

Linee Guida Cliniche

“LA BALBUZIE NEI BAMBINI, ADOLESCENTI E ADULTI”

Questa pubblicazione è stata avviata da:

NVST, Associazione Olandese per la Terapia della Balbuzie
Demosthenes, Associazione di Pazienti per (Genitori di) Bambini, Adolescenti e Adulti che Balbettano.

Realizzazione:

CBO

Fondi:

Le Linee Guida sono state sovvenzionate da *NVLF, Damsté-Terpstra Foundation, Demosthenes* e *NVST*

Presentazione alla traduzione italiana:

Tiziana Rossetto, Presidente Federazione Logopedisti Italiani
Maria Valeria Di Martino, Presidente Associazione Scientifica Italiana Logopedisti

Coordinatori:

Anna Accornero - Logopedista e Psicopedagogista, Dipartimento di Scienze Chirurgiche, Università degli Studi di Torino
Donatella Tomaiuoli - Logopedista e Psicopedagogista, Direttore del C.R.C. Balbuzie – Roma, Università degli Studi di Roma “ La Sapienza

Gruppo Traduttori:

Anna Accornero - Logopedista e Psicopedagogista, Dipartimento di Scienze Chirurgiche, Università degli Studi di Torino
Francesca Del Gado - Logopedista Specializzato in Balbuzie e Cluttering - E.C.S.F., C.R.C. Balbuzie - Roma
Dario Strangis - Logopedista Specializzato in Balbuzie e Cluttering - E.C.S.F., Voce InForma - Torino

Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie

Steinhagenseweg 2b

3446 GP Woerden

T: 0348-457070

F: 0348-418290

E: logopedie@nvlf.nl

KvK Rotterdam 40464115

Postbus 75

3440 AB Woerden

Citare le Linee Guida nel modo seguente:

Pertijs, M.A.J., Oonk, L.C., Beer, de J.J.A., Bunschoten, E.M., Bast, E.J.E.G., Ormond, van J., Rosenbrand, C.J.G.M., Bezemer, M., Wijngaarden, van L.J., Kalter, E.J., Veenendaal, van H. (2014). *Clinical Guideline Stuttering in Children, Adolescents and Adults*. NVLF, Woerden.

Traduzione Inglese: *Univertaal*. Agenzia di traduzioni per il mondo accademico.

La traduzione è stata finanziata da *Hogeschool Utrecht, University of Applied Sciences, NFS Dutch Stuttering Federation e NVST*

Tutti i diritti riservati.

Il testo di questa pubblicazione può essere riprodotto, memorizzato in un sistema di recupero o trasmesso in qualsiasi forma o con qualsiasi mezzo, elettronico, meccanico, fotocopiato o altro, ma solo previa autorizzazione dell'editore.

Il permesso di utilizzare il testo (segmenti) può essere richiesto per iscritto o per e-mail e solo per l'editore. Indirizzo e indirizzo e-mail: vedi sopra.

Il *CBO*, con sede a *Utrecht* (1979-2015), ha l'obiettivo di supportare le associazioni professionali e le organizzazioni sanitarie dei singoli professionisti nel miglioramento dell'assistenza ai pazienti. Il *CBO* ha offerto tutto questo attraverso programmi e progetti che hanno supportato e assistito il sistematico e strutturato miglioramento e mantenimento dell'assistenza di qualità per i pazienti.

PREFAZIONE

La ricerca scientifica consente a un Paese di essere competitivo nel “mercato” globale della conoscenza, di restare al passo con i Paesi più avanzati e di garantire il benessere della popolazione. Nell’ambito delle Professioni Sanitarie e specificatamente nella disciplina della Logopedia, questo concetto è ampiamente condiviso e pienamente sottoscritto dagli organismi di rappresentanza come le Associazioni maggiormente rappresentative ora impegnate nel percorso Ordinistico in riferimento alla Legge 3 del 2018. La Federazione Logopedisti Italiani, che ha rappresentato la Professione del Logopedista in Italia in questi ultimi 30 anni, ha implementato già nel 2004 un percorso virtuoso che impegnasse i Logopedisti ad adottare le scelte delle cure secondo le evidenze scientifiche e attuare cure di qualità: nacque così un progetto ambizioso ed impegnativo, il “Progetto LG FLI”, che si proponeva di realizzare Linee Guida quali documenti di comprovata efficacia e buone prassi in Logopedia. Furono inizialmente individuati ambiti laddove esisteva una forte variabilità di intervento nel percorso diagnostico – terapeutico, costituiti gruppi di interesse specialistico multiprofessionali e adottate strategie metodologiche di ricerca in riferimento al Sistema Nazionale Linee Guida. Iniziò così un grande movimento culturale e scientifico, che coinvolse non solo la comunità dei Logopedisti italiani, ma anche tutte le altre Professioni interessate e diverse Società Scientifiche oltre che enti di ricerca istituzionali, condividendo i principi della medicina delle evidenze. Sono così stati redatti importanti documenti di sanità pubblica come LG e Raccomandazioni, diventati ormai strumenti decisionali e strategici sia per la professione del Logopedista che per i Cittadini assistiti.

Il progetto iniziale della FLI ha trovato il suo naturale compimento nella costituzione di ASIL - Associazione Scientifica Italiana Logopedia, iscritta dal mese di novembre 2017, nell’elenco nazionale delle Società Scientifiche del Ministero della Salute.

ASIL e FLI collaborano costantemente sostenendo l’interdipendenza reciproca tra due dimensioni dell’agire professionale, Ricerca e Pratica clinica, che si costruiscono costantemente nel tempo, in una stretta interrelazione, seppur nella specificità che le caratterizza entrambe.

Senza gli sviluppi scientifici non c’è progresso, la Scienza è progresso oltre che un diritto dell’umanità, che è diritto alla “salute di tutti”, realizzabile con una collaborazione scientifica nazionale e internazionale e l’apporto dei decisori politici e delle istituzioni di ricerca (Università, Enti, Imprese).

Purtroppo nel nostro Paese il livello di investimenti in ricerca e sviluppo è di poco superiore all’1% del Pil, la metà della media dell’Ue, con i paesi più competitivi allineati all’obiettivo del 3% da raggiungere entro il 2020. Negli ultimi 10 anni gli investimenti pubblici in Italia sono diminuiti di oltre il 20% e non meglio è avvenuto per gli investimenti privati. Nel 2016 l’Italia ha investito in ricerca pubblica e privata appena 21,6 miliardi di euro, contro i 33 miliardi investiti dal Regno Unito, i 50 miliardi investiti dalla Francia e i 92 dalla Germania. E sono questi i Paesi che accoglieranno molti dei 30 mila studiosi che, si stima, l’Italia ha perso e perderà nel decennio 2010-2020. Nonostante le grandi difficoltà che la ricerca incontra nel nostro Paese in generale, maggiormente nel campo della Logopedia quale giovane disciplina, non si è mai fermato quel trend virtuoso promosso da

FLI e dalla comunità professionale ad essa vicina, per contribuire alla ricerca in Logopedia, dimostrando con azioni concrete, il valore dei suoi Professionisti dotati di grande capacità di lavoro di squadra sia a livello nazionale che internazionale e protagonisti di progetti di ricerca sempre più attuali. Malgrado la mancanza di risorse e investimenti, si è continuato in questi anni, ad essere “produttori” di documenti di buone prassi, promuovendo ulteriori Consensus Conference, o traducendo quanto già prodotto da ricercatori Logopedisti internazionali.

E’ con questo spirito di servizio e di sostegno al progresso scientifico della professione del Logopedista in Italia secondo gli standard internazionali, che gli Autori hanno tradotto le seguenti LG Olandesi sulla Balbuzie che finalmente saranno un punto di riferimento per l’appropriatezza e le buone prassi in Logopedia in un ambito dove ancor oggi, si riscontrano lacune culturali, pregiudizi e malpratica oltre che abusivismo professionale. Non saranno solo i Logopedisti italiani a trarne vantaggio, ma prima di tutto saranno i Cittadini assistiti che vivono queste difficoltà con le loro famiglie parte integrante e risorse fondamentale del progetto terapeutico nelle turbe della fluenza, per ultimo, ma non per questo meno importante, i Servizi Sanitari pubblici che potranno così avvalersi di interventi appropriati e di efficacia, escludendo le inappropriatezze che sprecano risorse preziose.

