

Sammenheng mellom intensitet og effekt av atferdbehandling for barn med autisme*

Sigmund Eldevik^{1,2}, Richard P. Hastings¹, J. Carl Hughes¹,
Erik Jahr³ og Svein Eikeseth²

¹Bangor University, Wales, ²Høgskolen i Akershus, ³Akershus Universitetssykehus

Resymé

Vi har samlet inn individuelle data (N=480) fra publiserte artikler på effekten av tidlig intensiv atferdsbehandling for barn med autisme eller uspesifisert gjennomgripende utviklingsforstyrrelse (PDD-NOS). For å se om behandlingsintensitet kunne forutsi effekter av atferdsbehandling, utførte vi flere regresjonsanalyser. Effekter ble målt som økning i skåre på en intelligensstest (IQ) eller økning i skåre på generell tilpasning (ABC), etter ca. to år med behandling. Intensitet predikerer effekt til en viss grad. Om lag 20 % og 7 % av variasjonen i effekt på IQ og ABC respektive forklares gjennom intensitet. Det er en statistisk signifikant sammenheng mellom intensitet og effekter.

Stikkord: Tidlig intensiv atferdsbehandling; Anvendt atferdsanalyse; Effekter; Autism

Innledning

Det publiseres stadig ny dokumentasjon på at tidlig intensiv atferdsbehandling (EIBI) ovenfor barn med autismespekterforstyrrelser (ASD) har god effekt. Effektene kan måles på flere områder, som intellektuell fungering, sosial fungering og språklig fungering (Cohen, Amerine-Dickens & Smith, 2006; Eikeseth, Smith, Jahr & Eldevik, 2007; Hayward, Eikeseth & Merry, 2005; Howard, Sparkman, Cohen, Green & Stanislaw, 2005; Lovaas, 1987; Remington et al., 2007; Sallows & Graupner, 2005; Smith, Groen & Wynn, 2000). Et mindretall av barna gjør det så bra at de får testskårer innenfor eller over gjennomsnittet på en eller flere av disse områdene etter intervensjon (Cohen et al., 2006; Eikeseth et al., 2007; Hayward et al., 2005; Howard et al., 2005; Lovaas, 1987; Remington et al., 2007; Sallows & Graupner, 2005; Smith et al., 2000). Det finnes også begrensede, men lovende resultater som viser at disse effektene kan holde seg inn i ungdoms- og tidlig voksenalder (McEachin, Smith & Lovaas, 1993).

I løpet av de siste 20 årene har man tilbudt atferdsbehandling i ulike organisatoriske rammer, som universitetsklinikker (Ben-Itzhak & Zachor, 2007; Lovaas, 1987; Remington et al.,

*Vi vil takke Chris Whitaker for hjelp med gjennomføringen av de statistiske analysene og Alison Sharland og Iwona Ondire for koding av artikler.

Kontakt: Sigmund Eldevik, Høgskolen i Akershus, Pb. 423, 2001 Lillestrøm. Telefon 64 84 90 00. E-post: sigmund.eldevik@hiak.no.

2007), kommunale settinger (Cohen et al., 2006; Howard et al., 2005), normale barnehager og skoler (Eikeseth et al., 2007), hjemmebaserte programmer organisert av foreldre (Hayward et al., 2005; Sallows & Graupner, 2005), og ulike kombinasjoner av disse (Handleman & Harris, 2001). Videre har man undersøkt barn i ulik alder (Eikeseth et al., 2007) og ulikt funksjonsnivå ved inntak (Smith, Eikeseth, Klevstrand, & Lovaas, 1997).

