 år	CP (spastisk diplegi)	1
Cha, Oh, & Shim, 2010	Sväljträning och oral sensomotorisk stimulering	Fallstudie	Man, 25 år,	Spinal muskelatrofi (SMA II)	1
Lamm, De Felice, & Cargan, 2005	Oral taktil stimulering	Observations-studie utan kontrollgrupp	45, 4mån-9,2 år.	Beroende av artificiell nutrition.	2
Gibbons, Williams, & Riegel, 2007	Oral taktil stimulering	SSD	1 barn,	Downs syndrom	2
Bailey & Angell, 2005	Oral taktil stimulering	Observations-studie utan kontrollgrupp	3, 11-15 år	Intellektuell funktionsnedsättning	1
Tamura et al., 2011	Oral taktil stimulering	Observations-studie utan kontrollgrupp	67, 6,5 år,	Funktionsnedsättning	1
Clawson, Palinski, & Elliott, 2006	Oral taktil stimulering	Fallserie	3 barn,	Goldenhar syndrom och gastrostomi	1

Intervention för barn, ungdomar och vuxna med sväljsvårigheter orsakade av medfödda funktionsnedsättningar – studier med del av funktion (se figur 4) som utfallsmått

Elva studier med sammanlagt 322 deltagare (varav tre vuxna) har haft som syfte att stärka enskilda muskelgrupper som kan förväntas ha effekt på sväljningsfunktionen. Det återstår dock att bevisa att så är fallet (Kent, 2015). Den orala sensomotoriska stimuleringen har utförts med eller utan specifika träningsredskap. Fokus för interventionen kan exempelvis vara att påverka sväljningsmönster, viloposition av läppar och tunga, bitkraft eller bettutveckling. I studierna ingår barn och ungdomar med orofaciala funktionsnedsättningar av olika svårighetsgrad. Flertalet har Downs syndrom, se tabell 8.

Gomplatta har använts för oral sensomotorisk behandling av barn och ungdomar med Downs syndrom i tre studier med måttligt starkt bevisvärde. Alla tre studierna redovisar positiv inverkan på läpp- och tungfunktion jämfört med kontrollgrupper. I tre interventionsstudier har styrketräning av läppar genomförts med *munskärm eller Faceformer* (variant av munskärm). Fyra av åtta barn och ungdomar med dystrofia myotonika blev signifikant starkare jämfört med baseline i en studie med måttligt starkt bevisvärde. Fyrtiofem barn och ungdomar med oralmotorisk funktionsnedsättning fick oral sensomotorisk behandling (ospecificerad) och 26 av dessa fick i tillägg träning med Face Former. Samtliga deltagare i studien fick förbättrad orofacial funktion men de som även fick behandling med Face Former uppnådde snabbare ett positivt resultat. I en observationsstudie utan kontrollgrupp fick 50 barn med cerebral pares, Downs syndrom och utvecklingsstörning antingen träna med munskärm eller med gomplatta. Båda träningsredskapen ledde till en positiv utveckling av orofacial funktion. En utökning av träningstiden gav bättre effekt. De uppnådda resultaten var stabila hos 44,6 % av barnen 3 mån efter avslutad behandling. Två barn med funktionsnedsättning De som ingick i en MSSD-studie utvecklade sin tuggförmåga och kunde äta en mer varierad kost efter avslutad *tuggträning*.

I en observationsstudie med kontrollgrupp ingick 76 barn och ungdomar som fått *tandreglering* pga öppet bett varav 27 även fick oral myofunktionell behandling som bestod av korrigering av orofacial viloposition samt sväljmönster. Risken för att bettet skulle öppna sig igen efter avslutad tandreglering minskade markant hos gruppen som fått träning.

Rekommendationer:

- Måttligt stark rekommendation att använda gomplatta för behandling av nedsatt läpp- och tungfunktion hos barn och ungdomar med Downs syndrom.
- Begränsad till måttligt stark rekommendation för oral sensomotorisk stimulering (med eller utan redskap) som syftar till att aktivera och stärka läppar, tunga och tuggmuskler hos barn och unga med orofacial funktionsnedsättning.
- Begränsad rekommendation för oral sensomotorisk stimulering efter tandreglering av öppet bett för att minska risken för att bettet skulle öppna sig igen efter avslutad tandreglering.

Tabell 8. Behandlingsmetoder för personer med sväljsvårigheter orsakade av medfödda funktionsnedsättningar – studier med del av funktion som utfallsmått, studiedesign, antal deltagare, patientgrupp och bevisvärde.

Referens	Intervention	Studiedesign	Antal deltagare och ålder	Typ av svårighet	GRADE
Carlstedt et al., 2003	Gomplatta (uppföljning)	RCT	20, 5:6 år +/- 1.5 år varav 11 kontroller	Downs syndrom	4
Carlstedt et al., 2001	Gomplatta	RCT	20, 9:6 år +/- 1.5 år, varav 11 kontroller	Downs syndrom	4
Korbmacher, Limbrock, & Kahl-Nieke, 2004	Gomplatta	Observations-studie utan kontrollgrupp.	20 barn	Downs syndrom	2
Alacam & Kolcuoğlu, 2007	Gomplatta eller munskärm.	Observations-studie utan kontrollgrupp	50, 3-7 år	Cerebral pares (31), Downs syndrom (6), intellektuell funktionsneds. (13)	2
Sjögreen et al., 2010	Munskärm.	MSSD	8, 7-17 år,	Dystrofia myotonika	3
Korbmacher, Schwan, Berndsen, Bull, & Kahl-Nieke, 2004	Munskärm (Face former)	Observations-studie med kontrollgrupp	45, 3-16 år varav 19 kontroller.	Oralmotorisk funktionsnedsättning	2
Smithpeter & Covell, 2010	Oral myofunktionell behandling	Observations-studie med kontrollgrupp	76 ungdomar fick tandreglering varav 27 även oral myofunktionell behandling	Öppet bett	2
Saccomanno et al., 2012	Oral myofunktionell behandling och ortodonti	Observations-studie utan kontrollgrupp	23, 5-17 år	Avvikande sväljmönster	1
Eckman, Williams, Riegel, & Paul, 2008	Tuggträning	MSSD	2, 5 och 9 år	Downs syndrom och flerfunktionshinder	2
Green, 2013	Oral myofunktionell behandling	Fallstudie	Flicka 9 år	Avvikande sväljmönster	1
Giuca, Pasini, Pagano, Mummolo, & Vanni, 2008	OMT (sensorisk stimulering av tungan)	Observations-studie utan kontrollgrupp	57, 5-13 år	Avvikande sväljmönster	1

Salivläckage och orala ovanor

Intervention för barn, ungdomar och vuxna med salivläckage och orala ovanor

Sex interventionsstudier som berör oral sensomotorisk behandling av salivläckage har granskats. I dessa studier ingår sammanlagt 312 barn och ungdomar 3-17 år. Sökningen har inte kunnat identifiera några studier som inkluderar vuxna. De diagnoser som finns representerade är cerebral pares (n=56), Downs syndrom (n=74), utvecklingsstörning (n=14) och talmotoriska svårigheter och/eller andra orofacial funktionsnedsättningar (n=168). I samtliga studier ingår behandling med någon form av intraoralt träningsredskap, oftast gomplatta, se tabell 9.

I två systematiska översiktsartiklar (Arvedson et al., 2010; Walshe, Smith, & Pennington, 2012b) konkluderar författarna att det saknades starkt vetenskapligt underlag för val av oral sensomotorisk intervention vid salivläckage.

Gomplatta används isolerat eller tillsammans med annan typ av oral sensomotorisk stimulering i fem interventionsstudier. I samtliga dessa redovisas en positiv effekt i form av ökad salivkontroll. I en observationsstudie med kontrollgrupp som inkluderade 68 barn med Downs syndrom såg man en distinkt förbättring av salivkontrollen jämfört med initiala förhållanden. Behandling med gomplatta mot salivläckage hos barn och ungdomar med cerebral pares har utvärderats i två observationsstudier utan kontrollgrupp. Båda studierna redovisar positiv effekt. Även när det gäller barn och ungdomar med andra funktionsnedsättningar såsom utvecklingsstörning och påverkan på orofacial motorik och sensorik redovisas ökad salivkontroll efter behandling med gomplatta men studierna har metodologiska brister vilket påverkar bevisvärdet.

Behandling med *ISMAR* hade god effekt på sex barn och ungdomar med cerebral pares som fullföljde en observationsstudie utan kontrollgrupp. Studien hade ett stort bortfall (n=12). En av medförfattarna är grundare av metoden.

Rekommendationer:

- Måttligt stark rekommendation att använda gomplatta för behandling av salivläckage hos barn och ungdomar med Downs syndrom, cerebral pares, intellektuell funktionsnedsättning och/eller orofaciala funktionsnedsättningar. Samstämmigheten mellan tillgängliga studier höjer det sammanlagda bevisvärdet.
- Ingen rekommendation kan ges när det gäller behandling av salivläckage med ISMAR på grund av otillräckligt vetenskapligt underlag.

Tabell 9. Behandlingsmetoder för barn och ungdomar med salivläckage, studiedesign, antal deltagare, patientgrupp och bevisvärde.

Referens	Intervention	Studiedesign	Antal deltagare och ålder	Typ av svårighet	GRADE
Zavaglia, Nori, & Mansour, 2003	Gomplatta	Observations-studie med kontrollgrupp	68 barn varav 28 bedömdes ha behov av gomplatta	Downs syndrom	3
Alacam & Kolcuoğlu, 2007	Gomplatta alt. munskärm	Observations-studie utan kontrollgrupp	50, 3-7 år;	CP (31), Downs syndrom (6), intellektuell funktionsnedsättning (13)	2
Gerek & Çiyiltepe, 2005	Gomplatta	Observations-studie utan kontrollgrupp	7, 8-17 år	CP	2
Koskimies et al., 2011	Gomplatta	Retrospektiv observations-studie utan kontrollgrupp	168, 4-14 år	Talstörning och/eller oralmotorisk funktionsnedsättning	1
Pani & Hegde, 2007	Gomplatta	Fallstudie	1, 12 år	Intellektuell funktionsnedsättning	1
Johnson et al., 2004	ISMAR	Observations-studie utan kontrollgrupp	18, 4-13 år, 6 fullföljde studien	CP	1

Analys av effektstorlek

Tal

Endast i ett fåtal av de granskade studierna har författarna gjort statistiska beräkningar av hur stor effekten av behandlingen är. Cohens d har använts i en kontrollerad randomiserad studie med totalt 26 deltagare (54). Effekten av båda metoderna visar god effekt enligt Cohens d. Ett värde > .80 brukar anges som gränsvärde för betydande effekt (Cohen, 1988). Effekten för *ReST* efter avslutad behandling var d=1,312 och för *NDP3* d=2,162. Vid uppföljningen efter en vecka och fyra månader hade barnen som behandlats med *ReST* fortsatt att förbättras ytterligare. Effekten vid fyra månader var svag till måttlig enligt Cohens d= .463. Barnen som behandlats med *NDP3* fortsatte inte att förbättras. Vid uppföljningen efter fyra månader fann man en försämring jämfört med när behandlingen avslutats. Effekten var måttlig, d= -.688.

I studier med få deltagare rapporteras vanligen behandlingseffekten i termer av antalet förbättrade individer. Studier med sk single subject eller multiple single subject design (SSD,

MSSD) använder upprepade baslinjemätningar av deltagarens utgångsvärde av någon funktion relaterat till behandlingen som en kontroll på förbättringen. Ofta beräknas den procentuella förbättringen för individen jämfört med utgångsvärdet enligt ett genomsnitt av de upprepade baslinjemätningarna.

Effekten av olika behandlingsmetoder skattas även i några översiktsartiklar. Murray och medarbetare (2014) gjorde en första metaanalys genom att analysera konfidensintervall för några av de granskade metoderna, se tabell 4 i artikeln (Murray et al., 2014). Deras slutsats är att *DTTC/Intergral stimulation, ReST* och *Integrated Phonological Awareness* redovisade måttliga till betydande behandlingseffekter och små till betydande generaliseringseffekter. De påpekar dock att antalet behandlade individer dessa slutsatser baseras på är litet.

Motoriska Inlärningsprinciper (MIP)

För de metoder som erhållit någon rekommendation i rapporten genomfördes även en granskning av motoriska inlärningsprinciper och effekter av olika typer av feedback baserat på erfarenheter från generell motorisk inlärning (Maas et al., 2008). Vid motorisk träning har flera forskare poängterat vikten av att de behandlingsuppgifter som utförs liknar de verkliga rörelserna och funktionerna så mycket som möjligt för att ha bästa möjliga effekt (kallas ofta task specificity). De motoriska inlärningsprinciper som ingått i granskningen är 1) antal behandlingstillfällen/v, 2) totalt antal behandlingstillfällen, 3) längd/behandlingstillfälle (min), 4) antal repetitioner/behandlingstillfälle, 5) behandlingsupplägg; varierad eller ensidig träning, 6) typ av uppgifter (enkla/komplexa), 7) vem har genomfört interventionen, 8) typ av feedback, 9) generaliseringseffekter och 10) långtidsuppföljning, se tabell 10 och 11.

Motoriska inlärningsprinciper – Tal

För tal rapporteras om motoriska inlärningsprinciper relaterat till sju behandlingsmetoder: *ReST, DTTC, PROMPT, LSVT Loud, gomplatta och andra intraorala hjälpmedel, elektropalatografi* (*EPG*) och *Nuffield Dyspraxia Program 3 - NPD3®,* se tabell 10.