L’impegno degli Autori si distingue nel panorama nazionale per gli sforzi e la continuità nei riguardi dello studio e della ricerca nell’ambito delle Disfluenze, già Autori di una editoria specialistica su questi temi, con la traduzione delle LG completano un percorso di sviluppo professionale che rappresenterà un punto di riferimento per la comunità professionale dei Logopedisti ma non solo. A loro il nostro più sentito riconoscimento per quanto prodotto, per la valorizzazione della Professione, per la diffusione delle innovazioni, per la difesa dei più fragili e per il Diritto di quella Salute che ogni giorno le Persone ci affidano con fiducia.

Dott.ssa Tiziana Rossetto

Presidente Federazione Logopedisti Italiani

Dott.ssa Maria Valeria Di Marti

Presidente Associazione Scientifica Italiana Logopedisti

INTRODUZIONE ALLA TRADUZIONE ITALIANA

Le Linee Guida dell'Associazione Olandese di Foniatria e Logopedia sulla Balbuzie sono state recentemente elaborate da un gruppo multidisciplinare olandese, comprendente anche un'Associazione per (genitori di) bambini, adolescenti e adulti che balbettano.

Abbiamo ritenuto fosse molto importante rendere fruibile quanto riportato nelle Linee Guida Logopediche olandesi da parte di tutti i Logopedisti italiani, perché esse rappresentano le più recenti linee guida Evidence-Based sul disturbo a livello mondiale.

A questo proposito, un grande ringraziamento va a Mark Pertijs dell'Università di Utrecht ed a Marloes van der Boom della Dutch Association for Logopedics and Phoniatics (NVLF), che hanno autorizzato la traduzione in italiano e si sono anche resi disponibili a chiarimenti e confronti.

Poiché la valutazione ed il trattamento dei Disturbi della Fluenza Verbale sono di competenza del Logopedista, è fondamentale che egli acquisisca capacità avanzate che gli permettano di gestire con appropriatezza clinica tale Patologia, nel rispetto della sua multidimensionalità, e con un approccio multidisciplinare.

Sappiamo, infatti, che la Balbuzie è un disturbo del linguaggio complesso, a causa multifattoriale, che insorge prevalentemente in età prescolare. Può cronicizzare e permanere fino in età adulta a seconda di fattori di vulnerabilità presenti nella persona, oltre che di fattori di persistenza esterni. Se non valutata in modo approfondito e trattata adeguatamente, può creare un profondo disagio emotivo e ripercuotersi negativamente sulla Qualità della vita e sul Benessere della persona.

Confidiamo che questo Documento, accessibile a tutti i colleghi logopedisti italiani, possa costituire un valido strumento di Buona Pratica Clinica basata sull'Evidenza Scientifica, che contribuisca a implementare l'efficacia riabilitativa e a rinforzare la professionalità del Logopedista, che opera in sinergia all'interno di un Team, dove al centro dell'interesse di tutti vi è la Persona con i propri bisogni di Salute.

Anna Accornero

Donatella Tomaiuoli

Francesca Del Gado

Dario Strangis

INDICE

<i>Working Group</i>	10
<i>Advisory Panel</i>	10
Sintesi delle raccomandazioni	11
1. Quali sono gli indicatori per trattare i bambini, gli adolescenti e gli adulti che balbettano?	
2. Qual è il valore diagnostico dei test per bambini e adulti che balbettano?	
3. Quali sono gli effetti della terapia balbuzie nei bambini che balbettano fino ai sei anni?	
4. Efficacia delle terapie della balbuzie nei bambini di età compresa tra 6 e 13 anni	
5. Efficacia delle terapie della balbuzie negli adolescenti e negli adulti	
6. Efficacia della terapia farmacologica per adolescenti e adulti	
7. Quando e per quali ragioni un Paziente che Balbetta dovrebbe essere Rinviato da un Logopedista ad un <i>Fluency Specialist</i> o a un altro professionista sanitario?	
8. Come dovrebbe essere organizzato e realizzato l'aftercare?	
Capitolo 1: Introduzione generale	24
1.1 Background e motivazione	
1.2 Obiettivi della linea guida	
1.3 Popolazione target	
1.4 Potenziali utilizzatori	
1.5 Organismi principali coinvolti nello sviluppo della Linea Guida	
1.6 <i>Working Group</i> e <i>Advisory Panel</i>	
1.7 La Prospettiva del paziente	
1.8 Metodologia	
1.9 Disseminazione e implementazione	
1.10 Rilevanza giuridica delle Linea Guida	
1.11 Revisione della Linea Guida	
1.12 Finanziamenti	
Capitolo 2: Balbuzie e Trattamento Logopedico	32
2.1 Definizione di balbuzie	
2.1.1 Epidemiologia	
2.1.2 Cause della balbuzie	
2.1.3 Balbuzie e <i>International Classification of Functioning, Disability and Health Model</i> (ICF)	
2.1.4 Evoluzione della balbuzie	
2.1.5 Diagnosi	
2.2 Trattamento	
2.2.1 I Professionisti sanitari	
2.2.2 Approccio Diagnostico-Terapeutico	
2.2.3 Trattamento di adulti e adolescenti	
2.2.4 Trattamento dei bambini	

Capitolo 3: Quali sono gli indicatori per trattare bambini, adolescenti e adulti che balbettano?	45
3.1 Introduzione	
3.2 Metodologia	
3.3 Evidenze scientifiche	
3.3.1 Prevalenza e Incidenza	
3.3.2 Storia Familiare	
3.3.3 Genere	
3.3.4 Sintomatologia della balbuzie	
3.3.5 Sviluppo fonologico	
3.3.6 Linguaggio recettivo ed espressivo	
3.3.7 Disturbi concomitanti	
3.3.8 Temperamento e benessere sociale / emotivo	
3.3.9 Terapia	
3.4 Dalle Evidenze alle raccomandazioni	
Capitolo 4: Qual è il valore diagnostico dei test per bambini e adulti che balbettano?	55
4.1 Introduzione	
4.2 Metodologia	
4.3 Evidenze	
4.4 Dalle Evidenze alle raccomandazioni	
Capitolo 5: Quali sono gli effetti della terapia balbuzie nei bambini che balbettano fino ai sei anni?	71
5.1 Introduzione	
5.2 Metodologia	
5.3 Evidenze	
5.4 Dalle Evidenze alle raccomandazioni	
5.4.1 Certezza rispetto all' <i>Effect Size</i>	
5.4.2 Bilancio degli effetti Desiderati e Indesiderati	
5.4.3 Valori e preferenze	
5.4.4 Costi della terapia	
Capitolo 6: Efficacia delle terapie della balbuzie nei bambini di età compresa tra 6 e 13 anni	82
6.1 Introduzione	
6.2 Metodologia	
6.3 Evidenze	
6.3.1 Panoramica delle Revisioni Sistematiche degli studi sull'efficacia delle terapie della balbuzie nei bambini di età compresa tra 6 e 13 anni	
6.3.2 Studi individuali (internazionali) sull'efficacia delle terapie della balbuzie nei bambini di età compresa tra 6 e 13 anni	
6.3.3 Terapia Cognitivo-Comportamentale	

- 6.4 Dalle Evidenze alle raccomandazioni
 - 6.4.1 Certezza rispetto all' *Effect Size*
 - 6.4.2 Bilancio degli effetti Desiderati e Indesiderati
 - 6.4.3 Valori e preferenze
 - 6.4.4 Costi della terapia

Capitolo 7: Efficacia del Trattamento della Balbuzie in adolescenti e adulti95

- 7.1 Introduzione
- 7.2 Metodologia
- 7.3 Evidenze
 - 7.3.1 Panoramica delle Revisioni Sistematiche sull'efficacia degli interventi comportamentali
 - 7.3.2 Studi individuali (internazionali) sull'efficacia degli interventi cognitivi e / o comportamentali successivi alla pubblicazione delle revisioni sistematiche
 - 7.3.3 Studi sull'efficacia degli interventi cognitivi e comportamentali applicati nei Paesi Bassi negli ultimi anni
- 7.4 Dalle Evidenze alle raccomandazioni
 - 7.4.1 Certezza in relazione all' *Effect Size*
 - 7.4.2 Bilancio degli effetti desiderati e indesiderati
 - 7.4.3 Valori e preferenze
 - 7.4.4 Costi della terapia

Capitolo 8: Efficacia della terapia farmacologica in adolescenti e adulti127

- 8.1 Introduzione
- 8.2 Metodologia
- 8.3 Evidenze
 - 8.3.1 Panoramica delle Revisioni Sistematiche
 - 8.3.2 Studi individuali sull'efficacia e la sicurezza dei farmaci
- 8.4 Dalle Evidenze alle raccomandazioni
 - 8.4.1 Certezza rispetto all' *Effect Size*
 - 8.4.2 Bilancio degli effetti Desiderati e Indesiderati
 - 8.4.3 Valori e preferenze