Når man skal oppsummere effektene av atferdsbehandling rapportert over de siste tiårene, bør man ta i betraktning at denne behandlingsformen er og har vært i kontinuerlig utvikling. Siden den først ble utprøvd på 1960-tallet har det blitt publisert hundrevis av små og store artikler, ofte basert på $n=1$ design, både i form av grunnforskning og anvendt forskning. Disse har resultert i en gradvis økende kunnskapsbase. Det har også blitt skrevet og revidert flere behandlingsmanualer (Leaf & McEachin, 1999; Lovaas, 1977, 1981, 2003; Maurice, Green & Luce, 1996). Den kontinuerlige utviklingen av tidlig intensiv atferdsbehandling har samtidig resultert i at man har gått bort fra prosedyrer som kan ha vært etisk problematiske, som systematisk bruk av straffeprosedyrer, og erstattet disse med mer effektive prosedyrer basert på positiv forsterkning (Sallows & Graupner, 2005). Dette medfører at dagens behandling kan se ganske annerledes ut enn den behandlingen som ble tilbudt for bare ti år siden. Behandlingen er imidlertid fremdeles basert på de samme generelle prinsippene om operant læring, og mange av prosedyrene er de samme eller veldig like de som ble prøvet ut på 1960-tallet. Green og medarbeidere har nylig gjennomgått og listet opp felles kjennetegn for tidlig intensiv atferdsbehandling (Green, Brennan & Fein, 2002, s. 70).

Et konsistent funn i artiklene som er publisert så langt er en enorm variasjon i effekt på tvers av individuelle barn. Dette har ledet mange forskere til å analysere inntaksdata for å se om det er noe som kan forutsi i hvilken grad et enkelt barn vil profitte på atferdsbehandling (Ben-Itzhak & Zachor, 2007; Sallows & Graupner, 2005). Grunnet relativt små utvalg, som regel færre enn 20 i eksperimentgruppa, i de publiserte artiklene, har det kun vært mulig å gjøre begrensede statistiske analyser. I stedet har man gjort analyser hvor man har identifisert de barna som skårer innen normal variasjonen etter behandling. Disse har man gruppert ut og gitt kalt «best outcome», «good responders» eller «rapid learners» (Remington et al., 2007; Sallows & Graupner, 2005). Deretter har man sett om inntaksskårene for disse barna skiller seg fra de andre barna som ikke havner i en av disse kategoriene. Man kan se etter skårer, eller cut-off skårer, som kan forutsi at et barn havner i gruppa som profiterer mest. Det kan for eksempel vise seg at barn med en IQ-skåre over 60 ved inntak med stor sannsynlighet vil komme i en «best outcome» gruppe. Flere studier har også rapportert korrelasjoner mellom inntaksdata og resultater, slik som korrelasjonen mellom alder ved inntak og IQ-skåre etter behandling (Eikeseth et al., 2007; Eldevik, Eikeseth, Jahr & Smith, 2006).

De inntaksskårene som har blitt rapportert å ha en viss prediksjonsverdi er (1) lav alder (Harris & Handleman, 2000), (2) høy intelligens (Ben-Itzhak & Zachor, 2007; Harris & Handleman, 2000; Remington et al., 2007) og (3) god tilpasningsatferd (Ben-Itzhak & Zachor, 2007; Remington et al., 2007). Videre ser det ut til at ADI-R skårer (Sallows & Graupner, 2005), autistiske symptomer målt ved DBCA (Remington et al., 2007), grad av sosialisering (Sherer & Schreibman, 2005) og autistisk subtype (Beglinger & Smith, 2005) kan være relatert til effekt..

De beste prediktorer på effekt ser imidlertid ut til å være ulike mål på hvor godt barnet gjør det de første månedene i behandling (Remington et al., 2007; Sallows & Graupner, 2005). Intensiteten i behandling målt i antall treningstimer per uke har variert en god del, fra under ti timer og opptil 40 timer per uke. En tilsvarende variasjon i effekt har blitt rapportert (Lovaas, 1987), noe som tyder på at dette kan være en viktig variabel. Likeså synes det som

mengden og frekvensen på veiledning og konsultasjon kan være relatert til effekt (Eikeseth, Hayward, Gail, Gitlesen & Eldevik, i trykk). Selv om mange variabler er rapportert å ha sammenheng med effekt, har man ikke klart og finne noen enkelt variabel som er sterk og konsistent nok til å ha særlig klinisk betydning. Det er fremdeles vanskelig å plukke ut de barna som vil profitere mest på behandlingen eller eventuelt komme i en «best outcome» gruppe. Det er også vanskelig å gi individuelle råd om antall treningstimer per uke og behandlingsvarighet. Basert på dagens forskning kan man kun gi et generelt råd om at alle barn bør tilbys minst 30 timer i uka i to til tre år (Green, 1996)