Genomgående för samtliga granskade behandlingsmetoder är täta behandlingar med upp till fyra gånger/vecka i klinik (*ReST, DTTC, NPD3*) eller regelbundna uppföljningar på klinik och dagliga korta behandlingstillfällen, upp till tre gånger/dag, utförda i hemmet under handledning av logoped (*DTTC, PROMPT, LSVT Loud, Gomplatta, EPG*). Det totala antalet behandlingstillfällen som utgör underlag för ett positivt resultat varierar mycket kraftigt i de granskade studierna, från 12 till över 2000. Det högre värdet kommer från en longitudinell studie av behandling med gomplatta för barn med Downs syndrom som följts från 6 till 48 månader (Carlstedt et al., 2003). I studierna ingår olika patientgrupper. Studierna som rapporterar ett högre totalt antal behandlingstillfällen har ofta inkluderat barn med medfödda och kognitiva funktionsnedsättningar (Dale & Hayden, 2013; Yu et al., 2014)

Behandlingsupplägg och typ av uppgifter beskrivs om varierat (*ReST, DTTC, PROMPT, LSVT Loud, NPD3*) och med först enkla och sedan successivt ökad komplexitet (*ReST, DTTC, LSVT Loud, NPD3*). För behandling med gomplatta och EPG beskrivs träningen som ensidig och med enkla uppgifter. Behandlingen har utförts av logoped, logopedstudent, skolpersonal och föräldrar enbart och i olika kombinationer. Det innebär också att miljön där behandlingen utförts varierat mellan klinik, skola och hemmiljö. För flera av metoderna har en kombination av flera miljöer rapporterats för att öka behandlingsfrekvensen (*DTTC, PROMPT, LSVT Loud, Gomplatta, EPG*).

Systematisk feedback och typ av feedback beskrivs inte för alla granskade metoder. Vid behandling med EPG får barnet omedelbar visuell feedback. Om logopeden även förstärkt den visuella feedbacken muntligt vid de kliniska besöken beskrivs inte men anses troligt. Flera av de senare studierna har systematiserat feedback genom upprättade scheman med successivt minskad feedback och ökad egen kontroll (*ReST, DTTC, LSVT Loud, NPD3).*

Generaliseringseffekter till icke-tränade uppgifter, ord eller fraser är ett tecken på behandlingseffektivitet (McReynolds, 1983; Murray et al., 2014; Schmidt, 2011). Generaliseringseffekter rapporteras för *ReST, DTTC, PROMPT* och *NDP3*. För *LSVT Loud* rapporteras varierande generaliseringseffekter utanför träningssituationen för både röststyrka och talproduktion. För *gomplatta* och *EPG* rapporteras inga generaliseringseffekter eller endast produktion av målord eller målfonem utan gomplatta eller EPG-platta in situ, inne i munnen.

Långtidsuppföljning av hur uppnådda behandlingsresultat står sig över tid, efter avslutad behandling, har genomförts för samtliga granskade metoder i en eller flera studier. Längden för dessa långtidsuppföljningar varierar från 3 månader/12 veckor (*DTTC, PROMPT, LSVT Loud*) och till fyra år för behandling med gomplatta för barn med Downs syndrom.

Tabell 10. Motoriska inlärningsprinciper som förekommer i de högst rankade metoderna för behandling av talavvikelser i rapporten. Antal studier som utgör underlag för respektive metod =n.

	ReST, n=6	**DTTC, n=9**	**PROMPT, n=7**	**LSVT Loud, n=4**	**Gomplatta, intraorala hjälpmedel, n=5**	**EPG, n=6**	**NPD3®, n=2**
Behandlingstillfällen/v	4	1-4; daglig	1-2 + läxa	4 + läxa	1; 2-3 ggr/dag	2-5 + läxa	4
Totalt antal behandlingstillfällen	12	9; 40-50	14-40	16	16->2000	14; 24; 40	12
Längd/behandlings-tillfälle (min)	60	30-60	45	60 + 5-15 /dag hemma	<30	15; 45; 60 + 10-15 /dag hemma	60
Repetitioner/ behandlingstillfälle	Ca 100	>60	20-40	>15			Ca 100
Behandlingsupplägg varierad/ensidig	Varierad	Varierad; enstaka ord, fraser	Varierad	Ensidig och varierad	Ensidig	Ensidig	Varierad
Typ av uppgifter (enkla/komplexa)	Enkla och komplexa	Enkla, ökad komplexitet	Enkla	Ökande svårighets grad	Enkla	Enkla	Enkla och komplexa
Vem har utfört behandlingen?	Log/log stud	Log, lärare, förälder	Logoped, förälder	Logoped, förälder; logoped	Förälder, handledning av log	Logoped, förälder	Log/log stud
Var har behandlingen genomförts?	Klinik, skola	Klinik, skola, hemma	Klinik, hemma	Klinik, hemma	Hemma	Klinik, hemma	Klinik, skola
Typ av feedback	Enligt schema	Utförande och resultat; successivt utglesad	Randomiserad feedback; omedelbar feedback	Feedback om röststyrka; successivt utglesad, ökat eget ansvar	Sensorisk	Visuell	Enligt schema
Generaliserings-effekter	Ja	Ja	Ja	Varierande		Bedömt för målord vid produk-tion utan EPG	Ja
Långtidsuppföljning*	4 mån	3 mån	12 v	12 v	4 år	6 mån	4 mån

*Anger den längsta långtidsuppföljning som genomförts för metoden. OBS att några studier kan sakna långtidsuppföljning

Motoriska inlärningsprinciper – Sväljsvårigheter, salivläckage och orala ovanor

För sväljsvårigheter och salivläckage rapporteras om motoriska inlärningsprinciper relaterat till tre behandlingsmetoder: *ISMAR*, *oral taktil stimulering* samt och *gomplatta och munskärm*, se tabell 11. Behandling med intraorala träningsredskap kräver inte alltid aktiv medverkan av patienten vilket gör att det ofta är möjligt att stimulera den orala sensomotoriken samtidigt som barnet utför andra aktiviteter. ISMAR fungerar även under sömn. I tabell 11 anges den rekommenderade träningsfrekvensen och inte det faktiska utfallet. Även för denna typ av motorisk träning rekommenderas daglig träning. För de intra orala hjälpmedlen ISMAR och gomplatta erhålls ett stort antal träningstillfällen. Antalet repetitioner/träningstillfälle är inte känt.

Tabell 11. Motoriska inlärningsprinciper som förekommer i de högst rankade metoderna vid behandling av sväljsvårigheter och salivläckage i rapporten. Antal studier som utgör underlag för respektive metod =n.

	ISMAR, n=3	**Oral taktil stimulering, n=5**	**Gomplatta; munskärm, n=11**
Antal behandlingstillfällen/v	7	28-35	14-21
Totalt antal behandlingstillfällen	365-730	35-175; fortsatt träning i samband med måltid	240->2000
Längd/behandlingstillfälle	Hela natten och/eller dagen	15-30 min	3-10 min (munskärm), 1 tim (gomplatta)
Behandlingsupplägg varierad/ensidig	Passiv användning, ensidig	Oftast ensidig	Passiv eller aktiv användning, ensidig
Vem har utfört behandlingen?	Vårdnadshavare, personal	Vårdnadshavare, personal	Vårdnadshavare
Var har behandlingen genomförts?	Hem, vårdhem, skola	Klinik, hem	Hem och skola
Långtidsuppföljning*	1 år	2 år	4 år

*Anger den längsta långtidsuppföljning som genomförts för metoden. OBS att några studier kan sakna långtidsuppföljning

Långtidsuppföljning av hur uppnådda behandlingsresultat står sig över tid har genomförts för samtliga granskade metoder i en eller flera studier. Tiden för uppföljning varierar mellan 1 och fyra år.

Diskussion

Insatser inom habiliteringen regleras i Hälso- och sjukvårdslagen (Socialdepartementet, 1982) som stadgar att landstingen ska erbjuda invånarna habilitering och rehabilitering och hjälpmedel. Vad som erbjuds och vilka patientgrupper som omfattas är dock inte helt entydigt och har tolkats olika i olika landsting. I denna rapport har en vidare inklusion gjorts vilket kan innebära att patientgrupper som inte omfattas av habiliteringens insatser i det enskilda landstinget ingår i granskningen.

Litteratursökningen genererade ett mycket stort antal träffar initialt varav 100 studier kvarstod i den slutliga granskningen. Deltagarna i merparten av de identifierade studierna var barn. Resultatet i rapporten, relaterat till vuxna inom habiliteringens patientgrupper, tyder på en mycket stor brist när det gäller studier av intervention för vuxna. Det har gjort att rekommendationer relaterat till vuxna med olika orofaciala funktionsnedsättningar till stor del saknas i rapporten.

Talstörningar var det område med störst antal granskade studier. Totalt 51 artiklar utgjorde slutligen underlag för rekommendationerna i rapporten. Inom området salivläckage och orala ovanor identifierades initialt ett stort antal studier som reflekterar en hög forskningsaktivitet inom området men merparten av dessa studier har fokuserat på andra typer av intervention som kirurgi eller medicinering. Det innebar att antalet studier som kvarstod i den slutliga granskningen var lägst inom området salivläckage och orala ovanor.

I föreliggande rapport har studiernas kvalitet graderats enligt rekommendationerna från SBU och GRADE (SBU, 2014a, 2014b). I GRADE utgör kostnader relaterat till genomförandet av en behandling en egen bedömningsfaktor (Roback, 2009). Kostnaderna för att genomföra en behandlingsmetod har inte beaktats i värderingen av metoden i denna rapport.

I rapporten har det vetenskapliga underlaget för olika typer av intervention vid tal- och andra oralsensomotoriska avvikelser hos barn och vuxna inom habiliteringen granskats men, som tidigare nämnts, inkluderar den evidensbaserade praktiken även andra kunskapskällor såsom ”personens situation och kontextuella omständigheter”, ”personens erfarenhet och önskemål” samt ”professionell expertis”. I diskussionen kring resultaten i rapporten försöker vi väva in även dess delar.

Ytterligare en faktor som påverkar behandlingsresultatet och den slutliga värderingen av en metod är att flera behandlingsupplägg är omgivningsrelaterade och därmed svårare att utvärdera. Flera av de granskade artiklarna rapporterar resultat från interventioner där flera olika metoder kombinerats. Designen är oftast sådan att metoderna kombineras redan från start vilket gör det svårt att värdera det enskilda bidraget av en enskild metod. Studierna kan även innehålla flera olika utfallsmått och patientgrupper vilket sammantaget försvårar tolkningen av resultaten relaterat till patientgrupp och möjligheten att formulera en rekommendation. Inom några områden har flera studier som använt samma metod identifierats. Flera av dessa studier har få deltagare och ibland brister i kvalitet men rapporterar

samstämmiga resultat vilket ansetts till viss del kompensera för den bristande vetenskapliga kvalitén.

När underlaget vad gäller antalet studier och antalet behandlade individer är tillräckligt stort kan metaanalyser av behandlingseffekten genomföras. Metaanalyser av metoders behandlingseffekt är viktiga eftersom de genom att kombinera och analysera resultaten från flera studier för en patientgrupp kan identifiera viktiga och verkningsfulla behandlingsprinciper (Higgins & Green, 2011) och ge ett samlat effektmått för en metod. I denna rapport har en ansats till en sådan analys genomförts genom att identifierade motoriska inlärningsprinciper för olika metoder lyfts fram, se tabell 10 och 11.

De flesta granskade metoderna är väl spridda och utbildningar har anordnats i Sverige eller i något grannland. Det gäller dock inte alla och tyvärr inte för den metod som ges den högsta rekommendationen för behandling av barn med taldyspraxi, *ReST*, där vi ännu inte haft något utbildningstillfälle i Sverige. I de granskade studierna där metoden använts har den endast beskrivits översiktligt. Den mest grundläggande beskrivningen finns i den första artikeln från 2010 (Ballard et al., 2010). I artikeln beskrivs metoden så här:

" Our treatment approach was guided by the PML (Principles of Motor Learning – motoriska inlärningsprinciper, rapportförfattarnas kommentar) *approach in the choice of complex and varied stimuli, high-intensity practice, random order of stimulus presentation during practice, and low frequency of KR* (Knowledge of Results – feedback om resultatet, rapportförfattarnas kommentar) *feedback. Stimulus complexity was defined by number of syllables and different phonemes in a string (Schneider & Frens, 2005). High-complexity stimuli were novel four syllable strings with three different consonants and vowels (e.g., butagitu), midcomplexity stimuli were three-syllable varied strings (e.g., butagi), and low-complexity stimuli were three-syllable strings with varied consonants (e.g., bataga)."*

Metoden innehåller även träning av olika prosodiska drag som kontrasterande ord- och satsbetoning. Nyligen publicerades videoinstruktioner för metoden på Sydney Universitets hemsida (McCabe, Thomas, Murray, Crocco, Madill, 2017).