Capitolo 9: Quando e per quali ragioni un paziente che balbetta dovrebbe essere reinviato ad un Logopedista, ad un *Fluency Specialist* o ad un altro Professionista Sanitario? ...133

- 9.1 Introduzione
- 9.2 Metodologia
- 9.3 Evidenze
 - 9.3.1 Problematiche di natura sociale / emotiva
 - 9.3.2 Corso della Terapia
- 9.4 Dalle Evidenze alle raccomandazioni

Capitolo 10: Come dovrebbe essere organizzato e realizzato l' *After-Care*143

- 10.1 Introduzione

10.2 Metodologia	
10.3 Evidenze	
10.4 Dalle Evidenze alle raccomandazioni	
10.4.1 Effetti Desiderati e Indesiderate dell' <i>After-Care</i> comparato con l'autoaiuto	
10.4.2 Prospettive del Professionista e del paziente	
10.4.3 Costi e <i>After-Care</i>	

Appendice 1: Valutazione dello studio	149
Appendice 2: Tabella sull'Evidenza di efficacia degli interventi comportamentali	152
Appendice 3: Tabella sull'Evidenza di efficacia per gli interventi cognitivo-comportamentali.....	154
Appendice 4: Overview della ricerca bibliografica sulla balbuzie	155
Appendice 5: Definizioni e concetti	160
Appendice 6: Analisi dei vincoli - Linea guida della balbuzie	168
Appendice 7: Abbreviazioni	172
Appendice 8: Procedura di Screening per Bambini che Potrebbero Balbettare	173

Working Group

- Bast, dr. E.J.E.G., Demosthenes Patient Association for (Parents of) Children, Adolescents and Adults who Stutter
- Bezemer M., NVST Dutch Association for Stuttering Therapy
- Beer, dr. ir. J.J.A. de, CBO
- Bunschoten, E.M., NVST Dutch Association for Stutter Therapy
- Kalter, E., MSc., NVLF Dutch Association for Logopedics and Phoniatics
- Kuijpers, dr. A.C., CBO (until March 2013)
- Oonk, L.C., MSc., Chair Working Group
- Ormondt, J. van, MSc., Demosthenes Patient Association for (Parents of) Children, Adolescents and Adults who Stutter
- Pertijs, M.A.J., MSc., Projectmanager
- Rosenbrand, drs. C.J.G.M., CBO
- Veenendaal, drs. H. van, CBO
- Wijngaarden, van, L.J., VSN Dutch Association Stuttering Centre

Ringraziamenti:

Vorremmo ringraziare Marie-Christine Franken per il suo contributo al capitolo sugli indicatori per trattare bambini, adolescenti e adulti che balbettano.

Vorremmo anche esprimere la nostra gratitudine a Hanneke Kalf per la sua disponibilità ad accettare il ruolo di advisor.

Elaine Kelman ha fornito consulenza linguistica tecnica, che è stata molto apprezzata.

Vorremmo anche ringraziare Rikie Deurenberg (CBO) per il suo contributo alla ricerca della letteratura e Mona van der Steeg (CBO) che ha guidato e assistito il focus group.

Advisory Panel

- Franken, drs. M.F.F., KH Netherlands Society of Otolaryngology and Head and Neck Surgery
- Heijden, van der, D., NVAB Netherlands Society of Occupational Medicine
- Hofkamp, drs. M., NVK Netherlands Paediatric Society
- Diepeveen, drs. F.B., AJN Netherlands Association of Paediatricians
- Lamers, M.C.C., LBBO National Occupational Group of Special Needs Education Professionals
- Nobel, drs. S.J.M., NHG Netherlands Society of General Practitioners
- Visscher, drs. A., NIP Netherlands Institute of Psychologists

Sintesi delle Raccomandazioni

1. Quali sono gli indicatori per trattare i bambini, gli adolescenti e gli adulti che balbettano?

La balbuzie è un disordine della fluenza verbale. I primi sintomi vengono solitamente osservati nei primi anni di vita, subito dopo che lo sviluppo linguistico è cominciato. La balbuzie si può evolvere in un problema di comunicazione che può compromettere significativamente lo sviluppo sociale e il benessere personale. La balbuzie può diventare persistente e complessa da trattare in età adulta. Vi sono delle evidenze scientifiche che indicano come un intervento precoce aumenti le probabilità di recupero dal disturbo. Comunque, alcuni bambini che hanno iniziato a balbettare potrebbero recuperare spontaneamente senza essere sottoposti ad alcuna terapia. Al momento non vi è sufficiente chiarezza sul numero dei bambini che recuperano spontaneamente e non è possibile prevedere con facilità quali recupereranno naturalmente. Verranno formulate delle raccomandazioni per far sì che logopedisti e specialisti della fluenza prendano delle decisioni basate sull'evidenza scientifica su quale sia il momento migliore per iniziare il trattamento della persona che balbetta, oppure se permettere al recupero spontaneo di fare il suo corso (ved. Capitolo 3)

Qualità delle Evidenze

Il recupero spontaneo e l'efficacia del trattamento svolgono un ruolo importante nel fornire consigli sulla questione di quando una persona che balbetta ha bisogno di essere curata. I dati sulla remissione spontanea mostrano grandi differenze e i fattori di rischio per la balbuzie persistente sono stati esaminati solo in misura limitata.

Trattare i bambini prima dei sei anni ha un effetto significativo sulla frequenza della balbuzie e vi è una ragionevole certezza che la stima di questa dimensione dell'effetto corrisponda alla dimensione dell'effetto reale. Il trattamento di bambini più grandi, adolescenti e adulti è meno efficace nel ridurre la percentuale di sillabe balbettate. Non sono disponibili dati sufficienti per determinare l'efficacia del trattamento della balbuzie sulle misure di esito come la qualità della vita, il comportamento di evitamento, la partecipazione e la naturalezza della parola.

Monitoraggio

Il monitoraggio è un processo attivo dove il logopedista o il *Fluency Specialist* (specialista della fluenza verbale) segue sistematicamente i progressi della balbuzie del paziente. Dopo la diagnosi/il consulto, il logopedista o il *Fluency Specialist* preparerà i genitori a registrare e osservare attentamente i sintomi della balbuzie del bambino. Il logopedista o il *Fluency Specialist* continuerà a preparare i genitori fino a verrà raggiunto un accordo con il

terapista sul grado di severità della balbuzie osservata. L'uso del sistema di registrazione da utilizzare, della frequenza delle registrazioni, nonché la modalità e la frequenza con cui vengono riportati i dati registrati al logopedista o al *Fluency Specialist*, saranno discussi e concordati in consultazione con i genitori. Durante il processo di monitoraggio il logopedista o *Fluency Specialist* controllerà se la modalità di valutazione dei genitori continua ad essere in accordo con la propria. Verrà effettuata una rivalutazione almeno ogni 6 mesi. Tali rivalutazioni dovrebbero avvenire preferibilmente 6 mesi e 1 anno dopo l'esordio della balbuzie.

Raccomandazioni

Le raccomandazioni sotto riportate dovrebbero essere considerate nella loro interezza.

1.	Il trattamento dei bambini che iniziano a balbettare prima dell'età di quattro anni, inizia prima che compiano cinque anni.
2.	Il logopedista o il <i>fluency specialist</i> monitorerà il bambino che ha iniziato a balbettare, prima dell'età di quattro anni, per individuare segni di recupero spontaneo durante un periodo pari ad un anno dall'esordio.
3.	Il logopedista o il <i>fluency specialist</i> inizierà il trattamento a 12 mesi dall'esordio, nel caso in cui la severità della balbuzie non sia diminuita chiaramente ¹ nei 3-6 mesi precedenti.
4.	Il logopedista o il <i>fluency specialist</i> prenderà in considerazione il pattern di recupero della balbuzie in famiglia, il genere, le abilità fonologiche, eventuali disturbi addizionali e il temperamento del bambino per prendere la decisione di iniziare l'intervento terapeutico o di monitorare lo sviluppo della fluenza.
5.	Il logopedista o il <i>fluency specialist</i> inizierà il suo intervento (anche se il bambino balbetta da meno di 12 mesi) se il bambino soffre a causa del disturbo, se i genitori sono preoccupati della balbuzie del bambino o se il bambino si mostra riluttante a comunicare.
6.	I genitori dei bambini sotto i 6 anni di età compilano la <i>Stuttering Screening List</i> (SSL) ² per determinare se è indicata un'ulteriore valutazione diagnostica da parte del logopedista o del <i>fluency specialist</i> .