Målet med denne artikkelen var å samle et stort utvalg av barn med autismespekterforstyrrelser (autism spectrum disorders, ASD) som har fått tidlig intensiv atferdsbehandling. Et større utvalg vil gjøre det mulig å bruke mer avansert statistikk, slik som regresjonsanalyse i jakten på mulige prediktorer for behandlingsresultat. På grunnlag av en slik analyse kan vi kanskje komme i posisjon til å foreslå mere konkrete retningslinjer for intensitet i behandlingen.

Metoder

Søkestrategi og datainnsamling

For å finne alle relevante studier, gjorde vi et omfattende litteratursøk. Vi søkte i databasene PsycINFO, Medline-Pubmed og ERIC fram til mars 2008. Følgende søkebegreper, eller en kombinasjon av disse, ble brukt: behavior analytic/behavioral/early/intervention and autism and/or PDD.

Førsteforfatter leste deretter alle overskrifter og sammendrag for å finne ut hvilke artikler som burde undersøkes nærmere og kodes mer detaljert. Hvis det ble ansett som mulig at artikkelen rapporterte data på effekter av atferdsbehandling for barn med ASD, ble artikkelen valgt ut for mer detaljert koding. Videre ble referanseseksjonen i disse artiklene sett gjennom på jakt etter andre relevante artikler som ikke var blitt fanget opp i det elektroniske søket. Et kodeskjema (tilgjengelig fra førsteforfatter på forespørsel) ble utviklet for dette formålet. Først kodet vi hvorvidt behandlingen barna hadde fått var i overensstemmelse med de felles kjennetegnene på slik behandling som er beskrevet av Green og medarbeidere (2002, s. 70). Hvis det ble rapportert data på flere grupper barn, ble disse enten kodet som en *sammenligningsgruppe* (en annen behandlingstype eller typer ble spesifisert) eller *kontrollgruppe* (ingen behandling spesifisert). Deretter ble en rekke sant/usant skårer kodet i forhold til følgende utsagn: (a) barna var mellom to og sju år da behandlingen startet, (b) barna var uavhengig diagnostisert med autistisk forstyrrelse (F84.0) eller PDD-NOS (F84.9); (c) en fullskala test av intelligens eller adaptiv tilpasning i dagliglivet slik som Vineland Scales of Adaptive Behavior (Sparrow, Balla & Cicchetti, 1984) ble gjort ved inntak og etter behandling; å basere seg primært på ikke-verbale intelligens tester som Leiter-R (Roid & Miller, 1997) eller Merrill-Palmer (Stutsman, 1948) ble ikke ansett som tilstrekkelig for inkludering, da disse ofte gir kunstig høye skårer hos barn med autisme; (d) varigheten på behandlingen var mellom 12 og 36 måneder; (e) studien var ikke en case-studie (eller serie av case-studier); og, (f) resultatene hadde blitt rapportert i et fagfellevurdert tidsskrift. Hvis alle de ovenstående kriteriene ble oppfylt, ble så forfatterne av de respektive artikler kontaktet og spurt om å bidra med individuelle data, hvis ikke disse allerede var rapportert i originalartikkelen.

Hvis det var rapportert data fra kontroll- eller sammenligningsgruppene, ble disse inkludert i de videre analysene hvis det var rapportert at et begrenset omfang av EIBI var

gitt alene eller i kombinasjon med andre tiltak. Vi gjorde så en regresjonsanalyse for å se om behandlingsintensitet, målt som ukentlige treningstimer, var relatert til endring i intelligensskårer og tilpassningskårer.