Patient- och anhörigperspektiv - motivation

Kommunikation, nutrition och salivkontroll är vardagliga funktioner som kan påverkas av oralsensomotoriska avvikelser. Både patienter och nära anhöriga lyfter ofta fram dessa funktioner som extra viktiga för livskvalitén (Hallberg & Klingberg, 2007; Johnson et al., 2014; Sjögreen, Mogren, Andersson-Norinder, & Bratel, 2015) vilket är ett starkt motiv för att använda och utveckla effektiva behandlingsmetoder för denna patientgrupp. Dessa vardagsnära funktioner är också extremt viktiga för delaktighet och samvaro med andra människor. För många kan det vara stigmatiserande och exkluderande att inte kunna kommunicera med tal, kontrollera sin saliv, ha svårt att svälja, tugga med öppen mun eller hosta i samband med måltid. Vi kan få en uppfattning om vårdnadshavare och anhörigas

upplevelser och erfarenheter av orofaciala sensomotoriska svårigheter och intervention för barn eller anhöriga med talavvikelser, sväljsvårigheter eller salivläckage och orala ovanor genom olika enkäter och frågeformulär (Lefton-Greif et al., 2014). De rapporterar att tre huvudsakliga problemområden identifierades i en enkät (the Feeding/Swallowing Impact Survey - FS-IS) till vårdnadshavare med barn med sväljsvårigheter dagliga aktiviteter, oro och ätsvårigheter, se tabell 2 i artikeln. I en svensk databasstudie som inkluderade personer med olika sällsynta diagnoser framkom att föräldrar till barn med salivläckage upplevde detta som ett mycket stort problem (Sjögreen et al., 2015). Problemet med salivläckage skattades vara större för föräldrarna än för barnen. Nedsatt oral sensomotorisk funktion med och salivläckage innebär ofta stora svårigheter att upprätthålla en god munhygien med halitosis (dålig andedräkt) som följd. För personer med olika typer av orofaciala funktionsnedsättningar kan insatser via det statliga eller landstingsfinansierade tandvårdsstödet vara en viktig hjälp (Socialstyrelsen 2017). En god munhygien är särskilt viktig för personer med orofaciala svårigheter, sväljproblem och salivläckage.

Förmågan att kommunicera effektivt, inklusive att tala, lyssna och förstå samt läsa och skriva är viktiga för att kunna ta till sig information och förmedla egna önskemål relaterat till vårdgivare och planerade behandlingsinsatser. Personer med tal- och kommunikationssvårigheter är ofta mer missnöjda med sina vårdinsatser än personer utan sådana svårigheter (Hoffman et al., 2005). Studien pekar på hur grundläggande tal- och kommunikationsförmågan är för individen och att vårdgivare ofta känner sig osäkra när det gäller bemötande och kommunikation med personer med dessa problem. Det är lätt att det blir en envägskommunikation där patienten inte ges möjlighet att respondera och uttrycka sin uppfattning och sina önskemål.

Det är också viktigt att dokumentera effekter av en förbättrad funktion i patientens vardag. De flesta studier rapporterar effekter studerade med olika test före och efter utförd behandling, i några fall har en kontrollgrupp inkluderats som inte fått den studerade behandlingen men mycket få studier rapporterar vad den förbättrade funktionen innebär för patient och närstående i vardagen. Inom vården har vi blivit alltmer medvetna om att det är viktigt att efterfråga patient och anhörigas uppfattning om den vård som tillhandahålls, sk PREM (Patient Reported Experience Measures) och PROM (Patient Reported Outcome Measures) som beskriver hur patienten värderar vården hen erhållit respektive upplever sin hälsa och livskvalitet (Lindblom, 2013). Instrument som skattar PREM och PROM inkluderas i de flesta svenska kvalitetsregister. För att kontinuerligt följa upplevd hälsa och skattning av erhållna vårdinsatser har den nationella sidan *Mina vårdkontakter* via 1177 föreslagits som en nod (Hultgren). I de granskade studierna i denna rapport har författarna oftast utvärderat en behandling med ett diagnosspecifikt instrument på kliniken. Mätningarna har genomförts före respektive efter avslutad behandling. Klinikern får då specifik information om framsteg och eventuella kvarstående svårigheter som kan vara viktiga i den fortsatta behandlingen. Samtidigt finns en risk att effekterna av insatserna i patientens vardag över- eller underskattas och att funktioner som kan vara viktiga helt missas. Ett resurseffektivt sätt att utvärdera effekter av en insats kan vara att inkludera ett ålder- och patientövergripande instrument. Therapy Outcome

Measures (TOM) är ett sådant instrument som utvecklats för att övergripande utvärdera behandlingsinsatser relaterat till kroppsfunktion, aktivitet och delaktighet oberoende av ålder och diagnos (Enderby, John & Petheram, 2006). TOM används för att utvärdera funktion, aktivitet och delaktighet inom områdena tal, språk, ät och svälj samt kommunikation inom HabQ som är ett kvalitetsregister för uppföljning av barn och ungdomar med cerebral pares och autismspektrumstörningar ("Nationellt kvalitetsregister för habilitering,"). Patientens funktion aktivitet och delaktighet jämförs med motsvarande hos jämnåriga personer med typisk utveckling, vilket ibland upplevts som problematiskt.

Professionell expertis

Det är främst logopeder som ansvarar för utredning och behandling av tal- och oralsensomotoriska avvikelser. Ofta sker det dock i samarbete med andra medlemmar i habiliteringsteamet och med tandvården. På många orter organiseras den oralsensomotoriska behandlingen inom ramarna för ett oralmotoriskt team. Som framgår av denna rapport är det vetenskapliga underlaget bristfälligt när det gäller många interventionsmetoder och för många patientgrupper inom habiliteringens verksamheter. Inte minst gäller detta för behandling av vuxna patienter. Den professionella expertisen och den samlade kliniska erfarenheten utgör därför även fortsättningsvis en viktig del av evidensen kring utredning och behandling av tal- och oralsensomotoriska avvikelser. Faktum kvarstår att vi behöver satsa mer resurser på att systematiskt utvärdera nya och gamla behandlingsmetoder.

Under sökprocessen framkom några narrativa studier där författarna redogör för sina mångåriga kliniska erfarenheter. Både Haberfellner (2005) och Giesel (2008) redovisar många års erfarenhet av behandling med intraorala träningsredskap såsom ISMAR (Innsbruck Sensory Motor Activators and Regulators) och munskärm (Haberfellner, 2005; Giesel, 2008). Crysdale och medarbetare redogör för kliniska erfarenheter från behandling av 1487 patienter med bristande salivkontroll (Crysdale et al., 2006). Här lyfts den oralmotoriska behandlingen fram som den primära insatsen även om flertalet patienter även erbjuds andra åtgärder som t ex medicinering eller kirurgi för att minska salivproduktionen (Crysdale et al., 2006). Durvasula och medarbetare framhåller särskilt vikten av att det finns ett engagerat multidisciplinärt team som samarbetar kring utredning och behandling av barn med sväljsvårigheter (Durvasula, O'Neill, & Richter, 2014). Dusick identifierar sex områden som behöver uppmärksammas vid behandling av barn med sväljsvårigheter: normalisering av kroppshållning och positionering, kostanpassning, ätredskap, oralmotorisk träning, ätträning, kosttillägg och hantering av associerade tillstånd (Dusick, 2003). Tandvårdens roll när det gäller behandling av tuggsvårigheter hos personer med Downs syndrom lyfts fram i en narrativ översikt av Faulks och medarbetare (Faulks, Mazille, Collado, Veyrune & Hennequin, 2008). Manikam redogör för de vanligaste orsakerna till sväljsvårigheter hos barn och menar att en majoritet av barnen kan bli bra eller förbättras påtagligt med hjälp av medicinsk behandling, oralmotorisk behandling och beteendeterapi (Manikam, 2000). De narrativa översikterna, liksom de systematiska översikterna, framhåller ofta behovet av starkare vetenskaplig evidens när det gäller oralsensomotorisk intervention vid sväljsvårigheter (Harding & Cockerill, 2015; Altman, 2012; Snider, Majnemer & Darsaklis, 2011). I flera studier argumenterar författarna för vikten av

multiprofessionella team och en flexibilitet och lyhördhet gentemot patient och anhörigas önskemål och behandlingsmetoder. Ofta kommenteras även komplexiteten vid utredning och behandling av sväljsvårigheter hos barn (Martin, 2009; Altman 2012; Hegeland & Murry, 2013, Harding & Cockerill, 2015; Gisel, 2008).

För behandling av tal identifierades fyra narrativa översikter som rapporterar om principer för motorisk inlärning, eliciteringsstrategier och effekter av generell oralmotorisk träning. De Thorne och medarbetare fokuserade på olika strategier för facilitering och elicitiering av tal under den tidiga talutvecklingen för barn som inte imiterar (DeThorne et al., 2009). De identifierar sex strategier med rapporterat god effekt: 1. tillhandahålla AKK, 2. minimera krav att producera tal, 3. imitera barnet, 4. Använda överdriven intonation och ett långsamt tempo, 5. Förstärka auditiv, visuell, taktil och proprioceptiv feedback, 6. Fokusera på funktion och undvika icke talrelaterade motoriska uppgifter (se tabell 1 i artikeln). Wambaugh gav en bred översikt över olika behandlingsalternativ primärt för vuxna med förvärvade svårigheter och ett mindre antal studier av barn med taldyspraxi (Wambaugh, 2002). Flera av de metoder som granskats i artikeln ligger till grund för, eller är identiska med metoder som ingår i denna rapport (se tabell 1 i artikeln). I två studier undersöktes generella motoriska inlärningsprinciper respektive effekter av NSOMT på tal (Maas et al., 2008; Kent, 2015). Kent granskade även definitioner av NSOMT och rapporterade behandlingsresultat relaterat till NSOMT och en mängd olika orofaciala funktionsnedsättningar inklusive talstörningar.

Överförbarhet

Syftet med uppdraget var att granska det vetenskapliga underlaget för olika typer av intervention vid tal- och oralsensomotoriska avvikelser hos barn och vuxna inom habiliteringen. I sökprocessen exkluderades därför interventionsstudier gällande patienter med stroke, Parkinsons sjukdom, multipel skleros m fl. Det kan dock inte uteslutas att kunskap som framkommit i samband med interventionsstudier av oral sensomotorisk behandling vid förvärvade skador (stroke m fl) kan vara överförbar till patienter med medfödda funktionsnedsättningar. Som exempel kan nämnas behandling av sväljsvårigheter enligt the McNeill Dysphagia Therapy Program (Carnaby-Mann & Crary, 2010; Crary, Carnaby, LaGorio, & Carvajal, 2012), Orofacial regulationsterapi (Hägg & Larsson, 2004) eller behandling med intraorala träningsredskap (Hägg & Tibbling, 2015). Även andningsträning mot motstånd, sk Expiratory Muscle Strength Training (EMST) har visat signifikanta resultat för personer med sväljproblem och Parkinsons sjukdom (Troche et al., 2010; Troche, Rosenbek, Okun, & Sapienza, 2014).

I det kliniska arbetet med patienter som har tal- och sväljsvårigheter utgör den oralsensomotoriska behandlingen endast en del av mer omfattande habiliteringsinsatser. Exempel på andra insatser är handledning av föräldrar och personal när det gäller oralsensomotoriska insatser, utprovning och förskrivning av hjälpmedel och introducering av AKK (figur 1). Ofta är insatserna från och samarbetet med andra teammedlemmar helt

avgörande för en framgångsrik habilitering (Wade, 2016). Det innebär att utvärderingen baseras på ett kompositmått bestående av flera olika insatser. Det är därför svårt att utvärdera en enskild insats. Även när det gäller interventionsstudier av en enskild träningsmetod är det svårt att helt bortse från effekten av andra insatser. I ett flertal studier i den här rapporten har man dessutom medvetet kombinerat den oralsensomotoriska träningen med andra åtgärder som t ex beteendemodifikation och/eller måltidsanpassning av olika slag. Något annat som bör beaktas är att flertalet studier består av heterogena patientgrupper både vad gäller medicinsk grunddiagnos och graden av oralmotorisk påverkan. När så har varit möjligt har våra rekommendationer gällt enskilda patientgrupper. De vanligaste diagnoserna inom barn- och ungdomshabiliteringen där det är aktuellt med oralsensomotorisk behandling är cerebral pares och Downs syndrom och det är också dessa patientgrupper som oftast varit aktuella för olika interventionsstudier. Vi har inte funnit några studier där man jämfört effekten mellan olika patientgrupper. Huruvida erfarenheter från en patientgrupp/åldersgrupp är överförbar till en annan patientgrupp/åldersgrupp är inte känt i nuläget.

Komorbiditet

Det finns en dokumenterad heterogenitet bland barn med utvecklingsrelaterade avvikelser som ofta reflekterar olika styrkor och svagheter hos individen vilka kan vara viktiga att beakta relaterat till omhändertagande och behandling (Zwaigenbaum, Bryson, & Garon, 2013). Flera av de patientgrupper som ingår i de granskade studierna har inte bara en motorisk funktionsnedsättning utan kan även ha svårigheter inom andra områden som kognition, språk, minnesfunktioner eller neuropsykiatri. Två svenska longitudinella studier rapporterar en hög grad av komorbiditet hos individer med språkstörning och senare identifierade neuropsykiatriska funktionsnedsättningar (Hagberg, Miniscalco, & Gillberg, 2010; Miniscalco, Nygren, Hagberg, Kadesjo, & Gillberg, 2006). Flera studier har också visat en samvariation mellan språkliga och motoriska svårigheter hos barn med språkstörning (DiDonato Brumbach & Goffman, 2014; Hill, 2001; Zelaznik & Goffman, 2010) liksom generella och specifika minnesproblem och procedurinlärning. Att tala är en komplex motorisk aktivitet som kräver samverkan och planering av flera sensomotoriska system som t ex koordination och kontroll av andning, fonation och artikulation. Termen interartikulatorisk koordination har föreslagits för att beskriva den komplexitet och timing som krävs i denna samordning (Lubker, 1977; Löfqvist, 1980). Problem med interartikulatorisk koordination har noterats inom flera grupper med talmotoriska avvikelser, t ex vid taldyspraxi hos barn (Moss & Grigos, 2012) och personer med stamning (DeNil, 1995). Utöver den komplexa och precisa motoriska aktiviteten innehåller tal ett språkligt budskap som planeras på olika nivåer vilket föregår det motoriska utförandet. Inom logopedi skiljer vi på svårigheter som påverkar tal respektive språk. Talstörningar påverkar uttalet och det sensomotoriska utförandet av det språkliga budskapet. Personer med avvikande tal behöver inte ha en språkstörning, men, som nämnts tidigare har flera studier visat att det finns en betydande komorbiditet mellan tal- och språkstörning hos barn (DiDonato Brumbach & Goffman, 2014; Hagberg et al., 2010; Hill, 2001; Miniscalco et al., 2006; Zelaznik & Goffman, 2010).