¹Una chiara diminuzione della balbuzie corrisponde ad una riduzione media di almeno 2 punti sugli 8 punti della scala di severità della balbuzie (Yairi & Ambrose, 2005) o una riduzione media di 2 punti sulla scala di severità della balbuzie del Lidcombe Program. Questa diminuzione nella severità richiede l'osservazione sia da parte dei genitori sia del logopedista/*fluency specialist*

²Nota dei traduttori: nella Raccomandazione originale viene citata *Stuttering Screening List*, versione olandese (a cura di P. Sandrieser, 1996) della *Physician's Screening Procedure for Children Who may Stutter* di Riley e Riley (1989). Traduzione in lingua Italiana a cura di D. Strangis (2016) in Allegato 8.

- | |
|----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| <p>7. Il logopedista o il <i>fluency specialist</i> informerà professionisti medici, insegnanti e supervisor delle scuole d'infanzia all'interno della rete del/della bambino/a circa lo scopo e l'utilizzo della SSL³ e fornirà informazioni riguardanti siti internet importanti.</p> |
| <p>8. Nel caso di bambini sopra i 6 anni di età, adolescenti o adulti, in cerca di aiuto per la balbuzie, il logopedista o il <i>fluency specialist</i>, insieme al cliente, farà un inventario degli elementi ICF (<i>International Classification of Functioning, Disabilities and Health</i>) per comprendere se è indicato il trattamento.</p> |

Razionale delle Raccomandazioni

- La balbuzie può avere gravi conseguenze sulla qualità della vita di bambini e adulti che balbettano.
- Trattare i bambini piccoli che balbettano è più efficace del trattamento di bambini di sei anni o più: il rischio di una recidiva è minore e la possibilità di un recupero persistente è maggiore (Ingham & Cordes, 1998; Lincoln et al., 1996; Koushik et al., 2009).
- Trattare la balbuzie entro i 15 mesi dopo l'insorgenza ha una più alta probabilità di recupero rispetto all'avvio del trattamento una volta che la balbuzie è stata presente per più di 15 mesi (Ingham & Cordes 1998).
- L'osservazione dei primi sintomi della balbuzie dopo i 4 o 5 anni è stata associata ad un aumentato rischio di balbuzie persistente (Yairi & Ambrose 2005; Seery & Yairi 2011).
- Un ampio gruppo di bambini che iniziano a balbettare recupererà completamente senza trattamento. Tuttavia, ci sono grandi differenze nei dati riguardanti il recupero spontaneo (Yairi & Ambrose 2013, Onslow e O'Brian 2013).
- Ritardare il trattamento per un anno non prolunga la durata del trattamento richiesto (Jones et al., 2000; Klingston et al., 2003).
- Il rischio di balbuzie persistente aumenta se la balbuzie è ancora presente un anno dopo che sono stati osservati i primi sintomi (Yairi e Ambrose 2005, Seery e Yairi 2011).
- Una tendenza alla diminuzione della severità della balbuzie durante il primo anno dopo che i primi sintomi della balbuzie sono stati osservati, è un chiaro segnale di un potenziale recupero.
- Una riduzione del numero di ripetizioni, del numero di unità per ripetizione, dei blocchi e dei prolungamenti e di ulteriori comportamenti fisici, così come una riduzione nella percentuale di ripetizioni, sono predittori positivi di recupero (Yairi & Ambrose 2005; Seery & Yairi 2011).
- La severità della balbuzie nel primo anno non è né un predittore di balbuzie persistente né un predittore di recupero dalla balbuzie (Yairi e Ambrose, 2005; Seery e Yairi, 2011).

- La severità della balbuzie, la presenza di comportamenti secondari, i blocchi e i prolungamenti sono predittori di balbuzie persistente se la balbuzie è presente da un anno o più (Yairi & Ambrose 2005, Seery e Yairi 2011).
- L'intervento terapeutico è indicato se i genitori/i *carer* sono preoccupati (Reilly et al., 2013).
- Il punteggio medio ponderato SLD diminuisce di oltre la metà nel gruppo di bambini che recuperano dalla balbuzie, nei sei mesi fino a un anno dopo dall'insorgenza della balbuzie. Il punteggio medio ponderato SLD diminuisce in misura minima nel gruppo di bambini che continuano a balbettare nei sei mesi a un anno dall'insorgenza della balbuzie. Una tendenza simile è evidente per la severità della balbuzie (Yairi e Ambrose, 2005).
- Se la balbuzie persistente è presente nella famiglia del bambino che balbetta, allora la possibilità che il bambino continui a balbettare è del 65%. Anche la presenza di recupero dalla balbuzie nella famiglia del bambino prevede che la possibilità di recupero spontaneo spontanea sia del 65% (Yairi & Ambrose, 2005; Seery e Yairi, 2011). Il rapporto tra maschi e femmine che balbettano in giovane età è di 2:1. Negli adulti, il rapporto tra uomini e donne che balbettano è di circa 4:1. Le ragazze recuperano più velocemente. Se non si osserva un chiaro recupero in una femmina che ha balbettato per più di un anno, allora le probabilità che diventi una balbuzie persistente, aumentano (Yairi & Ambrose 2005; Seery e Yairi 2011).
- Disturbi aggiuntivi, una reazione negativa più alta e una bassa autoregolazione possono complicare le problematiche relative alla balbuzie e aumentare la probabilità di balbuzie persistente.
- I genitori di bambini che balbettano riferiscono regolarmente di essere stati inviati troppo tardi da un logopedista o da un *Fluency Specialist*.
- *SSL* è lo strumento di screening più utilizzato nei Paesi Bassi. *SSL* è disponibile gratuitamente tramite vari siti Web.

2. Qual è il Valore Diagnostico dei Test per Bambini e Adulti che balbettano?

La balbuzie è considerato un disturbo multifattoriale. Effettuare una diagnosi di balbuzie va oltre lo stabilire solamente se la balbuzie sia o meno presente. Durante la fase di valutazione, infatti, il Logopedista deve esplorare i vari domini dell'ICF (funzionamento, fattori esterni, fattori contestuali, fattori personali, partecipazione ed attività) in profondità e in dettaglio, e poi analizzarli e interpretare le loro interconnessioni. Per poter realizzare un profilo più completo possibile, il Logopedista dovrà quindi utilizzare i migliori strumenti diagnostici disponibili che sono applicabili e includerà tutte le persone che appartengono al contesto ambientale del cliente che sono rilevanti per il processo diagnostico. In questo capitolo viene discusso il valore degli strumenti diagnostici più utilizzati nei Paesi Bassi.

Conclusione sul valore diagnostico dei test

Sarà discussa la validità e l'affidabilità di un certo numero di strumenti che sono in uso o di interesse nei Paesi Bassi (vedi capitolo 4). Verranno trattati i seguenti strumenti:

- Stuttering Screening List and Stuttering Detection Instrument, entrambi utilizzati per identificare/ rilevare la balbuzie
- *Test dell'Attitudine Comunicativa - Dutch Revised (CAT-DR)*
- *Test per la severità della balbuzie nei lettori (TfS-R) /Test per la severità della balbuzie nei non-lettori e Stuttering Severity Instrument (SSI-3/4)*, entrambi utilizzati per determinare la gravità della balbuzie
- *Behaviour Assessment Battery (BAB)*, che comprende *il Communication Attitude Test e Erickson-S24 e Overall Assessment of Speaker's Experience of Stuttering (OASES)*, entrambi utilizzati per descrivere vari aspetti della qualità della vita.

TfS, SSI-4, OASES e BAB misurano anche vari aspetti del comportamento di evitamento.

Qualità delle evidenze

Nessun singolo strumento ha esaminato ogni aspetto della validità e dell'affidabilità. Ciò significa che non è disponibile un test completo, valido e affidabile con un'adeguata standardizzazione. A questo punto il *BAB* (bambini e adulti) e il *SSI* sembrano essere gli strumenti più validi e affidabili.

Valori e preferenze

a. Persone che balbettano

Vantaggi *dell'SSI-3/4*:

- Minimo impegno per il paziente con un investimento di tempo minimo;
- Può essere utilizzato sia all'interno che all'esterno dell'ambiente clinico.

Svantaggi *dell'SSI-3/4*:

- *SSI 3/4* è un test in lingua inglese, non è disponibile la traduzione olandese

Svantaggi del *BAB* (adulti e bambini):

- richiede un tempo lungo
- contiene espressioni fiamminghe
- richiede una buona conoscenza dell'olandese

b. Logopedisti/ specialisti della fluenza

Vantaggi *dell'SSI-3/4*

- utilizzato a livello internazionale

- può essere utilizzato sia all'interno che all'esterno del setting di terapia

Svantaggi dell'SSI-3/4

- SSI 3/4 è un test in lingua inglese, non è disponibile la traduzione olandese

Vantaggi del BAB:

- è stato studiato molto accuratamente e ha ottenuto buoni punteggi su vari aspetti di validità e affidabilità.
- si adatta bene al framework ICF.