Resultater

Studier som ble inkludert

Det elektroniske søket ga 2150 treff. Etter den innledende screeningprosessen satt vi igjen med 33 artikler som var aktuelle for en mer detaljert koding. Disse 33 artiklene ble så kodet av førsteforfatter mot to uavhengige personer (mastergradsstudenter i atferdsanalyse). Enighet i kodingen av de ulike studiene ble regnet ut mellom førsteforfatter og de to uavhengige skårerne. Dette ble gjort ved å dele det totale antall enige skårer på det totale antall enige pluss uenige skårer og gange med 100. Enigheten var i utgangspunktet tilfredsstillende (91 % og 94 % respektive), og de uenighetene som var til stede kunne oppklares etter en kort diskusjon.

Vi ekskluderte 18 av de 33 artiklene fordi de ved nærmere koding viste seg ikke å oppfylle alle kriteriene. Av de 15 gjenværende studiene var det bare fire som rapporterte individuelle data. Vi kontaktet derfor forfatterne av de øvrige artiklene og ba om individuelle data. Dette ble imøtekommet av samtlige. En av forfatterne sendte også med to upubliserte manuskripter og en annen sendte med en artikkel som var under trykking. Siden disse studiene oppfylte alle øvrige krav til inklusjon, besluttet vi å ta dem med i analysen. Følgelig endte vi opp med 18 artikler som kunne inngå i analysen. Totalt var det data på 480 barn, hvorav 154 var i kontroll- eller sammenligningsgruppene. I denne analysen valgte vi å plassere alle som hadde fått EIBI i en gruppe, uavhengig av hvordan dette tilbudet var organisert. Se tabell 1 for en mer detaljert beskrivelse av sammensetningen av utvalget. Her har vi delt opp i klinikkbasert og foreldrebasert intervensjon og kontroll og sammenligningsgrupper. Dette ble gjort for å kontrollere at gruppene var like i utgangspunktet.

Tabell 1. Demografiske karakteristika for hele gruppen og undergruppene

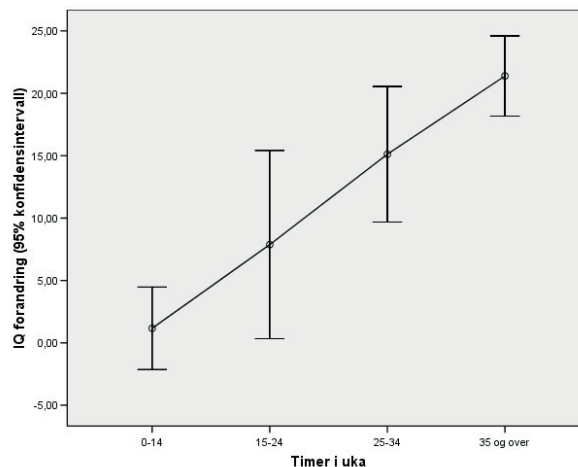
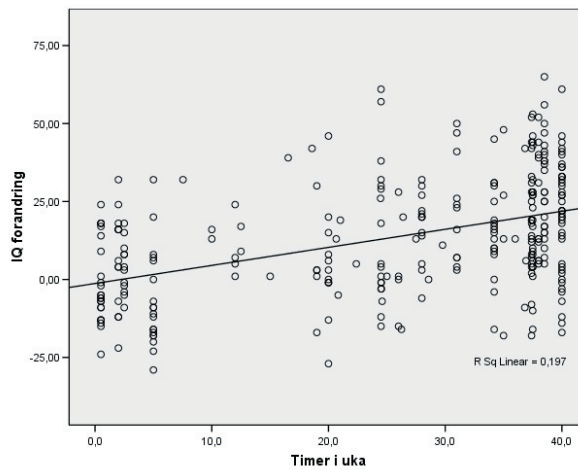
	Klinikk basert EIBI (n=255)	Foreldre basert EIBI (n=71)	Kontroll (n=111)	Sammenligning (n=43)	Total (N=480)
Alder (måned)					
Gjennomsnitt og SD	39 (12)	35 (5)	37 (7)	49 (16)	39
Range	16-84	24-45	18-72	21-84	16-84
Intelligens					
Gjennomsnitt og SD	56.5 (18.9)	51 (13.4)	57.4 (18.0)	54.6 (15.7)	55.9 (17.9)
Range	17-120	17-83	19-100	21-101	17-120
Tilpassning					
Gjennomsnitt og SD	61.3 (11.0)	59.1 (10.7)	64.9 (12.2)	61 (13.1)	61.4 (11.5)
Range	26-95	38-94	45-113	37-96	26-113