Cerebral pares är en bred diagnos med olika etiologi och varierande kliniska manifestationer (Jiang et al., 2013; Pakula, Van Naarden Braun, & Yeargin-Allsopp, 2009). I en svensk studie fann man att barn med cerebral pares hade en ökad förekomst av språkliga svårigheter utöver motoriska problem (Nordberg, Dahlgren Sandberg, & Miniscalco, 2015). Registerstudier från USA har identifierat en ökad komorbiditet med autismspektrumstörningar och epilepsi hos barn med cerebral pares (Kirby et al., 2011). För barn med autismspektrumstörning (ASD) rapporterar en svensk registerstudie en mer än trefaldig ökning av antalet barn 2-17 år som diagnostiseras med ASD från 2001 till 2011 (Idring et al., 2015). Barn med ASD har ofta andra funktionsnedsättningar inklusive motoriska avvikelser (Tierney et al., 2015).

Det är således viktigt med en bred utredning av barn med talstörningar, sväljsvårigheter och svårigheter med salivkontroll. För barn med talstörningar bör utredningen även innefatta språk, minne och auditiva funktioner. Vid misstanke om kognitiva eller neuropsykiatriska avvikelser bör flera inom teamet involveras. En bred utredning utgör grunden för en lämplig individuell behandlingsplan.

Personer med ytterligare funktionsnedsättningar kan behöva fler behandlingstillfällen för att en förändring av ett etablerat beteende ska ske (Carlstedt et al., 2003; Haberfellner et al., 2001). Arbetsinsatsen kan vara viktigt att kommunicera till vårdnadshavare, skola, förskola och eventuella assistenter så att förväntningarna på resultat från en intervention inte blir orealistiska och att både patient och vårdnadshavare är medvetna om att det ofta kräver uthållighet för att uppnå en förändring. Insatsens omfattning måste också vägas mot patientens vilja, förståelse och motivation. Samtidigt är det viktigt att kommunicera att systematiska behandlingsinsatser har god effekt även för barn i tonåren vilket framkommer för flera metoder i denna rapport.

Kunskapsluckor

Vi kan konstatera att mycket återstår att göra när det gäller interventionsstudier vid tal- och oralsensomotoriska avvikelser hos barn och vuxna inom habiliteringen. Det finns behandlings-metoder som idag används i klinisk praxis som är ofullständigt eller inte alls beforskade. Två sådana exempel är OPT (Oral Placement Therapy) respektive NSOMT (Non Speech oral Motor Treatment/Therapy). NSOMT studerades nyligen i en Cochrane review (Lee, Gibbon 2015). Författarnas slutsats var att underlaget för eller emot användandet av NSOMT i behandling av barn med talstörningar är bristande och delvis motstridigt. Bristen på publicerade studier av en metod kan inte likställas med bristande effekter av behandling enligt metoden utan innebär endast att vi inte vet om metoden ger effekt eller inte. I översikten av Kent beskriver författaren hur den neurologisk aktivering vid tal- och motsvarande icketalrelaterade uppgifter överlappar (Kent, 2015). Det innebär att gränsen mellan en OMS/NSOM-uppgift respektive en taluppgift är flytande. Hans slutsats är att ett förkastande av OME/NSOMs är förhastat och saknar stöd i litteraturen (s 774). Det innebär också att det finns ett stort behov av behandlingsstudier för att vederlägga eller påvisa effekter av OMS/NSOMs relaterat till tal.

I introduktionen diskuterades trögheten i den kliniska implementeringen av nya forskningsresultat. Det innebär att det tar onödigt lång tid för metoder med dokumenterad effekt att introduceras i det kliniska patientarbetet. En bidragande faktor kan vara att metoder utan, eller med osäker effekt introducerats. Ur ett resursperspektiv, både för vårdapparaten och patient och anhöriga, är det bättre att avvakta med införandet av en ny och obeforskad behandling då felaktiga rekommendationer kan leda till användning av metoder som inte är effektiva (Aaron, 2005). Detta skall inte tolkas som att vi skall avstå från att utveckla nya och kanske effektivare behandlingsmetoder utan att vi skall prioritera klinisk forskning för att utvärdera effekterna av en behandling. Hur informationen från olika kunskapskällor sedan vägs samman bestäms av lagstiftning, riktlinjer och sammanställning av lokal kunskap.

Kvalitén i de granskade studierna varierar. Flertalet interventionsstudier saknar kontrollgrupp eller uppvisar andra allvarliga brister när det gäller urval, studiedesign, redovisning av behandlingsmetod, utfallsmått, statistiska metoder etc. I några fall har en eller flera av författarna även ekonomiska intressen i att förespråka den undersökta metoden. Det är naturligt att de som utvecklat en metod är de första att studera och rapportera om dess effekter men det är viktigt att dessa resultat sedan studeras och verifieras eller vederläggs av oberoende forskare. För att få fram fler och bättre interventionsstudier vid tal- och oralsensomotoriska avvikelser hos barn och vuxna inom habiliteringen förordar vi en satsning på multicenterstudier inklusive utveckling av reliabla och valida utvärderingsinstrument.

Motoriska inlärningsprinciper

Baserat på granskningen av metoder med begränsat till starkt vetenskapligt underlag har några viktiga motoriska inlärningsprinciper identifierats. Dessa överensstämmer väl med principer som ansetts viktiga generellt för motorisk inlärning. I litteraturen har flera forskare diskuterat hur generella principer för motorisk inlärning kan överföras till tal (Kent, 2015; Maas et al., 2008; E. Strand, 1995) och till sväljning (Sheppard, 2008). Tal innehåller flera dimensioner utöver den motoriska koordination, precision och sensorisk feedback som krävs för att utföra och anpassa rörelserna som krävs för att tala, kontrollera röststyrka och tonhöjd mm, för en översikt se Ludlow et al 2008 (Ludlow et al., 2008) eller Maas et al 2008 (Maas et al., 2008). Komplexiteten har gjort att de generella principerna för motorisk inlärning ibland ifrågasatt i relation till talproduktion. Studierna i denna rapport bekräftar vikten av flera av de generell motoriska inlärningsprinciperna även i behandling av talavvikelser. Dessutom betonas vikten av att välja behandlingsuppgifter som ligger så nära de verkliga funktionerna man vill uppnå som möjligt.

Genomgående för samtliga rekommenderade behandlingsmetoder är täta behandlingar med upp till fyra gånger/vecka på klinik (*ReST, DTTC, NPD3*) ofta kombinerat med dagliga korta behandlingstillfällen, upp till tre gånger/dag, utförda i hemmet (*DTTC, PROMPT, LSVT loud, Gomplatta, EPG*). Det totala antalet behandlingstillfällen som utgör underlag för ett positivt resultat varierar mycket kraftigt i de granskade studierna, från 12 till över 2000. Det högre

värdet kommer från en longitudinell studie av behandling med gomplatta och rekommenderad daglig träning, för barn med Downs syndrom, som följts från 6 till 48 månader (Carlstedt et al., 2003) Studierna som rapporterar ett högre totalt antal behandlingstillfällen har ofta inkluderat barn med medfödda och kognitiva funktionsnedsättningar (Baas, 2008; Carlstedt et al., 2003). Vid behandling med gomplatta för barn med Downs syndrom har utvärderingen ofta fokuserat på någon specifik del av talet som t ex ett artikulationsställe eller en specifik funktion i talet som läpprundning. Överföringen av dessa färdigheter till spontantal kunde inte påvisas i den longitudinella studien av nio barn med Downs syndrom.

I flera studier har författare argumenterat för att metoder som visar effekt, som kvarstår och generaliseras till andra språkliga kontexter eller situationer efter avslutad träning, är de som visar god behandlingseffekt och god effektivitet (McReynolds, 1983; Murray et al., 2014). I denna rapport gäller det flera av de rekommenderade behandlingsmetoderna vid talstörningar, se tabell 10. För några behandlingsmetoder har behandlingseffekten analyserats med något effektmått, t ex Cohens d. Det gäller den randomiserade studien som jämfört effekten av två olika metoder *ReST* och *NDP3.* Båda metoderna visar en betydande effekt av behandlingen efter avslutad behandling. För *ReST* fortsätter förbättringen även efter avslutad behandling medan barnen som behandlades med *NDP3* gick tillbaka. Det skulle kunna tolkas som att barnen som behandlades med *ReST,* och fick mer utmanande och varierade taluppgifter, fick anstränga sig mer vilket ledde till en mer bestående förändring.

Goda behandlingsresultat har även visats i översiktsartiklar av behandlingsstudier för vuxna med förvärvade sensomotoriska avvikelser. Palmer och Enderby undersökte effekter av intervention för vuxna med stabil dysartri (Palmer & Enderby, 2007). Deras genomgång visade positiva effekter efter flera olika typer av intervention med det gemensamt att de fokuserar på oral- och/eller talmotorisk funktion, resonans, artikulation, prosodi och talhastighet. Det kan inte uteslutas att kunskap som framkommit i samband med interventionsstudier av oral sensomotorisk behandling vid förvärvade skador som stroke eller traumatisk hjärnskada kan vara överförbar till patienter med medfödda funktionsnedsättningar (Carnaby-Mann & Crary, 2010; Crary et al., 2012; Hägg & Larsson, 2004; Hägg & Tibbling, 2015).

För sväljsvårigheter och salivläckage rapporteras om motoriska inlärningsprinciper relaterat till tre behandlingsmetoder: *ISMAR*, *oral taktil stimulering* samt och *gomplatta och munskärm* (se tabell 11). Behandling med intraorala träningsredskap kräver inte alltid en aktiv medverkan vilket gör att det den kan användas samtidigt som barnet utför andra aktiviteter. ISMAR rekommenderas även att användas nattetid. Även för denna typ av sensomotorisk intervention rekommenderas daglig träning. I studierna som granskats erhålls ett stort till mycket stort antal träningstillfällen för de intra orala hjälpmedlen ISMAR och gomplatta då behandlingen i några fall pågått i flera år (Carlstedt et al 2003). Antalet repetitioner/träningstillfällen är inte känt.

Slutdatum för inkluderade studier var 29 februari, 2016. Under hösten 2016 publicerades en översiktsartikel som granskat behandlingsintensitet för barn med talstörning (SSD och CAS). Författarnas slutsats var att behandlingsintensitet tycks vara viktigare än själva behandlingsmetoden (Kaipa & Peterson, 2016). Liknande tolkningar görs även av Maas och

medarbetare (Maas et al., 2014) i deras översiktsartikel av effekten av fem motoriskt baserade behandlingar samt i översiktsartikeln av intervention för vuxna med dysartri av Palmer och Enderby (Palmer & Enderby, 2007). En slutsats, baserad på dessa studier, som inkluderar både barn och vuxna, med medfödda respektive förvärvade sensomotoriska orofaciala svårigheter, är att den övergripande principen är behandlingsintensitet. Den höga behandlingsintensiteten torde även underlätta lagringen av minnen kopplade till utförandet vilket utgör basen för en förändring (Gray et al., 2017).

Framtida forskningsbehov

Frånvaron av studier som även inkluderar vuxna deltagare är påfallande. Totalt ingår endast ett fåtal studier med vuxna deltagare i rapporten. Därutöver visar bristen på rekommendationer inom flera patientkategorier att underlaget av publicerade behandlingsstudier är litet. I flera fall är det inte troligt att det föreligger en brist på patienter utan andra faktorer, som ofta beskrivs i relation till behandlingsstudier över tid som t ex kooperation, faktorer i patientens omgivning eller personliga faktorer och tidsbrist som kan vara viktiga förklaringar.

Det kan finnas ytterligare förklaringar till att antalet studier är lågt. Kommunikationen med patienter med tal- och ofta även språkliga svårigheter försvåras. Det gör att dessa grupper ofta inte inkluderas i olika studier kring omhändertagande och upplevelse relaterat till en vårdsituation. En stor amerikansk studie visade att personer med tal- och kommunikationssvårigheter var mycket mer missnöjda med vårdinsatser och omhändertagande än personer utan dessa svårigheter (Hoffman et al., 2005).

Utifrån vad som framkommit i denna rapport finns det några områden som är särskilt eftersatta. Det gäller behandling av dysartri hos barn, ungdomar och vuxna med cerebral pares eller annan kongenital eller tidigt förvärvad skada eller sjukdom, sensomotoriskbehandling av salivläckage hos barn, ungdomar och vuxna samt behandling av sväljsvårigheter hos barn som är beroende av artificiell nutrition. Interventionsstudier som involverar vuxna med tal- och oralsensomotoriska avvikelser inom habiliteringens verksamhet saknades nästan helt och pekar på ett mycket stort behov att undersöka effekter av behandling hos vuxna med väl etablerade motoriska mönster.