Svantaggi del BAB (adulti e bambini):

- richiede un tempo lungo
- contiene espressioni fiamminghe
- richiede una buona conoscenza dell'olandese

L'OASES fornisce buone speranze per il futuro, ma non è ancora disponibile nei Paesi Bassi.

c. Costi

Uno svantaggio del *Behaviour Assessment Battery* (BAB) per bambini e adulti è l'alto prezzo di acquisto.

Raccomandazioni

Il punto di partenza per le raccomandazioni qui di seguito è che la terapia e il lavoro del logopedista devono rispettare gli standard professionali per garantire il processo decisionale clinico e la misurazione dei risultati. Si presume che sia stata raccolta la storia del caso in un colloquio con la persona che balbetta e/o i genitori/*caregivers*.

- | |
|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| <p>9. Il logopedista o il <i>fluency specialist</i> deve determinare la gravità della balbuzie con uno strumento adatto. Lo <i>Stuttering Severity Instrument</i> (SSI) viene preferito perché viene usato internazionalmente, è valido e sembra essere affidabile.</p> |
| <p>10. Il logopedista o il <i>fluency specialist</i> valuta il funzionamento, fattori esterni, fattori contestuali, fattori individuali, partecipazione e attività secondo i principi ICF durante la valutazione diagnostica. Il <i>Behaviour Assessment Battery</i> (BAB) è raccomandato come strumento diagnostico per bambini sopra i 6 anni di età, gli adolescenti e gli adulti. Per i bambini sotto i 6 anni d'età, non viene fornita nessuna raccomandazione specifica a causa della mancanza di strumenti diagnostici per questa fascia di età.</p> |

Razionale delle raccomandazioni

- Un peso relativamente grande è stato dato alla validità, affidabilità, disponibilità e al collegamento con gli sviluppi internazionali, e meno a fattori quali costi, investimenti di tempo, e il linguaggio del BAB e della versione inglese dell'SSI.

3. Quali sono gli Effetti della Terapia per la Balbuzie nei Bambini che Balbettano fino ai sei anni?

L'efficacia del Demands and Capacities Model (DCM) and the Lidcombe Program (LP) sarà descritta nel Capitolo 5. Nei Paesi Bassi DCM e LP sono gli interventi più comunemente impiegati per il trattamento della balbuzie nei bambini fino ai 6 anni. Saranno inoltre discussi l'efficacia dello Speech Motor Training (Riley & Riley, 1999) e la Terapia Comportamentale Socio-Cognitiva (Boey, 2003) per completare la conclusione e la raccomandazione.

Il punto di partenza è che l'efficacia di una terapia balbuzie deve essere valutata in uno studio randomizzato controllato (RCT) in studi di intervento con un gruppo di controllo. Saranno presi in considerazione sia gli studi in cui una terapia balbuzie viene paragonata al "non fare nulla", sia gli studi che confrontano varie terapie della balbuzie. Gli effetti desiderati e indesiderati delle terapie della balbuzie sono valutati in termini di:

- gravità della balbuzie;
- evitare situazioni di comunicazione verbale (comportamenti secondari);
- partecipazione;
- qualità della vita;
- naturalezza della parola.

Per i capitoli sull'efficacia della terapia della balbuzie e della terapia farmacologica (capitoli 6-7-8), vengono utilizzati gli stessi principi e le stesse misure di outcome.

Raccomandazione

11. Discutere con i genitori del bambino che balbetta, fino ai 6 anni d'età, in merito ai benefici dell'effettuare o meno un trattamento (riduzione della percentuale di sillabe balbettate e della severità della balbuzie). Spiegare la differenza tra il "*Lidcombe program*" e il trattamento basato sul "*Demands and Capacities Model*". Giungere ad una decisione condivisa con i genitori relativamente a quale dei due approcci sia preferibile.

Razionale della raccomandazione

- Esiste un buon grado di certezza sul fatto che trattare i bambini che balbettano fino a 6 anni con il *Lidcombe Program* sia più efficace nel ridurre la percentuale di sillabe balbettate, rispetto al non effettuare il trattamento.

- Non sono stati rilevati effetti nocivi del trattamento con LP.
- L'analisi ha messo in luce una corrispondenza del livello di efficacia del trattamento con LP rispetto al trattamento DCM.
- Le differenze di effetti e costi tra il trattamento con LP e DCM sono ridotte. Il LP è una buona alternativa al trattamento DCM nelle cure primarie olandesi.
- Il LP e il DCM dovrebbero essere preferiti rispetto al trattamento con *Speech Motor Training* e *Social Cognitive Behavioural Therapy* dato il grado di certezza rispetto all'*effect size* del trattamento. Va segnalato che lo *Speech Motor Training* non è un programma di trattamento di per sé, ma una componente di un programma. Lo SMT è potenzialmente applicabile nei trattamenti basati sul DCM se appare adatto al profilo del bambino che balbetta in base alla diagnosi.

4. Efficacia delle Terapie per la Balbuzie nei Bambini di età compresa tra i 6 e i 13 anni

L'efficacia delle Terapie per la Balbuzie nei bambini di età compresa tra i 6 ed i 13 anni è discussa ne Capitolo 6.

Raccomandazione

- | |
|-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| <p>12. Il trattamento della balbuzie nei bambini tra i 6 e i 13 anni d'età dovrebbe essere basato su un piano di lavoro che contenga tutti gli elementi ICF e che si focalizzi su tipi di comportamento, emozioni e pensieri identificati in collaborazione con il bambino che balbetta e con i suoi genitori durante la valutazione</p> |
|-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|

Razionale della Raccomandazione

- C'è poca certezza sulla misura in cui il numero di sillabe balbettate è diminuito nei bambini di età compresa tra 6 e 13 dopo il trattamento
- Non c'è prova sufficiente un tipo di trattamento sia più efficace di un altro nel trattamento dei bambini che balbettano di età compresa tra 6 a 13.
- Non vi è certezza che una riduzione della gravità della balbuzie nei bambini di età compresa tra 6 e 13 anni è inferiore rispetto ai bambini fino a 6 anni, ma più forte negli adolescenti e negli adulti.
- Il processo decisionale condiviso riguardante gli obiettivi, sulla base della diagnosi e in consultazione con il bambino che balbetta e i genitori è giustificato, data la natura multifattoriale della balbuzie.

5. Efficacia delle Terapie per la Balbuzie negli Adolescenti ed Adulti

L'efficacia dei diversi trattamenti per la Balbuzie per gli Adolescenti e gli Adulti sarà descritta nel Capitolo 7.

Raccomandazioni

13.	Il trattamento della balbuzie per adolescenti e adulti dovrebbe essere individualizzato. La terapia può aver luogo in setting individuali e/o di gruppo. Il piano di trattamento è stabilito all'interno di un dialogo tra il Logopedista e la persona che balbetta ("shared decision making"); il piano di trattamento contiene tutti gli elementi ICF. I desideri e le necessità del PWS compongono la base del piano di trattamento.
14.	A seconda di ciò che è stato concordato tra il la persona che balbetta e il Logopedista/ <i>fluency specialist</i> , il trattamento si focalizzerà su aspetti psicosociali (Emotivi; e reazioni cognitive rispetto al parlato), su aspetti verbali-motori o su entrambi. La terapia cognitivo-comportamentale (<i>Cognitive Behavioural Therapy</i>) è raccomandata per il trattamento degli aspetti psicosociali.
15.	Gli elementi della terapia per la balbuzie dovrebbero includere: <i>Promoting Transfer</i> – è essenziale che la PWS applichi le competenze apprese e gli <i>insight</i> nella vita quotidiana. <i>Promoting and maintaining self-management</i> - la PWS è in grado di valutare la propria balbuzie e il comportamento ad essa associato e correggerlo, se necessario.
16.	In generale, non è raccomandato l'utilizzo di strumenti basati sull' <i>Altered Auditory Feedback</i> (AAF). Tuttavia, in circostanze specifiche, questi strumenti possono ridurre la percentuale di balbuzie in alcuni PWS. Bisogna sottolineare che però questo effetto potrebbe non mantenersi.