Prediksjon av effekt

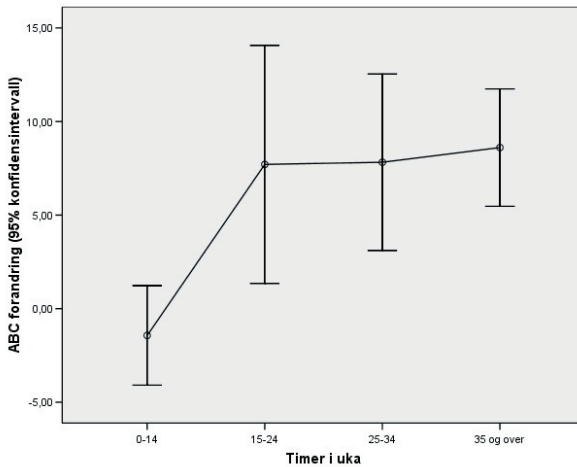
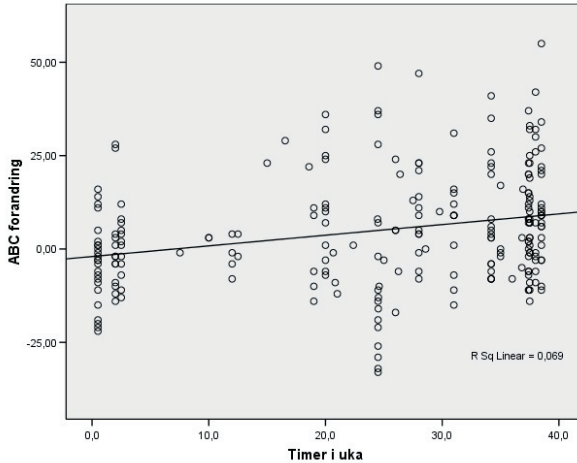
En lineær regresjonsanalyse ble gjort hvor behandlingsintensitet var den uavhengige variabelen. Forklart varians (R^2) og signifikansnivå rapporteres for både forandring i IQ- og ABC-skåre etter behandling. Vi gjorde to analyser: En hvor vi brukte timer per uke som en kontinuerlig variabel og en hvor vi grupperte intensitet slik: 0-14 timer per uke, 15-24 timer per uke, 25-34 timer per uke, og 35 eller mer. Flere studier rapporterte at en kontrollgruppe hadde fått en begrenset omfang av EIBI eller at en sammenligningsgruppe hadde fått EIBI

som en del av et eklektisk opplegg. For å få en så stor variasjon i utvalget som mulig hva angår antall timer per uke med atferdsanalytisk behandling, valgte vi å inkludere barn fra kontroll- og sammenligningsgrupper hvor timetall var rapportert eller kunne estimeres. Timetall på barn fra kontroll- og sammenligningsgruppene ble estimert til mellom 0,5 og 5 timer per uke med atferdsbehandling. For individuelle data ble R^2 .197 ($p < .001$) for IQ-endring og .069 ($p < .001$) for endring i ABC. Resultatene i blokker er omtrent de samme, R^2 .218 ($p < .001$) for IQ og .085 ($p < .001$) for ABC. Alle funnene er altså solid statistisk signifikante.

Figur 1 & 2. Disse figurene viser intensitet i behandling mot IQ-forandring. Øverste figur viser hvert barn med ett punkt. I nederste figur er antall timer satt i blokker mot IQ-forandring, innenfor et konfidensintervall på 95%.



Figur 3 & 4. Disse figurene viser intensitet i behandling mot ABC forandring. Øverste figur viser hvert barn med ett punkt. I nederste figur er antall timer satt i blokker mot ABC forandring innenfor et konfidensintervall på 95%.