Pågående forskningsprojekt

Nationellt och internationellt pågår flera större och mindre studier där sensomotorisk intervention för olika patientgrupper ingår som en del (eg http://ki.se/clintec/forskarutbildning-i-logopedi). I flera av projekten planeras single subject design studier eller multipel single case studies (MSSD) med mer än en deltagare. I metoden ingår att utföra upprepade baslinjemätningar och kontinuerliga uppföljningar och mätningar med tränade uppgifter och så kallade testord (probes) för att följa den individuella utvecklingen relaterat till en behandling. Denna typ av studier kan ge information av vilka metoder som är lämpade för större, helst

randomiserade studier, på gruppnivå. Behovet av väl genomförda större randomiserade studier påtalas ofta i litteraturen. Samtidigt behöver vi arbeta systematiskt, exempelvis genom att rapportera resultatet av enstaka patientfall, för att identifiera lämpliga och potentiellt verksamma metoder för mer omfattande behandlingsstudier, så kallade Fas III studier (Murray et al., 2015).

Inom svensk logopedi finns ett ökat intresse för forskning inom tal och oral sensomotorisk funktion. Flera pågående doktorandprojekt är inriktade på talmotoriska störningar eller sväljsvårigheter (http://www.hh.se/akademinforhalsaochvalfard/forskarutbildningihalsaochlivsstil/viardoktorandernaihalsaochlivsstil.65443493.html). Därutöver känner vi till två projekt där logopeder och tandläkare samarbetar med planering av RCT-studier för utvärdering av behandling av sväljsvårigheter med munskärm inom äldrevården (http://aldretandvard.se/forskning/). Baserat på de identifierade motoriska inlärningsprinciperna i rapporten kan förhoppningsvis resultaten från dessa studier vara vägledande även för behandling av patienter inom habiliteringens verksamhetsområde.

För patienter med sällsynta tillstånd och ovanliga diagnoser krävs ofta ett internationellt samarbete då kompetensen och patientunderlag inom det egna landstinget eller landet kan vara bristfällig. Enligt den svenska definitionen innebär en ovanlig diagnos, sjukdom eller skada ett tillstånd som finns hos högst 100 personer per miljon invånare och leder till omfattande funktionsnedsättning (Socialstyrelsen, 2010).

Slutsatser

- Jämfört med tidigare EBH-rapporter med logopedisk inriktning finns en ökning av antalet kontrollerade randomiserade studier och mer omfattande översiktsartiklar.
- Antalet deltagare är lågt i de flesta studierna, medel för antalet deltagare i primärstudierna med fokus på tal var 12 (sd 27,2), sväljning 26 (sd 25,7), salivläckage och orala vanor 23 (sd 62,4).
- Många studier som utvärderar tal och oralsensomotorisk behandling uppvisar goda resultat men har metodologiska brister.
- Interventionsstudier som involverar vuxna med tal och oralsensomotoriska avvikelser och ingår inom habiliteringens verksamhet saknas nästan helt
- Få studier har utvärderat sensomotorisk behandling av salivläckage
- Merparten av de studier som identifierats när det gäller sväljsvårigheter och salivläckage utvärderar oralsensomotorisk behandling med gomplatta och liknande individuellt utformade intraorala träningsredskap
- Det krävs fler studier och studier med högt bevisvärde för att kunna ge starka rekommendationer avseende oralsensomotorisk intervention.

- För att ytterligare studera effekterna av behandlingsinsatser för olika patientgrupper inom habilitering krävs ett systematiskt arbete genom nationella kvalitetsregister, utvecklingsarbeten och forskning

Rapporten bekräftar behovet av randomiserade och kontrollerade studier när det gäller tal- och oralsensomotorisk behandling inom habiliteringsverksamheten, vilket tidigare påtalats i flera systematiska översikter (McCauley, 2009; Morgan et al., 2012; Morgan & Vogel, 2008, 2009; Walshe et al., 2012a). Till skillnad från de flesta systematiska översikterna vi granskat har vi i den här rapporten tagit med alla relevanta studier, publicerade i tidskrifter med sakkunnig granskning, som kommit fram vid sökningen, oavsett evidensgrad. Det vi ser är att flertalet studier redovisar positiva resultat, vilket kan bero på sk publiceringsbias vilket i några fall också påverkat graderingen.

Vi har förhoppningen att denna rapport skall sätta ljuset på några behandlingsmetoder som bör utvärderas ytterligare av oberoende forskare med lämpliga metoder. För att en potentiellt effektiv metod ska få ökad spridning och användning i vården måste evidens för dess effekter studeras, granskas och presenteras av oberoende forskare.

Referenser

Studier markerade med * rapporterar effekter av någon sensomotorisk behandling relaterat till de tre granskade områdena i rapporten.

Aarons, G. A. (2005). Measuring provider attitudes toward evidence-based practice: consideration of organizational context and individual differences. *Child Adolesc Psychiatr Clin N Am, 14*(2), 255-271, viii. doi:10.1016/j.chc.2004.04.008

*Alacam, A., & Kolcuoğlu, N. (2007). Effects of two types of appliances on orofacial dysfunctions of disabled children. *The British Journal of Developmental Disabilities, 53*(105), 111-123.

*Altman, K.W. (2012). Oropharyngeal dysphagia pathophysiology, complications and science-based interventions. *Nestle Nutr Inst Workshop Ser*, 72, 119-26. doi: 10.1159/000340000. Epub 2012 Sep 24.

*Arvedson, J., Clark, H., Lazarus, C., Schooling, T., & Frymark, T. (2010). The effects of oral-motor exercises on swallowing in children: an evidence-based systematic review. *Dev Med Child Neurol, 52*(11), 1000-1013. doi:10.1111/j.1469-8749.2010.03707.x

ASHA. (2016). Evidence Maps. Retrieved from http://www.asha.org/Evidence-Maps/

Atkins, D., Best, D., Briss, P. A., Eccles, M., Falck-Ytter, Y., Flottorp, S., . . . Group, G. W. (2004). Grading quality of evidence and strength of recommendations. *BMJ, 328*(7454), 1490. doi:10.1136/bmj.328.7454.1490

*Baas BS, Strand, E., Elmer, L.M. & Barbaresi, W.J. (2008). Treatment of severe childhood apraxia of speech in a 12-year-old male with CHARGE association. *Journal of medical speech-language pathology, 16*(4), 181-190.

Backman, E., Eberhart, B., Gustafsson, C., Holck, P., Häggström Qvist, C., Lindberger, L., . . . Ragnar, C. (2015). *Metoder för att stimulera språk och kommunikation hos barn, ungdomar och vuxna inom habiliteringen*. Retrieved from http://habiliteringisverige.se/ebh/sprak/dokument/sprak.pdf

*Bailey, R. L., & Angell, M. E. (2005). Effects of an Oral-Sensory/Oral-Motor Stimulation/Positive Reinforcement Program on the Acceptance of Nonpreferred Foods by Youth with Physical and Multiple Disabilities. *Physical disabilities: Education and related serices*, 41-61.

*Ballard, K. J., Robin, D. A., McCabe, P., & McDonald, J. (2010). A treatment for dysprosody in childhood apraxia of speech. *J Speech Lang Hear Res, 53*(5), 1227-1245. doi:10.1044/1092-4388(2010/09-0130)

Bishop, D. V. (2010). Which neurodevelopmental disorders get researched and why? *PLoS One, 5*(11), e15112. doi:10.1371/journal.pone.0015112

*Boliek, C. A., & Fox, C. M. (2014). Individual and environmental contributions to treatment outcomes following a neuroplasticity-principled speech treatment (LSVT LOUD) in children with dysarthria secondary to cerebral palsy: a case study review. *Int J Speech Lang Pathol, 16*(4), 372-385. doi:10.3109/17549507.2014.917438

*Bäckman, B., Grever-Sjölander, A. C., Bengtsson, K., Persson, J., & Johansson, I. (2007). Children with Down syndrome: oral development and morphology after use of palatal plates between 6 and 48 months of age. *Int J Paediatr Dent, 17*(1), 19-28. doi:10.1111/j.1365-263X.2006.00781.x

*Carlstedt, K., Henningsson, G., & Dahllöf, G. (2003). A four-year longitudinal study of palatal plate therapy in children with Down syndrome: effects on oral motor function, articulation and communication preferences. *Acta Odontol Scand, 61*(1), 39-46.

*Carlstedt, K., Henningsson, G., McAllister, A., & Dahllöf, G. (2001). Long-term effects of palatal plate therapy on oral motor function in children with Down syndrome evaluated by video registration. *Acta Odontol Scand, 59*(2), 63-68.

Carnaby-Mann, G. D., & Crary, M. A. (2010). McNeill dysphagia therapy program: a case-control study. *Arch Phys Med Rehabil, 91*(5), 743-749. doi:10.1016/j.apmr.2010.01.013

*Cha, T. H., Oh, D. W., & Shim, J. H. (2010). Noninvasive treatment strategy for swallowing problems related to prolonged nonoral feeding in spinal muscular atrophy type II. *Dysphagia, 25*(3), 261-264. doi:10.1007/s00455-009-9269-1

*Clawson, E. P., Kuchinski, K. S., & Bach, R. (2007). Use of behavioral interventions and parent education to address feeding difficulties in young children with spastic diplegic cerebral palsy. *NeuroRehabilitation, 22*(5), 397-406.

*Clawson, E. P., Palinski, K. S., & Elliott, C. A. (2006). Outcome of intensive oral motor and behavioural interventions for feeding difficulties in three children with Goldenhar Syndrome. *Pediatr Rehabil, 9*(1), 65-75. doi:10.1080/13638490500144809

*Cleland, J., Timmins, C., Wood, S. E., Hardcastle, W. J., & Wishart, J. G. (2009). Electropalatographic therapy for children and young people with Down's syndrome. *Clin Linguist Phon, 23*(12), 926-939. doi:10.3109/02699200903061776

*Dusick, A. (2003). Investigation and management of dysphagia. *Semin Pediatr Neurol*, 10 (4), 255–264.

Green, S., Higgins, JPT (2011). Cochrane Handbook for Systematic Reviews of Interventions. Version 5.1.0. Retrieved from http://handbook.cochrane.org/front_page.htm .

Cohen, J. (1988). *Statistical Power Analysis for the Behavioral Sciences (2nd Edition). ISBN-10: 0805802835* (2:a upplagan ed.). USA: Lawrence Erlbaum Associates.

Crary, M. A., Carnaby, G. D., LaGorio, L. A., & Carvajal, P. J. (2012). Functional and physiological outcomes from an exercise-based dysphagia therapy: a pilot investigation of the McNeill Dysphagia Therapy Program. *Arch Phys Med Rehabil, 93*(7), 1173-1178. doi:10.1016/j.apmr.2011.11.008

*Crysdale, W. S., McCann, C., Roske, L., Joseph, M., Semenuk, D., & Chait, P. (2006). Saliva control issues in the neurologically challenged. A 30 year experience in team management. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 70*(3), 519-527. doi:10.1016/j.ijporl.2005.07.021

*Dale, P.S. & Hayden, D.A. (2013). Treating speech subsystems in childhood apraxia of speech with tactual input: the PROMPT approach. *Am J Speech Lang Pathol, 22*(4), 644-661. doi:10.1044/1058-0360(2013/12-0055)

Deming, W. E. (1986). *Out of Crisis*. Cambridge, Massachusetts: Cambridge University Press.

DeNil, L. F. (1995). The influence of phonetic context on temporal sequencing of upper lip, lower lip, and jaw peak velocity and movement onset during bilabial consonants in stuttering and nonstuttering adults. *Journal of Fluency Disorders* (20), 127-144.

*DeThorne, L. S., Johnson, C. J., Walder, L., & Mahurin-Smith, J. (2009). When "Simon says" doesn't work: alternatives to imitation for facilitating early speech development. *Am J Speech Lang Pathol, 18*(2), 133-145. doi:10.1044/1058-0360(2008/07-0090)

DiDonato Brumbach, A. C., & Goffman, L. (2014). Interaction of language processing and motor skill in children with specific language impairment. *J Speech Lang Hear Res, 57*(1), 158-171. doi:10.1044/1092-4388(2013/12-0215)

Eberhart, B., Forsberg, J., Fäldt, A., Nilsson, L., Nolemo, M., & Thunberg, G. (2015). *Tidiga kommunikations- och språkinsatser till förskolebarn*. Retrieved from http://habiliteringisverige.se/ebh/kommunikation/dokument/EBH-kommunikation2014_ver3.pdf

*Eckman, N., Williams, K. E., Riegel, K., & Paul, C. (2008). Teaching chewing: a structured approach. *Am J Occup Ther, 62*(5), 514-521.

*Edeal, D.M., & Gildersleeve-Neumann, C. E. (2011). The importance of production frequency in therapy for childhood apraxia of speech. *Am J Speech Lang Pathol, 20*(2), 95-110. doi:10.1044/1058-0360(2011/09-0005)

*Enderby, P., Cantrell, A., John, A., Pickstone, C., Fryer, K. & Palmer, R. (2010). Guidance for providers of speech and language therapy services: dysarthria. *Asia Pacific Journal of Speech, Language and Hearing, 3*(13), 171-190. doi:10.1179/136132810805335047

Enderby, P. John, A. & Petheram, B. (2006). *Therapy Outcome Measure för Rehabilitation Professionals Speech and Language Therapy, Physiotherapy, Occupational Therapy, Rehabiliation Nursing, Hearing Therapists* (2nd ed.): John Wile& Sons Ltd.

Eng-Olofsson, A. Ferm, U., Nordberg, A. Tuominen-Eriksson, A.M., Åkerberg, A. & Hartelius, L. (2007). *Intervention vid dysartri hos barn och ungdomarmed cerebral pares – en evidensbaserad kunskapssammanställning*. Retrieved from http://habiliteringisverige.se/ebh/dysartri/dokument/Dysartrirapporten.pdf

*Faulks, D., Mazille, M.N., Collado, V., Veyrune, J.L. & Hennequin, M. (2008). Masticatory dysfunction in persons with Down's syndrome. Part 2: management. J Oral Rehabil, Nov;35(11):863-9. doi: 10.1111/j.1365-2842.2008.01878.x. Epub 2008 Sep 12.