Razionale delle raccomandazioni

- Vari trattamenti per la balbuzie hanno effetti positivi direttamente dopo il trattamento modificando la frequenza delle disfluenze; questi, tuttavia, variano in impatto. Alcuni studi riferiscono che gli effetti positivi sono mantenuti sei mesi dopo la terapia, altri riferiscono la presenza di (alcune) recidive. La certezza rispetto all' *effect-size* è limitata per la misura di *outcome* della frequenza, a causa di alcuni limiti nella progettazione dello studio e della dimensione del campione. Le misure di *outcome* diverse dalla frequenza della balbuzie, come il comportamento di evitamento (situazione e parola evitabile), la naturalezza del parlato, la partecipazione o la qualità della vita non sono state sufficientemente investigate.
- La letteratura scientifica non fornisce alcuna prova forte che una terapia sia (molto)

- più efficace di un'altra.
- È opportuno cooperare e condividere le motivazioni per la scelta di una terapia specifica con la persona che balbetta, in base ai suoi desideri e alle sue esigenze.
 - Il gruppo di lavoro, nella redazione di queste raccomandazioni, non è stato in grado di allegare dati conclusivi sui costi della terapia, a causa della mancanza di informazioni sui costi correnti.
 - La raccomandazione per la terapia di gruppo poggia sull'esperienza dei membri del gruppo di lavoro e sulle esperienze delle persone che balbettano, come espresso all'interno di un *focus group* organizzato nell'ambito di questo orientamento. La terapia in gruppo può migliorare la motivazione per la terapia e essere un valore aggiunto per il rapporto con i pari.

6. Efficacia delle Terapia Farmacologica per Adolescenti ed Adulti

Il capitolo 8 discute l'efficacia di diversi farmaci per adolescenti e adulti che balbettano. Ci sarà solo una breve descrizione dello stato dell'arte, dato che i farmaci non vengono utilizzati nei Paesi Bassi. È quindi assente qualsiasi valutazione in merito alla certezza della dimensione dell'effetto.

Raccomandazione

- | |
|-----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| <p>17. L'uso di farmaci nella terapia per la balbuzie non è raccomandato. Nel caso in cui vi sia comorbidità e balbuzie, si raccomanda una scelta e una dose appropriata dei farmaci in consultazione sia con la persona che balbetta (e il suo contesto ambientale) che con colui che li prescrive.</p> |
|-----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|

Razionale della raccomandazione

- Potenzialmente tutti i farmaci sono associati a effetti collaterali per utilizzo a lungo termine. Vista l'assenza di effetti significativi dei farmaci da una parte e i potenziali effetti collaterali dall'altra, non vi è ragione per raccomandarne una somministrazione a lungo termine.

7. Quando e per quali ragioni un Paziente che Balbetta dovrebbe essere Rinvio da un Logopedista ad un *Fluency Specialist* o a un altro professionista sanitario?

Il trattamento della balbuzie può essere complesso e non sempre viene effettuato solo da un logopedista o da un *fluency specialist*. Il capitolo 9 descrive le indicazioni per fare riferimento ad un *fluency specialist* e ad un altro operatore sanitario. Questo documento fornisce maggiore chiarezza su quando e per quali ragioni dovrebbe essere fatto il rinvio e a quale professionista sanitario.

Raccomandazioni

Expertise

18. Il Logopedista deve essere in grado di mettere in pratica le raccomandazioni riportate in queste linee guida rispetto agli approcci diagnostici e terapeutici. Se il logopedista non ha l'esperienza e le conoscenze per farlo, il cliente deve essere orientato a rivolgersi ad un altro logopedista più competente nel campo della balbuzie o ad un Fluency Specialist.

Problematiche di tipo sociale/emotivo

19. Dove si sospetta ansia o depressione sociale nel balbuziente, basandosi sui risultati della *Behaviour Assessment Battery* (BAB), il Logopedista o il Fluency Specialist deve consolidare questo sospetto attraverso la somministrazione dello *Strength and Difficulties Questionnaire*³ o della *Four Dimensional Symptoms List*. A seguito di un'indicazione positiva in tal senso, il logopedista o il Fluency specialist dovrebbe consultarsi con la PWS o i genitori per essere rinvio al Medico di Medicina Generale per un rinvio potenziale a uno psicologo o a uno psichiatra.

20. In caso di bambini o di giovani balbuzienti, il Logopedista dovrebbe indagare il problema del bullismo. Ciò potrebbe includere l'utilizzo di un questionario adatto per il bullismo. Se viene identificato bullismo, il Logopedista dovrebbe parlarne con i genitori e concordare un piano di azione.

21. Durante la valutazione, il Logopedista fornirà le informazioni alla PWS sulle opzioni del trattamento al fine di permettere una scelta informata relativa a quest'ultimo. Il Logopedista dovrebbe fornire informazioni relative ad altre fonti rilevanti e siti internet importanti.

³Nota dei traduttori: Scaricabile gratuitamente nella versione italiana (Andrea De Giacomo, Paola Dazzan, Loreta Bernardi) al seguente link: <http://www.sdqinfo.org/py/sdqinfo/b3.py?language=Italian>

Corso della terapia

- | |
|-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| 22. Se un bambino che balbetta fino all'età di 6 anni non ha fatto progressi con 11 -12 sedute di terapia o nell'arco di 3 mesi, bisognerebbe consultare un Fluency Specialist. |
| 23. Se durante le valutazioni del processo terapeutico, effettuate ogni 2 o 3 mesi, gli obiettivi di trattamento realistici e realizzabili non sono stati raggiunti a sufficienza (secondo la PWS o il Logopedista), il Logopedista dovrebbe discutere della possibilità di rinviare il paziente ad un altro professionista. |

Trasferimento e accordo sul rinvio

- | |
|------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| 24. Il Logopedista e le altre figure professionali coinvolte con la PWS in una regione specifica instaurano un accordo di lavoro relativo alla collaborazione, al rinvio e al trasferimento di informazioni. Quando il paziente viene rinvio ad un altro logopedista o ad un <i>fluency specialist</i> , il logopedista formula domande specifiche che includono tutti gli elementi ICF importanti. |
|------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|

Razionale per le Raccomandazioni

- La complessità della balbuzie e le problematiche di tipo sociale/emotivo associate richiedono capacità particolari da parte del terapeuta.
- Non è desiderabile continuare con una terapia che sta avendo un effetto insufficiente.
- Un miglioramento significativo della balbuzie, nei bambini che balbettano e con età inferiore ai 6 anni, avviene in media dopo 11-12 sessioni di trattamento (Kingston, Huber, Onslow, Jones & Packman, 2003; Millard, Nicholas & Cook, 2008; Yaruss, Coleman & Hammer, 2006).
- Alcune persone che balbettano sviluppano serie problematiche di tipo emotivo come depressione o ansia sociale (Blumgart, Tran & Craig, 2010; Iverach & Rapee, 2013; Koendoot, Bouwmans, Franken & Stolk, 2011; Tran, Blumgart & Craig, 2011).
- Bambini e adolescenti hanno un rischio maggiore di essere vittime di episodi di bullismo e sperimentare quindi reazioni negative verso la propria balbuzie ad opera dei propri pari (Blood et al., 2010; Langevin, 2009).
- Il *fluency specialist* possiede competenze aggiuntive nel trattamento della balbuzie
- Il logopedista o il *fluency specialist* non sono in grado di affrontare problematiche di tipo sociale/emotivo gravi o complesse, indipendentemente dal fatto che queste siano causate dalla balbuzie.
- E' raccomandato l'uso del questionario *Streght and Difficulties Questionnaire* (SDQ) per effettuare uno screening delle problematiche di tipo sociale/emotivo in bambini tra i 3 e i 13 anni. Questo è uno strumento semplice da utilizzare ed è disponibile gratuitamente (www.sdqinfo.org).

- La *Four Dimensional Symptom List* (4DSL) o la *Depression Recognition Scale* (DRS) sono raccomandate per effettuare uno screening delle problematiche di tipo sociale/emotivo in adolescenti ed adulti (Ruiter & Jong, 2010).

8. Come dovrebbe essere organizzato e realizzato l'aftercare?

Nel Capitolo 10 viene definito un adeguato follow-up e viene descritta l'organizzazione dell'aftercare per le persone che balbettano. Nel contesto di questa Linea Guida il gruppo di lavoro definisce il follow-up come: il percorso successivo alla fine della terapia con gli appuntamenti relativi alle cure e all'aftercare.

Raccomandazione

25. Qualsiasi approccio alla balbuzie deve includere metodi che promuovano effetti a lungo termine e che affrontino possibili ostacoli. Il modo in cui il *follow-up*, parte integrante del processo terapeutico, viene organizzato è definito dal logopedista e dalla PWS, in collaborazione con il suo ambiente. Alla fine del trattamento clinico, il logopedista propone un *follow up* individualizzato che dura 2 anni. Al fine di impedire ricadute e per promuovere gli effetti a lungo termine, il logopedista suggerisce alla PWS e al suo ambiente di mettersi in contatto con altre persone che balbettano, ad esempio attraverso attività organizzate da associazioni di pazienti.