Diskusjon

Data fra i alt 480 barn fra 18 ulike studier ble analysert. Demografiske data fra barna i denne undersøkelsen viser at utvalget er representativt for autismepopulasjonen generelt. Det var heller ingen signifikante forskjeller på noen av variablene ved inntak mellom gruppene som hadde fått atferdsbehandling, kontrollgruppen og sammenligningsgruppen. Behandlingsintensitet forklarer ca. 20 % av variasjonen i IQ forandring og ca. 7 % av variasjonen i ABC-ændring. Sammenhengen mellom IQ forandring og intensitet er såpass sterk at den har praktisk nytteverdi.

Vi hadde kun tilgang på et forholdsvis begrenset sett med variabler i denne undersøkelsen. Det kan være mer fruktbart å se etter prediktorer i variabler som gir et bedre uttrykk for kjerneatferdene ved autisme. For eksempel kan det tenkes at direkte mål på felles oppmerksomhet og skårer på diagnose observasjoner/intervjuer vil kunne gi bedre prediksjoner.

Referanser

- *Anderson, S. R., Avery, D. L., DiPietro, E. K., Edwards, G. L. et al. (1987). Intensive home-based early intervention with autistic children. *Education & Treatment of Children: Special Issue: New developments in the treatment of persons exhibiting autism and severe behavior disorders*, 10(4), 352–366.
- Beglinger, L. & Smith, T. (2005). Concurrent validity of social subtype and IQ after early intensive behavioral intervention in children with autism: A Preliminary Investigation. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 35, 295–303.
- *Ben-Itzhak, E. & Zachor, D. A. (2007). The effects of intellectual functioning and autism severity on outcome of early behavioral intervention for children with autism. *Research in Developmental Disabilities*, 28, 287–303.
- *Birnbrauer, J. S. & Leach, D. J. (1993). The Murdoch Early Intervention Program after 2 years. *Behaviour Change*, 10(2), 63–74.
- *Cohen, H., Amerine-Dickens, M. & Smith, T. (2006). Early Intensive Behavioral Treatment: Replication of the UCLA Model in a community Setting. *Developmental and Behavioral Pediatrics*, 27, 145–155.
- Eikeseth, S., Hayward, D. W., Gail, C., Gitlesen, J. P. & Eldevik, S. (i trykk). Intensity of supervision and outcome for preschool aged children receiving intensive behavioral interventions: A preliminary study. *Autism*.
- *Eikeseth, S., Smith, T., Jahr, E. & Eldevik, S. (2002). Intensive behavioral treatment at school for 4- to 7-year-old children with autism: A 1-year comparison controlled study. *Behavior Modification*, 26, 49–68.
- Eikeseth, S., Smith, T., Jahr, E. & Eldevik, S. (2007). Outcome for children with autism who began intensive behavioral treatment between ages 4 and 7: A comparison controlled study. *Behavior Modification*, 31, 264–278.
- *Eldevik, S., Eikeseth, S., Jahr, E. & Smith, T. (2006). Effects of low-intensity behavioral treatment for children with autism and mental retardation. *Journal of Autism & Developmental Disorders*, 36, 211–224.
- Green, G. (1996). Early behavioral intervention for autism: What does research tell us? In *Behavioral intervention for young children with autism: A manual for parents and professionals* (ss. 29–44). Austin, TX: Pro-Ed, Inc.
- Green, G., Brennan, L. C., & Fein, D. (2002). Intensive behavioral treatment for a toddler at high risk for autism. *Behavior Modification*, 26, 69–102.
- Handleman, J. S., & Harris, S. L. (2001). *Preschool education programs for children with autism* (Second ed.). Austin, Texas: PRO-ED.
- *Harris, S. L., & Handleman, J. S. (2000). Age and IQ at intake as predictors of placement for young children with autism: A four- to six-year follow-up. *Journal of Autism & Developmental Disorders*, 30, 137–142.
- *Hayward, D. W., Eikeseth, S., & Merry, C. (2005). *Clinic-based and Parent-Managed*