Ferm, U. Nordberg, A., Tuominen-Eriksson, AM, Åkerberg, A. (2009). *Intervention vid dysartri hos barn och ungdomarmed cerebral pares – en evidensbaserad kunskapssammanställning. Uppdatering 2009.* Retrieved from http://habiliteringisverige.se/ebh/dysartri/dokument/Uppdatering_dysartri_090828.pdf

Ferm, U. Nordberg, A., Åkerberg, A. & Millgård, M. (2011). *Intervention vid dysartri hos barn och ungdomarmed cerebral pares – en evidensbaserad kunskapssammanställning. Uppdatering 2011.* Retrieved from http://habiliteringisverige.se/ebh/dysartri/dokument/Uppdatering_dysartri_110429.pdf

*Fox, C.M., & Boliek, C.A. (2012). Intensive Voice Treatment (LSVT LOUD) for Children With Spastic Cerebral Palsy and Dysarthria. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research, 55*, 930-945.

*Gerek, M., & Çiyiltepe, M. (2005). Dysphagia management of pediatric patients with cerebra palsy. *The British Journal of Developmental Disabilities, 51*(100), 57-72.

*Gibbon, F. E., & Wood, S. E. (2003). Using electropalatography (EPG) to diagnose and treat articulati on disorders associated with mild cerebral palsy: a case study. *Clin Linguist Phon, 17*(4-5), 365-374.

*Gibbons, B.G., Williams, K.E., & Riegel, K.E. (2007). Reducing tube feeds and tongue thrust: combining an oral-motor and behavioral approach to feeding. *Am J Occup Ther, 61*(4), 384-391.

*Gisel, E. (2008). Interventions and outcomes for children with dysphagia. *Dev Disabil Res Rev,* 14(2), 165-73. doi: 10.1002/ddrr.21.

*Gisel, E. G., Haberfellner, H., & Schwartz, S. (2001). Impact of oral appliance therapy: are oral skills and growth maintained one year after termination of therapy? *Dysphagia, 16*(4), 296-307. doi:10.1007/s00455-001-0088-2

*Giuca, M. R., Pasini, M., Pagano, A., Mummolo, S., & Vanni, A. (2008). Longitudinal study on a rehabilitative model for correction of atypical swallowing. *Eur J Paediatr Dent, 9*(4), 170-174.

Gray, S., Green, S., Alt, M., Hogan, T. P., Kuo, T., Brinkley, S., & Cowan, N. (2017). The Structure of Working Memory in Young Children and Its Relation to Intelligence. *J Mem Lang, 92*, 183-201. doi:10.1016/j.jml.2016.06.004

*Green, S. (2013). Case history: improved maxillary growth and development following digit sucking elimination and orofacial myofunctional therapy. *Int J Orofacial Myology, 39*, 45-53.

*Haberfellner, H. (2005). ISMAR: an autotherapeutic device assisting patients from drooling to articulated speech. *Pediatr Rehabil, 8*(4), 248-262. doi:10.1080/13638490400023954

*Haberfellner, H., Schwartz, S., & Gisel, E. G. (2001). Feeding skills and growth after one year of intraoral appliance therapy in moderately dysphagic children with cerebral palsy. *Dysphagia, 16*(2), 83-96. doi:10.1007/PL00021293

Hagberg, B.S., Miniscalco, C., & Gillberg, C. (2010). Clinic attenders with autism or attention-deficit/hyperactivity disorder: cognitive profile at school age and its relationship to preschool indicators of language delay. *Res Dev Disabil, 31*(1), 1-8. doi:10.1016/j.ridd.2009.07.012

Hallberg, U., & Klingberg, G. (2007). Giving low priority to oral health care. Voices from people with disabilities in a grounded theory study. *Acta Odontol Scand, 65*(5), 265-270. doi:10.1080/00016350701545734

*Harding, C., & Cockerill, H. (2015). Managing eating and drinking difficulties (dysphagia) with children who have learning disabilities: What is effective? *Clin Child Psychol Psychiatry,* Jul;20(3):395-405. doi: 10.1177/1359104513516650. Epub 2014 Jan 9.

* Hegland, K.W., Murry, T. (2013). Nonsurgical treatment: swallowing rehabilitation. Otolaryngol Clin North Am, Dec;46(6), 1073-85. doi: 10.1016/j.otc.2013.08.003. Epub 2013 Oct 4.

Higgins JPT, Green S (editors). Cochrane Handbook for Systematic Reviews of Interventions Version 5.1.0 [updated March 2011]. The Cochrane Collaboration, 2011. Available from http://handbook.cochrane.org .

Hill, E.L. (2001). Non-specific nature of specific language impairment: a review of the literature with regard to concomitant motor impairments. *Int J Lang Commun Disord, 36*(2), 149-171.

Hoffman, J. M., Yorkston, K.M., Shumway-Cook, A., Ciol, M.A., Dudgeon, B.J., & Chan, L. (2005). Effects of communication disability of satisfaction with health care: a survey of Medicare beneficiaries. *American Journal of Speech-Language Pathology, 3*(14), 221-228.

Hultgren, B. Kvalitetsregister på 1177 Vårdguiden.

Hägg, M., & Larsson, B. (2004). Effects of motor and sensory stimulation in stroke patients with long-lasting dysphagia. *Dysphagia, 19*(4), 219-230.

Hägg, M., & Tibbling, L. (2015). Effect of oral IQoro R and palatal plate training in post-stroke, four-quadrant facial dysfunction and dysphagia: A comparison study. *Acta Otolaryngol, 135*(9), 962-968. doi:10.3109/00016489.2015.1042043

Idring, S., Lundberg, M., Sturm, H., Dalman, C., Gumpert, C., Rai, D., . . . Magnusson, C. (2015). Changes in prevalence of autism spectrum disorders in 2001-2011: findings from the Stockholm youth cohort. *J Autism Dev Disord, 45*(6), 1766-1773. doi:10.1007/s10803-014-2336-y

*Iuzzini, J., & Forrest, K. (2010). Evaluation of a combined treatment approach for childhood apraxia of speech. *Clin Linguist Phon, 24*(4-5), 335-345. doi:10.3109/02699200903581083

Jiang, Y.H., Yuen, R.K., Jin, X., Wang, M., Chen, N., Wu, X., . . . Scherer, S.W. (2013). Detection of clinically relevant genetic variants in autism spectrum disorder by whole-genome sequencing. *Am J Hum Genet, 93*(2), 249-263. doi:10.1016/j.ajhg.2013.06.012

Johnson, C. (2008). Evidence-based practice in 5 simple steps. *J Manipulative Physiol Ther, 31*(3), 169-170. doi:10.1016/j.jmpt.2008.03.013

*Johnson, H. M., Reid, S. M., Hazard, C. J., Lucas, J. O., Desai, M., & Reddihough, D. S. (2004). Effectiveness of the Innsbruck Sensorimotor Activator and Regulator in improving saliva control in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol, 46*(1), 39-45.

Johnson, N. E., Luebbe, E., Eastwood, E., Chin, N., Moxley, R. T., 3rd, & Heatwole, C. R. (2014). The impact of congenital and childhood myotonic dystrophy on quality of life: a qualitative study of associated symptoms. *J Child Neurol, 29*(7), 983-986. doi:10.1177/0883073813484804

Kaipa, R., & Peterson, A. M. (2016). A systematic review of treatment intensity in speech disorders. *Int J Speech Lang Pathol, 18*(6), 507-520. doi:10.3109/17549507.2015.1126640

Karlstadmodellen. Retrieved from http://www.karlstadmodellen.se/karlstadmodellen 2016-10-22

*Kent, R. D. (2015). Nonspeech Oral Movements and Oral Motor Disorders: A Narrative Review. *Am J Speech Lang Pathol, 24*(4), 763-789. doi:10.1044/2015_AJSLP-14-0179

Kirby, R. S., Wingate, M. S., Van Naarden Braun, K., Doernberg, N. S., Arneson, C. L., Benedict, R. E., . . . Yeargin-Allsopp, M. (2011). Prevalence and functioning of children with cerebral palsy in four areas of the United States in 2006: a report from the Autism and Developmental Disabilities Monitoring Network. *Res Dev Disabil, 32*(2), 462-469. doi:10.1016/j.ridd.2010.12.042

*Korbmacher, H. M., Limbrock, J., & Kahl-Nieke, B. (2004). Orofacial development in children with Down's syndrome 12 years after early intervention with a stimulating plate. *J Orofac Orthop, 65*(1), 60-73. doi:10.1007/s00056-004-0229-y

*Korbmacher, H. M., Schwan, M., Berndsen, S., Bull, J., & Kahl-Nieke, B. (2004). Evaluation of a new concept of myofunctional therapy in children. *Int J Orofacial Myology, 30*, 39-52.

*Koskimies, M., Pahkala, R., & Myllykangas, R. (2011). Palatal training appliances in children with mild to moderate oral dysfunctions. *J Clin Pediatr Dent, 36*(2), 149-153.

Kunskapsguiden. (2016). Evidensbaserad praktik. Retrieved from http://kunskapsguiden.se/ebp/Sidor/default.aspx 2016-11-24

*Lamm, N.C., De Felice, A., & Cargan, A. (2005). Effect of tactile stimulation on lingual motor function in pediatric lingual dysphagia. *Dysphagia, 20*(4), 311-324. doi:10.1007/s00455-005-0060-7

Langley, G.M., R., Nolan, K., Nolan, T., Norman, C., Provost, L. . (2009). *The Improvement Guide* (2nd ed.). San Francisco Jossey-Bass.

*Lee, A.S., & Gibbon, F.E. (2015). Non-speech oral motor treatment for children with developmental speech sound disorders. *Cochrane Database Syst Rev*(3), CD009383. doi:10.1002/14651858.CD009383.pub2

Lefton-Greif, M. A., Okelo, S. O., Wright, J. M., Collaco, J. M., McGrath-Morrow, S. A., & Eakin, M. N. (2014). Impact of children's feeding/swallowing problems: validation of a new caregiver instrument. *Dysphagia, 29*(6), 671-677. doi:10.1007/s00455-014-9560-7

*Levy, E., Ramig, LO; Camarata, SM. (2012). The effects of two speech interventions on speech function in pediatric dysarthria. *Journal of medical speech-language pathology, 20*(4), 82-87.

Lindblom, H. (2013). *Sambanden mellan tillfredsställelse med och upplevelse av vården och patientrapporterat hälsoutfall. En litteraturöversikt. Rapport. Nedladdad från www.promcenter.se. i januari 2017.* Retrieved from http://rcso.se/patientmedverkan/prom/ 2016-11-30

Lubker, J., McAllister, R. and Lindblom, B. (1977). Vowel fundamental frequency and tongue height. *Journal of Accoustical Society of America, 62*, 16-17.

Ludlow, C. L., Hoit, J., Kent, R., Ramig, L. O., Shrivastav, R., Strand, E., . . . Sapienza, C. M. (2008). Translating principles of neural plasticity into research on speech motor control recovery and rehabilitation. *J Speech Lang Hear Res, 51*(1), S240-258. doi:10.1044/1092-4388(2008/019)

*Lundeborg, I., & McAllister, A. (2007). Treatment with a combination of intra-oral sensory stimulation and electropalatography in a child with severe developmental dyspraxia. *Logoped Phoniatr Vocol, 32*(2), 71-79. doi:10.1080/14015430600852035

Löfqvist, A. (1980). Interarticulator programming in stop production. *Journal of Phonetics*(8), 475-490.

*Maas, E., Butalla, C. E., & Farinella, K. A. (2012). Feedback frequency in treatment for childhood apraxia of speech. *Am J Speech Lang Pathol, 21*(3), 239-257. doi:10.1044/1058-0360(2012/11-0119)

*Maas, E., & Farinella, K. A. (2012). Random versus blocked practice in treatment for childhood apraxia of speech. *J Speech Lang Hear Res, 55*(2), 561-578. doi:10.1044/1092-4388(2011/11-0120)

*Maas, E., Gildersleeve-Neumann, C., Jakielski, K. J., & Stoeckel, R. (2014). Motor-based intervention protocols in treatment of childhood apraxia of speech (CAS). *Curr Dev Disord Rep, 1*(3), 197-206. doi:10.1007/s40474-014-0016-4

*Maas, E., Robin, D. A., Austermann Hula, S. N., Freedman, S. E., Wulf, G., Ballard, K. J., & Schmidt, R. A. (2008). Principles of motor learning in treatment of motor speech disorders. *Am J Speech Lang Pathol, 17*(3), 277-298. doi:10.1044/1058-0360(2008/025)

*Mahler, L. A., & Jones, H. N. (2012). Intensive treatment of dysarthria in two adults with Down syndrome. *Dev Neurorehabil, 15*(1), 44-53. doi:10.3109/17518423.2011.632784

*Manikam, R., Perman, J. A. (2000). Pediatric feeding disorders. *J Clin Gastroenterol,* Jan;30(1), 34-46.