Razionale della raccomandazione

- La recidiva si verifica frequentemente, e solo se la PWS ha interiorizzato il trasferimento della terapia in situazioni non cliniche (cioè durante la partecipazione alla società) e ha un piano di *aftercare* a portata di mano, possono essere raggiunti benefici significativi.
- I concetti *aftercare* e auto-aiuto non sono sempre chiaramente distinti gli uni dagli altri nella letteratura sulla balbuzie.
- È necessario definire gli obiettivi di una *aftercare* di buona qualità.
- Nella letteratura sulla balbuzie e nella pratica clinica la durata usuale e auspicabile dell'assistenza post-trattamento è di due anni.
- Il *working group* non è stato in grado di stabilire stime accurate sui costi dell'*aftercare* nella stesura di queste raccomandazioni, principalmente a causa della mancanza di informazioni sui costi correnti.

Capitolo 1: Introduzione Generale

1.1 Background e Motivazione

L'incidenza mondiale della balbuzie va dal 5% all'8%: calcolata nei bambini raggiunge anche il 17%. La balbuzie persiste (prevalenza) in circa l'1% della popolazione. Essa può portare a limitazioni sociali e relazionali. Il trattamento e/o il coaching di persone che balbettano e del loro ambiente può fornire un grande contributo nel ridurre tali limitazioni.

Per trattare la balbuzie vengono utilizzate varie tecniche basate su diversi approcci terapeutici. Non è sempre chiaro al logopedista, al *fluency specialist*, alla persona che balbetta o all'assicuratore sanitario quali tipi di trattamento siano i migliori per una determinata situazione.

Fino ad ora, c'è stata una mancanza di linee guida *evidence-based* sulla balbuzie che utilizzino la procedura GRADE, adottata recentemente (Guyatt, 2008).

Le linee guida *evidence-based* sono definite come "documenti con raccomandazioni, che hanno lo scopo di migliorare la qualità di vita, sulla base di una revisione sistematica della ricerca scientifica e discussioni su vantaggi e svantaggi delle differenti opzioni di cura, integrate con le competenze e le esperienze dei professionisti della sanità e degli utenti che ne fruiscono" (*Guideline For Guidelines*, 2011).

Le linee guida hanno lo scopo di:

- Rendere più gestibile la rapida crescita dell'afflusso di informazioni;
- Ridurre la variabilità indesiderata dei trattamenti forniti dai professionisti sanitari;
- Basare il trattamento clinico sull'evidenza scientifica piuttosto che su esperienze e opinioni;
- Fornire una maggiore trasparenza ai pazienti e a coloro che effettuano un rinvio

Le linee guida sono un mezzo per rendere noti i migliori tipi di cura, sulla base di tre fonti: l'evidenza scientifica, le competenze dei professionisti nei settori pertinenti e le competenze dei pazienti. Le linee guida costituiscono anche una base importante per nuove iniziative di ricerca scientifica orientate verso la pratica clinica, dato che la suddetta letteratura revisiona le lacune esposte.

Attualmente, nel campo della balbuzie, sono disponibili tre linee guida in inglese. Tali linee guida sono obsolete e non basate sul criterio GRADE. Le linee guida più influenti sono quelle che sono state sviluppate a livello nazionale e interpretate a livello locale (Barkham et al., 2010). Perciò la *Dutch Association for Logopedics and Phoniatrics* (NVLF), la *Dutch Association for Stuttering Therapy* (NVST) e *Demosthenes*, associazione per (genitori di) bambini, adolescenti e adulti che soffrono di balbuzie hanno espresso il desiderio di definire come dovrebbe essere progettata la diagnosi, il trattamento e il follow up dei clienti che balbettano. *Demosthenes* ha anche enfatizzato che ci debbano essere delle

informazioni accessibili alle persone che balbettano, soprattutto per dagli la possibilità di prenotare una visita da un logopedista/*fluency specialist*. Il CBO è stato contattato da NVLF, NVST e Demosthene per la loro grande esperienza nello sviluppo di linee guida. Lo scopo del CBO è migliorare la cura del paziente in collaborazione con professionisti, pazienti e organizzazioni sanitarie e desidera contribuire al miglioramento della cura di persone che balbettano. Demosthene, NVLF, NVST e il CBO hanno elaborato congiuntamente un piano per lo sviluppo delle Linee Guida sulla Balbuzie, optando per un metodo di sviluppo delle linee guida, che è stato tagliato su misura sui requisiti che vengono stabiliti per lo sviluppo di linee guida evidence-based a livello internazionale.

Agli attuali autori, durante il *8th World Congress on Fluency Disorders, 6-8 July, 2015 Lisbona, Portogallo*, è stato richiesto di fornire queste linee guida anche in lingua inglese, perché la presentazione del processo di scrittura per queste linee guida e alcuni esempi tratti da esse hanno suscitato un notevole entusiasmo nel pubblico. Questa traduzione (in inglese) è stata debitamente eseguita da Univertaal.

Durante questo processo, alcuni errori di tipo amministrativo o ambiguità sono stati chiariti in modo collettivo da tre persone dall'intero gruppo di autori, cioè LCO, MAJP e EJEGB.

Inoltre, vorremmo ringraziare Elaine Kelman per i consigli tecnici di tipo linguistico. Dati recenti riguardanti l'intervento precoce sono stati pubblicati nel frattempo e tali referenze sono state incluse. In tal modo, alcune affermazioni nel Capitolo 5 potrebbero essere rafforzate. L'intera traduzione Inglese è stata offerta a tutto il gruppo di autori originali, così come agli sponsors. Questo testo verrà offerto anche all'*International Stuttering Association* e alla *International Fluency Association* per essere commentato. Tali commenti verranno ricevuti con piacere da MAJP per migliorare possibilmente il testo. Mentre il testo è basato su pubblicazioni internazionali, il suo obiettivo non è quello di fornire delle linee guida che possano essere utilizzate globalmente per ogni paese. Piuttosto, gli organismi nazionali possono discostarsi dal testo dopo l'approvazione dell'ISA e dell'IFA, al fine di adottare il testo in specifiche circostanze nazionali - come per i sistemi assicurativi e disponibilità di determinate metodologie terapeutiche. Le linee guida sono soggette a specifici accordi nazionali; non pretendono di fornire un insieme di regole, piuttosto un insieme di strumenti. L'utilizzo di queste linee guida rimane responsabilità individuale del clinico. Gli attuali autori declinano tale responsabilità.

1.2 Obiettivi delle Linee Guida

Queste linee guida hanno lo scopo di migliorare la qualità e l'efficacia dell'assistenza sanitaria fornita da logopedisti e specialisti della fluenza (*fluency specialist*) nei confronti delle persone che balbettano e del loro ambiente. Queste linee guida forniscono chiare raccomandazioni rispetto all'assistenza ottimale verso le persone che balbettano, in termini di diagnosi, trattamento, rinvio e *follow up*, prendendo in considerazione lo stato attuale della letteratura scientifica e gli *insight* all'interno della pratica professionale durante il 2013. Inoltre, le linee guida hanno lo scopo di accrescere la conoscenza sulla balbuzie di logopedisti, *fluency specialist*, medici, istituti scolastici, persone che balbettano e i loro genitori.

1.3 Popolazione target

Le linee guida forniscono raccomandazioni rispetto a diagnosi, trattamento, follow up e gestione di bambini, adolescenti e adulti che balbettano.

La balbuzie evolutiva insorge, in generale, prima dei sei anni, solitamente tra i due e mezzo e i quattro anni. La forma più comune di balbuzie viene definita balbuzie evolutiva. Essa può essere messa a confronto con altre forme di balbuzie che sono causate, per esempio, da una condizione neurologica, un trauma o uno stress emotivo.

Le linee guida fanno riferimento esclusivamente alla balbuzie evolutiva e, tra logopedisti e fluency specialist, il termine “balbuzie” si riferisce in generale a tale fenomeno.

1.4 Potenziali Utilizzatori

Le linee guida sono state disegnate principalmente per Logopedisti e Fluency Specialist. E' però consigliata una consultazione di tali linee guida anche da parte di tutti i professionisti sanitari che possono entrare in contatto con bambini, adolescenti e adulti che balbettano, come Medici di Medicina Generale, Pediatri, Otorinolaringoiatri, Psicologi e terapisti occupazionali. Inoltre, le linee guida potrebbero anche essere utilizzate da assicuratori sanitari e persone che balbettano in modo da dargli la possibilità di sapere cosa dovrebbero aspettarsi in termini di assistenza sanitaria.