- Early Intensive Behavioral treatment: A One Year Follow-up*. Paper presented at the Association for Behavior Analysis International, Chicago, IL.
- *Howard, J. S., Sparkman, C. R., Cohen, H. G., Green, G., & Stanislaw, H. (2005). A comparison of intensive behavior analytic and eclectic treatments for young children with autism. *Research in Developmental Disabilities, 26*, 359–383.
- Leaf, R., & McEachin, J. (1999). *A work in progress*. New York: DRL Books.
- Lovaas, O. I. (1977). *The autistic child: language development through behavior modification / by O. Ivar Lovaas*. New York: Irvington Publishers: distributed by Halsted Press.
- Lovaas, O. I. (1981). *Teaching developmentally disabled children: the me book / by O. Ivar Lovaas, with Andrea Ackerman ... [et al.] and with contributions by Edward G. Carr and Crighton Newsom*. Baltimore: University Park Press.
- *Lovaas, O. I. (1987). Behavioral treatment and normal educational and intellectual functioning in young autistic children. *Journal of Consulting & Clinical Psychology, 55*, 3–9.
- Lovaas, O. I. (2003). *Teaching individuals with developmental delays: Basic intervention techniques*. Austin, TX: Pro-Ed.
- Maurice, C., Green, G., & Luce, S. C. (Eds.). (1996). *Behavioral intervention for young children with autism: A manual for parents and professionals*. Austin, TX: Pro-Ed, Inc.
- McEachin, J. J., Smith, T., & Lovaas, O. I. (1993). Long-term outcome for children with autism who received early intensive behavioral treatment. *American Journal on Mental Retardation, 97*, 359–372.
- *Remington, B., Hastings, R. P., Kovshoff, H., Espinosa, F., Jahr, E., Brown, T., et al. (2007). Early intensive behavioral intervention: Outcomes for children with autism and their parents after two years. *American Journal of Mental Retardation, 112*, 418–438.
- Roid, G. M., & Miller, L. M. (1997). *Leiter International Performance Scale-Revised: Examiners Manual*. Wood dale, IL.: Stoelting Co.
- *Sallows, G. O., & Graupner, T. D. (1995). *Wisconsin Early Autism Project, Inc.* Unpublisert manuskript, Madison, Wisconsin.
- *Sallows, G. O., & Graupner, T. D. (2001, May 2001). *Replicating Lovaas' findings: Three years into treatment*. Paper presented at the Annual Conference for the Association for Behavior Analysis, International, New Orleans, Louisiana.
- *Sallows, G. O., & Graupner, T. D. (2005). Intensive Behavioral Treatment for Children With Autism: Four-Year Outcome and Predictors. *American Journal of Mental Retardation, 110*, 417–438.
- Sherer, M. R., & Schreibman, L. (2005). Individual Behavioral Profiles and Predictors of Treatment Effectiveness for Children With Autism. *Journal of Consulting and Clinical Psychology, 73*, 525–538.
- *Smith, T., Buch, G. A., & Gamby, T. E. (2000). Parent-directed, intensive early intervention for children with pervasive developmental disorder. *Research in Developmental Disabilities, 21*, 297–309.
- *Smith, T., Eikeseth, S., Klevstrand, M., & Lovaas, O. I. (1997). Intensive Behavioral Treatment for Preschoolers With Severe Mental Retardation and Pervasive Developmental Disorder. *American Journal on Mental Retardation, 102*, 238–249.
- *Smith, T., Groen, A. D., & Wynn, J. W. (2000). Randomized trial of intensive early intervention for children with pervasive developmental disorder. *American Journal of Mental Retardation, 105*, 269–285.
- Sparrow, S. S., Balla, D. A., & Cicchetti, D. V. (1984). *Vineland Adaptive Behavior Scales*. Minnesota: American Guidance Service.

Stutsman, R. (1948). *Guide for administering the Merrill-Palmer Scale of Mental Tests*. New York: Harcourt, Brace & World.

*Weiss, M. J. (1999). Differential rates of skill acquisition and outcomes of early intensive behavioral intervention for autism. *Behavioral Interventions*, 14, 3–22.

*artikler som ble inkludert i analysen