*Mantie-Kozlowski, A., & Pitt, K. (2014). Treating myofunctional disorders: a multiple-baseline study of a new treatment using electropalatography. *Am J Speech Lang Pathol, 23*(4), 520-529. doi:10.1044/2014_AJSLP-14-0001

*Marchant, J., McAuliffe, M. J., & Huckabee, M. L. (2008). Treatment of articulatory impairment in a child with spastic dysarthria associated with cerebral palsy. *Dev Neurorehabil, 11*(1), 81-90. doi:10.1080/17518420701622697

Marshall, J., Goldbart, J., Pickstone, C., & Roulstone, S. (2011). Application of systematic reviews in speech-and-language therapy. *Int J Lang Commun Disord, 46*(3), 261-272. doi:10.3109/13682822.2010.497530

*Martin, R.E. (2009). Neuroplasticity and swallowing. Dysphagia, Jun;24(2), 218-29. doi: 10.1007/s00455-008-9193-9. Epub 2009 Jan 7.

*McAllister, A. (2003). Voice disorders in children with oral motor dysfunction: perceptual evaluation pre and post oral motor therapy. *Logoped Phoniatr Vocol, 28*(3), 117-125.

*McCabe, P., Macdonald-D'Silva, A. G., van Rees, L. J., Ballard, K. J., & Arciuli, J. (2014). Orthographically sensitive treatment for dysprosody in children with childhood apraxia of speech using ReST intervention. *Dev Neurorehabil, 17*(2), 137-146. doi:10.3109/17518423.2014.906002

McCabe, P., Thomas, D., Murray, E., Crocco, L., & Madill, C. (2017). *Rapid Syllable Transition Treatment - ReST* The University of Sydney. Retrieved from http://sydney.edu.au/health-sciences/rest/ Nedladdat 2017-03-27

*McCauley, R.J., Strand, E., Lof, G.L., Schooling, T., & Frymark, T. (2009). Evidence-Based Systematic Review: Effects of Nonspeech Oral Motor Exercises on Speech *American Journal of Speech-Language Pathology, 18*, 343-360.

McReynolds, L. K., KP. (1983). *Single-Subject Experimental Designs in Communicative Disorders*: University Park Press.

*Miller, N., Pennington, L., Robson, S., Roelant, E., Steen, N., & Lombardo, E. (2013). Changes in voice quality after speech-language therapy intervention in older children with cerebral palsy. *Folia Phoniatr Logop, 65*(4), 200-207. doi:10.1159/000355864

Miniscalco, C., Nygren, G., Hagberg, B., Kadesjo, B., & Gillberg, C. (2006). Neuropsychiatric and neurodevelopmental outcome of children at age 6 and 7 years who screened positive for language problems at 30 months. *Dev Med Child Neurol, 48*(5), 361-366. doi:10.1017/S0012162206000788

*Morgan, A., Liegeois, F., & Occomore, L. (2007). Electropalatography treatment for articulation impairment in children with dysarthria post-traumatic brain injury. *Brain Inj, 21*(11), 1183-1193. doi:10.1080/02699050701649573

*Morgan, A. T., & Vogel, A. P. (2009). A Cochrane review of treatment for dysarthria following acquired brain injury in children and adolescents. *Eur J Phys Rehabil Med,* 45(2) 197-204.

*Morgan, A. T., Dodrill, P., & Ward, E. C. (2012). Interventions for oropharyngeal dysphagia in children with neurological impairment. *Cochrane Database Syst Rev, 10*, CD009456. doi:10.1002/14651858.CD009456.pub2

*Morgan, A. T., & Vogel, A. P. (2008). Intervention for childhood apraxia of speech. *Cochrane Database Syst Rev*(3), CD006278. doi:10.1002/14651858.CD006278.pub2

*Morgan, A. T., & Vogel, A. P. (2009). A Cochrane review of treatment for childhood apraxia of speech. *Eur J Phys Rehabil Med, 45*(1), 103-110.

Moss, A., & Grigos, M. I. (2012). Interarticulatory Coordination of the Lips and Jaw in Childhood Apraxia of Speech. *J Med Speech Lang Pathol, 20*(4), 127-132.

*Murray, E., McCabe, P., & Ballard, K. J. (2014). A systematic review of treatment outcomes for children with childhood apraxia of speech. *Am J Speech Lang Pathol, 23*(3), 486-504. doi:10.1044/2014_AJSLP-13-0035

*Murray, E., McCabe, P., & Ballard, K. J. (2015). A Randomized Controlled Trial for Children With Childhood Apraxia of Speech Comparing Rapid Syllable Transition Treatment and the Nuffield Dyspraxia Programme-Third Edition. *J Speech Lang Hear Res, 58*(3), 669-686. doi:10.1044/2015_JSLHR-S-13-0179

Nationellt kvalitetsregister för habilitering. Retrieved from http://liu.se/habq?l=sv 2015-09-02

*Nordberg, A., Carlsson, G., & Lohmander, A. (2011). Electropalatography in the description and treatment of speech disorders in five children with cerebral palsy. *Clin Linguist Phon, 25*(10), 831-852. doi:10.3109/02699206.2011.573122

*Nordberg, A., Dahlgren Sandberg, A., & Miniscalco, C. (2015). Story retelling and language ability in school-aged children with cerebral palsy and speech impairment. *Int J Lang Commun Disord, 50*(6), 801-813. doi:10.1111/1460-6984.12177

Pakula, A.T., Van Naarden Braun, K., & Yeargin-Allsopp, M. (2009). Cerebral palsy: classification and epidemiology. *Phys Med Rehabil Clin N Am, 20*(3), 425-452. doi:10.1016/j.pmr.2009.06.001

*Palmer, R., & Enderby, P. (2007). Methods of speech therapy treatment for stable dysarthria: A review. *Advances in Speech Language Pathology, 9*(2), 140-153. doi:10.1080/14417040600970606

*Pani, S. C., & Hegde, A. M. (2007). Functional appliance therapy to control drooling: a case of a child with mental retardation. *J Clin Pediatr Dent, 31*(4), 284-286.

*Pennington, L., Miller, N., & Robson, S. (2009). Speech therapy for children with dysarthria acquired before three years of age. *Cochrane Database Syst Rev*(4), CD006937. doi:10.1002/14651858.CD006937.pub2

*Pennington, L., Roelant, E., Thompson, V., Robson, S., Steen, N., & Miller, N. (2013). Intensive dysarthria therapy for younger children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol, 55*(5), 464-471. doi:10.1111/dmcn.12098

*Pennington, L., Smallman, C., & Farrier, F. (2006). Intensive dysarthria therapy for older children with cerebral palsy: finding from six cases. *Child Language Teaching and Therapy, 22*(3), 255-273.

*Ray, J. (2001). Functional outcomes of orofacial myofunctional therapy in children with cerebral palsy. *Int J Orofacial Myology, 27*, 5-17.

Richardson, W. S., Wilson, M. C., Nishikawa, J., & Hayward, R. S. (1995). The well-built clinical question: a key to evidence-based decisions. *ACP J Club, 123*(3), A12-13.

Roback, K., Carlsson, P. (2009). Evidensgraderingssystemet GRADE. Retrieved from http://liu.diva-portal.org/smash/get/diva2:297894/FULLTEXT01.pdf

*Saccomanno, S., Antonini, G., D'Alatri, L., D'Angelantonio, M., Fiorita, A., & Deli, R. (2012). Causal relationship between malocclusion and oral muscles dysfunction: a model of approach. *Eur J Paediatr Dent, 13*(4), 321-323.

Sackett, D. L., Rosenberg, W. M., Gray, J. A., Haynes, R. B., & Richardson, W. S. (1996). Evidence based medicine: what it is and what it isn't. *BMJ, 312*(7023), 71-72.

Sackett DL, R. W., Gray JA, Haynes RB, Richardson WS. (1996). Evidence based medicine: what it is and what it isn't. *BMJ, 312:371.*

SBU. (2014a). Utvärdering av metoder i hälso- och sjukvården, en handbok. 2nd. Retrieved from http://www.sbu.se/globalassets/ebm/metodbok/sbushandbok.pdf

SBU. (2014b). *Utvärdering av metoder i hälso- och sjukvården: En handbok.* Retrieved from Stockholm: : http://www.sbu.se/globalassets/ebm/metodbok/sbushandbok.pdf

Schlosser, R. W., Koul, R., & Costello, J. (2007). Asking well-built questions for evidence-based practice in augmentative and alternative communication. *J Commun Disord, 40*(3), 225-238. doi:10.1016/j.jcomdis.2006.06.008

Schmidt, R. L., T. (2011). *Motor Control and Learning-5th Edition. A Behavioral Emphasis*.

*Schwarz, S. M., Corredor, J., Fisher-Medina, J., Cohen, J., & Rabinowitz, S. (2001). Diagnosis and treatment of feeding disorders in children with developmental disabilities. *Pediatrics, 108*(3), 671-676.

*Seubert, C., Fryling, M. J., Wallace, M. D., Jiminez, A. R., & Meier, A. E. (2014). Antecedent interventions for pediatric feeding problems. *J Appl Behav Anal, 47*(2), 449-453. doi:10.1002/jaba.117

Shea, B. J., Bouter, L. M., Peterson, J., Boers, M., Andersson, N., Ortiz, Z., . . . Grimshaw, J. M. (2007). External validation of a measurement tool to assess systematic reviews (AMSTAR). *PLoS One, 2*(12), e1350. doi:10.1371/journal.pone.0001350

Shea, B. J., Grimshaw, J. M., Wells, G. A., Boers, M., Andersson, N., Hamel, C., . . . Bouter, L. M. (2007). Development of AMSTAR: a measurement tool to assess the methodological quality of systematic reviews. *BMC Med Res Methodol, 7*, 10. doi:10.1186/1471-2288-7-10

Shriberg, L. D., Potter, N. L., & Strand, E. A. (2011). Prevalence and phenotype of childhood apraxia of speech in youth with galactosemia. *J Speech Lang Hear Res, 54*(2), 487-519. doi:10.1044/1092-4388(2010/10-0068)

Sjögreen, L., Mogren, Å., Andersson-Norinder, J., & Bratel, J. (2015). Speech, eating and saliva control in rare diseases - a database study. *J Oral Rehabil, 42*(11), 819-827. doi:10.1111/joor.12317

*Sjögreen, L., Tulinius, M., Kiliaridis, S., & Lohmander, A. (2010). The effect of lip strengthening exercises in children and adolescents with myotonic dystrophy type 1. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 74*(10), 1126-1134. doi:10.1016/j.ijporl.2010.06.013

*Skelton, S. L., & Hagopian, A. L. (2014). Using randomized variable practice in the treatment of childhood apraxia of speech. *Am J Speech Lang Pathol, 23*(4), 599-611. doi:10.1044/2014_AJSLP-12-0169

*Smithpeter, J., & Covell, D. J. (2010). Relapse of anterior open bites treated with orthodontic appliances with and without orofacial myofunctional therapy. *Am J Orthod Dentofacial Orthop, 137*(5), 605-614. doi:10.1016/j.ajodo.2008.07.016

*Snider, L., Majnemer, A. & Darsaklis, V. (2011). Feeding interventions for children with cerebral palsy: a review of the evidence. Phys Occup Ther Pediatr, Feb;31(1):58-77. doi: 10.3109/01942638.2010.523397. Epub 2010 Oct 18.

Socialdepartementet. (1982). *Hälso- och sjukvårdslag (1982:763), Svensk författningssamling 1982:763 t.o.m. SFS 2016:1298*.

Socialstyrelsen. (2016). Frågor och svar om evidensbaserad praktik. Retrieved from http://www.socialstyrelsen.se/fragorochsvar/evidensbaseradpraktik

Socialstyrelsen. (2016). Om evidensaserad praktik. Retrieved from https://www.socialstyrelsen.se/Lists/Artikelkatalog/Attachments/18920/2012-12-20.pdf

Socialstyrelsen. (2010). *Ovanliga diagnoser – Organisationen av resurser för personer med ovanliga diagnoser* (Artikelnr 2010-6-35). Retrieved from http://www.socialstyrelsen.se/publikationer2010/2010-6-35

speechBITE. (2016). Speech Pathology Database for Best Interventions snd Treatment Efficacy. Retrieved from http://speechbite.com

*Speyer, R., Baijens, L., Heijnen, M., & Zwijnenberg, I. (2010). Effects of therapy in oropharyngeal dysphagia by speech and language therapists: a systematic review. *Dysphagia, 25*(1), 40-65. doi:10.1007/s00455-009-9239-7

*Square, P. A., Namasivayam, A. K., Bose, A., Goshulak, D., & Hayden, D. (2014). Multi-sensory treatment for children with developmental motor speech disorders. *Int J Lang Commun Disord, 49*(5), 527-542. doi:10.1111/1460-6984.12083

*Strand, E. (1995). Treatment of motor speech disorders in children. *Semin Speech Lang, 16*(2), 126-139. doi:10.1055/s-2008-1064115

*Strand, E. A., & Debertine, P. (2000). The efficacy of Integral Stimulation Intervention with Developmental Apraxia of Speech. *J Med Speech Lang Pathol, 8*(4), 295-300.

*Strand, E.A., Stoeckel, R., & Baas, B. (2006).Treatment of severe childhood apraxia of speech. Atreatment efficacy study. *J Med Speech Lang Pathol,* 14(4), 297-307.

*Tamura, F., Kikutani, T., Machida, R., Takahashi, N., Nishiwaki, K., & Yaegaki, K. (2011). Feeding therapy for children with food refusal. *Int J Orofacial Myology, 37*, 57-68.

*Thomas, D. C., McCabe, P., & Ballard, K. J. (2014). Rapid Syllable Transitions (ReST) treatment for Childhood Apraxia of Speech: the effect of lower dose-frequency. *J Commun Disord, 51*, 29-42. doi:10.1016/j.jcomdis.2014.06.004

Tierney, C., Mayes, S., Lohs, S. R., Black, A., Gisin, E., & Veglia, M. (2015). How Valid Is the Checklist for Autism Spectrum Disorder When a Child Has Apraxia of Speech? *J Dev Behav Pediatr, 36*(8), 569-574. doi:10.1097/DBP.0000000000000189

Troche, M. S., Okun, M. S., Rosenbek, J. C., Musson, N., Fernandez, H. H., Rodriguez, R., . . . Sapienza, C. M. (2010). Aspiration and swallowing in Parkinson disease and rehabilitation with EMST: a randomized trial. *Neurology, 75*(21), 1912-1919. doi:10.1212/WNL.0b013e3181fef115

Troche, M. S., Rosenbek, J. C., Okun, M. S., & Sapienza, C. M. (2014). Detraining outcomes with expiratory muscle strength training in Parkinson disease. *J Rehabil Res Dev, 51*(2), 305-310. doi:10.1682/JRRD.2013.05.0101

Wade, D. (2016). Rehabilitation - a new approach. Part three: the implications of the theories. *Clin Rehabil, 30*(1), 3-10. doi:10.1177/0269215515601176

Wallen, G. R., Mitchell, S. A., Melnyk, B., Fineout-Overholt, E., Miller-Davis, C., Yates, J., & Hastings, C. (2010). Implementing evidence-based practice: effectiveness of a structured multifaceted mentorship programme. *J Adv Nurs, 66*(12), 2761-2771. doi:10.1111/j.1365-2648.2010.05442.x

*Walshe, M., Smith, M., & Pennington, L. (2012a). Interventions for drooling in children with cerebral palsy. *Cochrane Database Syst Rev, 11*, CD008624. doi:10.1002/14651858.CD008624.pub3

*Walshe, M., Smith, M., & Pennington, L. (2012b). Interventions for drooling in children with cerebral palsy. *Cochrane Database Syst Rev* (2), CD008624. doi:10.1002/14651858.CD008624.pub2

*Wambaugh, J. L. (2002). A summary of treatments for apraxia of speech and review of replicated approaches. *Semin Speech Lang, 23*(4), 293-308. doi:10.1055/s-2002-35802

*Ward, R., Leitao, S., & Strauss, G. (2014). An evaluation of the effectiveness of PROMPT therapy in improving speech production accuracy in six children with cerebral palsy. *Int J Speech Lang Pathol, 16*(4), 355-371. doi:10.3109/17549507.2013.876662

*Ward, R., Strauss, G., & Leitao, S. (2013). Kinematic changes in jaw and lip control of children with cerebral palsy following participation in a motor-speech (PROMPT) intervention. *Int J Speech Lang Pathol, 15*(2), 136-155. doi:10.3109/17549507.2012.713393

*Wood, S., Wishart, J., Hardcastle, W., Cleland, J., & Timmins, C. (2009). The use of electropalatography (EPG) in the assessment and treatment of motor speech disorders in children with Down's syndrome: evidence from two case studies. *Dev Neurorehabil, 12*(2), 66-75. doi:10.1080/17518420902738193

*Yu, V. Y., Kadis, D. S., Oh, A., Goshulak, D., Namasivayam, A., Pukonen, M., . . . Pang, E. W. (2014). Changes in voice onset time and motor speech skills in children following motor speech therapy: Evidence from /pa/ productions. *Clin Linguist Phon, 28*(6), 396-412. doi:10.3109/02699206.2013.874040

*Zavaglia, V., Nori, A., & Mansour, N. M. (2003). Long term effects of the palatal plate therapy for the orofacial regulation in children with Down syndrome. *J Clin Pediatr Dent, 28*(1), 89-93.

Zelaznik, H. N., & Goffman, L. (2010). Generalized motor abilities and timing behavior in children with specific language impairment. *J Speech Lang Hear Res, 53*(2), 383-393. doi:10.1044/1092-4388(2009/08-0204)

Zwaigenbaum, L., Bryson, S., & Garon, N. (2013). Early identification of autism spectrum disorders. *Behav Brain Res, 251*, 133-146. doi:10.1016/j.bbr.2013.04.004

Bilagor

Bilaga 1. Bedömningsmall

Bedömare:

Studie och år:

Syfte	
Deltagare	
Design	
Metod	
Miljö	
Intervention	
Resultat	
Validitet	
Reliabilitet	
Klinisk relevans	
MIP	
Noteringar	

GRADE	
TILLSTÅND	
INTERVENTION	
PATIENTGRUPP	
ALTERNATIV TILL METODEN/ BEHANDLINGEN	
EFFEKTMÅTT	
BEVISVÄRDE	

STUDIEDESIGN	
FAKTORER SOM SÄNKER BEVISVÄRDET	
FAKTORER SOM HÖJER BEVISVÄRDET	
GRADE (1-4)	

NYCKEL
Deltagare: antal, ålder, kön, diagnos, kontrollgrupp,
Design: review, RCT (RCT-light, t ex ej blindad, liten grupp), metaanalys, longitudinell, mätning före-efter gruppstudie, ko-hort, single-subject design (metod med multiple baseline, mätningar under behandlingen, mätningar efter avslutad behandling och långtidsuppföljning), fallstudie
Metod: hur intervention har genomförts, tid för uppföljning, redovisa bortfall, bortfall (vid >30% i en RCT saknar studien informationsvärde) och relativt bortfall (relationen mellan bortfallet i undersökningsgruppen och kontrollgruppen)
Miljö: Beskrivs var interventionen har ägt rum
Intervention: Typ av behandling, väl beskriven, namngiven metod om det är fallet
Resultat: Behandlingsresultat
Validitet: Beskrivs målsättningen? Diskuteras validitet i artikeln? Diskuteras tillförlitligheten hos resultaten eller i vilken utsträckning man kan dra slutsatser om den oberoende variabeln har påverkat den beroende variabeln. T.ex. slumpmässig fördelning av deltagarna, litet och osystematiskt bortfall, objektiv bedömning av skillnader i effekter, grad av generaliserbarhet. (God, måttlig, oklar.)
Reliabilitet: Beskrivs i vilken utsträckning resultaten blir desamma vid upprepade mätningar, beskrivs reliabilitet mellan eller inom bedömer (inter-/intrabedömarreliabilitet). Mätinstrumentets reproducerbarhet, tillförlitlighet och precision (t.ex. mätt med ICC, Pearson, Spearman, Cronbachs alpha).
Klinisk relevans: Är behandlingen kliniskt relevant? Har resultaten klinisk relevans? Har studien klinisk relevans i Sverige och/eller inom vår verksamhet. Kommentera om nödvändigt.
MIP: Motoriska inlärningsprinciper. I artikeln anges/beskrivs: 1. Antal behandlingstillfällen/v. 2. Totalt antal behandlingstillfällen 3. Längd/tillfälle. 4. Antal repetitioner/behandlingstillfälle. 5. Behandlingsupplägg, (varierad/konstant målord; randomiserad eller ensidig träning). 6. Enkla eller komplexa uppgifter. 7. Vem har genomfört interventionen (expert, förälder, skolpersonal, annan). 8. Feedback (kunskap om utförande el resultat; fade out – ökat eget ansvar). 9. Generaliseringseffekter. 10. Långtidsuppföljning
Noteringar: Ev egna kommentarer och åsikter kring studien, kombinationer av olika åtgärder/insatser

GRADE:
Tillstånd: Funktionsnedsättning, t ex talproblem, sväljproblem, salivläckage. Ange undergrupper om relevant.
Patientgrupp: Diagnos
Intervention: Beskrivning av metoden och hur den genomförts.
Alternativ till behandlingen: Jämförelse med annan behandling.
Effektmått: Hur har de mätt effekten? T ex mätningar av läppkraft, skattning av läppslut från video, skattning av salivläckage enligt Blasco, eller frekvens/dag, byte av haklapp, hostning i samband med måltid, förståelighet, PCC, uppfattbarhet mm

För poängsättning se faktaruta 10.1 SBU för basvärdering samt faktorer som höjer respektive sänker graderingen: Basvärderingen kvarstår och eventuella höjande respektive sänkande faktorer. Typ träningsmotiverade föräldrar, väl beskrivna deltagare +, eller spretiga resultat med dålig samstämmighet -.

Fyll i poängen i excel
AMSTAR: Review art – se separat formulär. Fyll i mallen samt därefter poäng i excel.

Bilaga 2. Exempel på bedömning

Bedömare: Madeleine Brodén

Studie och år: Feeding skills and growth after one year of intraoral appliance therapy in moderately dysphagic children with cerebral palsy. Dysphagia, 2001, 16; 83.96.

Haberfellner H, Schwartz S, Gisel EG.

Syfte	Att mäta förändringar i ätfunktion och tillväxt efter ett års behandling med ISMAR för barn med cerebral pares och måttliga sväljsvårigheter.
Deltagare	20 barn, 4:2-13:1 år (medel 8:3, SD 0:9) från specialskolor i Montreal rekryterades mellan feb 1994 och feb 1996. Könsfördelning 11f/9p. Bortfall =1.
Design	RCT
Metod	Barnen randomiserades till ISMAR behandling (n=10) eller till kontrollgruppen (n=10) med sen ISMAR-behandling. Fas 1: 6 m med fokus på käkstabilitet Fas 2: 6 m med fokus på rörlighet i orala strukturer Kontroll period: 6 m Vårdnadshavare för loggbok över träningsdagar, medverkan (complilance) räknas ut genom procenten uteblivna träningsdagar av totalt antalet träningsdagar. Kontrollgruppen fick samma terapi, efter kontrollperiodens slut. Blindade data
Miljö	Skola (skolsköterskans mottagning), tandklinik och hemma
Intervention	Intraoralt hjälpmedel; ISMAR therapy (Innsbruck Sensorimotor Activator and Regulator)
Resultat	• **Funktionellt ätbeteende** (feeding skills) förbättrades signifikant mer under fas I än under kontrollperioden. Ytterligare förbättringar av tuggfunktionen konstaterades under fas II. Alla ökade signifikant i vikt under kontrollperioden och under de två behandlingsfaserna. Viktökning var tillräcklig för att barnen skulle följa sin tillväxtkanal. Barnen hade också en signifikant längdtillväxt. Tillväxtspurten karaktäriserades av viss catch-up, jmf med barn med typisk utveckling. • **Käkstabilitet** var den enskilt viktigaste faktorn för signifikanta förbättringarna i funktionellt ätbeteende. • **Viktökningen** kan inte kopplas till interventionen eftersom den även skedde under kontrollperioden och var i ungefär samma storleksordning under båda behandlingsfaserna

	men den möjliggjorde en längdtillväxt som tidigare bara beskrivits i anslutning till sondmatning. • Åtta individer använde ISMAR även nattetid.
Validitet	Ja, diskuteras.
Reliabilitet	Ja, signifikansnivå p< 0,05
Klinisk relevans	Ett intraoralt hjälpmedel möjliggör en behandlingsinsats och viljemässig träning kontrollerad av barnet själv istället för vid tidpunkter bestämd av terapeut/behandlare, då barnet kanske inte är redo. An intraoral appliance offers an opportunity for therapeutic play and voluntary engagement which are under the control of the child, rather than at a time determined by the therapist, when the child may not be ready for interaction. Författarnas erfarenheter indikerar att nivån på kommunikationsstörningen inte är en kritisk faktor som förutspår om barnet kan anpassa sig till hjälpmedlet eller inte. Snarare är personlighet och temperament viktiga faktorer att ta hänsyn till. Barn som kan behålla ett lugn i olika kontext tycks svara väl på behandlingen oavsett grad av kommunikativ funktionsstörning.
MIP	Totalt antal gånger: Ett stort antal träningstillfällen (daglig träning) Längd/tillfällen: Upp till 20 min/dag, därefter även nattetid Enkla eller komplexa uppgifter: Enkla Vem har genomfört interventionen: Tandläkare provar ut och följer upp. Föräldrar och skolpersonal genomför den dagliga interventionen och loggar träningstid. **Behandlingsupplägg:** Fotografering, avgjutning, utprovning av hjälpmedlet. Daglig träning med successivt utökad träningstid upp till 20 min. När patienten kan använda ISMAR 20 min initieras behandling även nattetid. Fas I: Daglig träning upp till 20 min/d. ISMAR användes inte under måltider eller om barnet var snuvigt. FaS II: Ny bedömning. Träning för att öka rörligheten i orala strukturer. Individuellt utformade mål. Vårdnadshavare för loggbok över träningstid.
Noteringar	

GRADE	
TILLSTÅND	Måttliga sväljsvårigheter

	Alla barn åt endast per os Alla barn kunde näsandas Alla barnen var underviktiga vid behandlingsstart (-1,5 SD) Barnens kommunikativa förmåga varierade mellan ingen till grav funktionsnedsättning Tandstatus beskrivs. Tetrapares och måttligt motoriskt funktionshinder Barnens funktioner och tillstånd är utförligt beskrivet.
INTERVENTION	Intraoralt hjälpmedel; ISMAR therapy (Innsbruck Sensorimotor Activator and Regulator)
PATIENTGRUPP	Barn med cerebral pares
ALTERNATIV TILL METODEN/ BEHANDLINGEN	Förändrad sittställning, minska distraktorer i omgivningen, tandborstning och tydligt tryck mot ansikte, gingiva, och tänder under matning föreslås som alternativ.
EFFEKTMÅTT	Matning, bitbeteende, tuggfunktion, dricka ur kopp, dricka med sugrör, sväljning, clearing. (Clearing: hostning, sätter i halsen, spill av mat och dryck, bedömdes/graderades)
BEVISVÄRDE	
STUDIEDESIGN	RCT
FAKTORER SOM SÄNKER BEVISVÄRDET	-
FAKTORER SOM HÖJER BEVISVÄRDET	Blindade data
GRADE (1-4)	4