1.5 Organismi principali coinvolti nello sviluppo delle linee guida

L'iniziativa per lo sviluppo e l'implementazione delle Linee Guida cliniche evidence-based sulla Balbuzie per bambini e adulti è stata intrapresa dalla *Dutch Association for Stuttering Therapy* (NVST), da *Demosthenes*, associazione per (genitori di) bambini, adolescenti e adulti che balbettano e dalla *Dutch Association for Logopedics and Phoniatrics* (NVLF). Le linee guida sono state sviluppate sotto gli auspici della NVLF; NVLF è lo sponsor e il promotore delle linee guida.

1.6 Working Group e Advisory Panel

Nel 2012 è stato istituito un *working group* per la redazione di queste linee guida. Questo gruppo di lavoro è formato dai rappresentanti delle più importanti organizzazioni coinvolte nella diagnosi e nel trattamento della balbuzie, così come dai rappresentanti dell'associazione dei pazienti e dai metodologi delle linee guida del CBO.

Tale gruppo di lavoro ha avuto la responsabilità di delineare una bozza delle linee guida e determinarne successivamente il testo definitivo. Nella costruzione del gruppo di lavoro, i

membri sono stati scelti ponendo attenzione alla loro diffusione geografica sul territorio e ai loro background accademici, rispettando una rappresentazione che fosse proporzionale per ogni organizzazione coinvolta. I membri hanno agito in modo indipendente e le loro associazioni li hanno incaricati di partecipare al *working group*. Tutti i membri del gruppo di lavoro hanno compilato una dichiarazione di interessi. Nessuno di loro ha riportato rilevanti conflitti di interessi.

L'*advisory panel* è formato da organizzazioni di professionisti coinvolte in modo indiretto nella diagnosi e nel trattamento di adulti e bambini che balbettano. Gli è stato chiesto di presentare nel dettaglio quali importanti criticità abbiano riscontrato nell'assistenza di bambini e adulti che balbettano. Durante la *comment phase*, è stato chiesto ai membri dell'*advisory panel* di fornire feedback sulla bozza delle linee guida.

1.7 La Prospettiva del Paziente

La prospettiva del paziente ha assunto un ruolo centrale nella stesura di queste linee guida. I rappresentanti dei pazienti di *Demosthenes* (associazione di pazienti) hanno partecipato al *working group*. E' stato inoltre formato un *focus group* con persone che balbettano e genitori di bambini che balbettano, indipendentemente dal fatto che fossero o meno membri dell'associazione *Demosthenes*; questo ha permesso alla popolazione di persone che balbettano nei Paesi Bassi di essere rappresentata il più uniformemente possibile nella stesura delle linee guida.

1.8 Metodologia

a. Questioni e Quesiti Principali

Al fine di illustrare i problemi che devono affrontare le persone che balbettano, loro e i professionisti sanitari associati, sono stati invitati tramite vari canali a compilare un questionario su questo tema. Un'analisi di tali problemi è stata completata sia dal punto di vista del paziente, sia dal punto di vista dei professionisti sanitari, in base ai risultati del questionario. I problemi sono stati esplorati in modo più approfondito in un incontro del *focus group*, con persone che balbettano e genitori di bambini che balbettano. Sulla base delle analisi di tali problemi sono stati definiti alcuni quesiti principali; questi sono stati successivamente valutati dal *working group*. Una volta incorporati i commenti del gruppo di lavoro, è stata elaborata una lista definitiva con i quesiti principali; questa si è concentrata sulle problematiche più importanti nella pratica quotidiana (Appendice 7). I principali quesiti formano la base dei diversi capitoli di queste linee guida.

b. Approccio del gruppo di lavoro

Il *working group* ha dedicato circa un anno e mezzo per rispondere ai Quesiti Principali e preparare la bozza delle linee guida. I metodologi si sono occupati di fornire le descrizioni relative alle evidenze scientifiche. I membri designati del gruppo di lavoro hanno realizzato

una presentazione che è stata discussa durante una riunione del gruppo ed integrata con le informazioni pratiche richieste. Le raccomandazioni sono state create sulla base del consenso (informale) all'interno del *working group*. Per un numero limitato di quesiti principali i membri del gruppo di lavoro hanno scritto un testo che non era basato sulla revisione sistematica della letteratura, in quanto era chiaro che non vi erano, o vi erano scarsissime, evidenze scientifiche per tali aree. I testi sono stati discussi durante le riunioni plenarie e approvati dopo l'integrazione dei commenti. La bozza delle linee guida approvata dal gruppo di lavoro è stata successivamente presentata alle associazioni di professionisti e di pazienti, coinvolte per un commento.

Una bozza definitiva delle linee guida è stata approvata l'8 ottobre 2014 dal *working group*, una volta che tali commenti sono stati incorporati e inviati a organizzazioni di professionisti competenti per l'autorizzazione. Le linee guida sono state approvate dalle commissioni delle associazioni dei professionisti a fine Ottobre 2014.

c. Evidenza Scientifica

Queste linee guida sono basate su evidenze tratte da ricerche scientifiche pubblicate. Database rilevanti come Cochrane Library, MEDLINE, EMBASE, PsycINFO e CINAHL sono stati consultati in modo sistematico per articoli rilevanti. Ogni quesito principale ha avuto una strategia di ricerca dedicata; queste sono state descritte brevemente per ogni quesito principale e possono essere richieste al CBO. Oltre alla letteratura di tale ricerca, sono state incluse alcune pubblicazioni di membri del *working group*, a patto che rispettassero i criteri di inclusione. Le pubblicazioni riguardanti terapie o trattamenti che non rispettavano i criteri di inclusione non sono state utilizzate per l'evidenza scientifica, ma sono state potenzialmente discusse nel contesto del punto di vista dei professionisti, come parte delle altre deliberazioni.

Successivamente alla selezione della letteratura più rilevante, gli articoli riguardanti gli interventi terapeutici sono stati valutati rispetto alla qualità della ricerca e classificati rispetto al grado di evidenza scientifica. Gli studi riguardanti la *validità*, l'*affidabilità* e la *standardizzazione* degli strumenti diagnostici non sono stati invece classificati rispetto al grado di evidenza scientifica.

La qualità dell'evidenza - definita anche come il livello di certezza rispetto all'*effect size* per una misura di outcome - è stata misurata utilizzando il *GRADE* (Guyatt, 2008). Il *GRADE* è un metodo che colloca il grado di qualità dell'evidenza rispetto ad una determinata misura di outcome di un intervento, basandosi sulla confidenza nella stima del suo *effect size* (Tabella 1 e 2).

Grado di certezza dell'effect size	Descrizione
Alto	Il vero effetto è vicino a quello della stima dell'effetto.
Moderato	Il vero effetto è probabilmente vicino alla stima dell'effetto, ma esiste una possibilità che sia notevolmente differente.
Basso	Il vero effetto potrebbe essere notevolmente differente dalla stima dell'effetto.
Molto Basso	Il vero effetto è probabilmente notevolmente differente dalla stima dell'effetto.

Tabella 1. Categorizzazione della qualità dell'evidenza o il grado di certezza rispetto all'effect size per una misurazione dell'outcome secondo il GRADE (Balshem et al, 2011)

Tipo di evidenza	Il Randomized Control Trial (RCT) parte dalla categoria "alta". Lo studio osservazionale parte dalla categoria "bassa". Tutti gli altri tipi di studio partono dalla categoria "molto bassa".	
Valutazione negativa	Rischio di bias	1 Grave 2 Molto grave
	Incoerenza	1 Grave 2 Molto grave
	Evidenza indiretta	1 Grave 2 Molto grave
	Inaccuratezza	1 Grave 2 Molto grave
	Bias di pubblicazione	1 Probabile 2 Molto probabile
Valutazione positiva	Grande effect size	1 Grave 2 Molto grave
	Relazione dose-risposta	1 Evidenza di un gradiente
	Tutti i <i>confounders</i> plausibili	1 Ridurrebbero un effetto dimostrato 1 Suggestirebbero una spuria se nessun effetto è stato osservato

Tabella 2. La qualità dell'evidenza o grado di certezza rispetto all'effect size è determinato sulla base dei seguenti criteri (Balshem et al, 2011).

d. Sviluppo delle Raccomandazioni

Altri aspetti, oltre alle evidenze scientifiche, sono stati importanti per la composizione delle raccomandazioni, ad esempio: bilanciamento degli effetti desiderati/indesiderati, carico della terapia, preferenza del paziente, punto di vista del professionista, disponibilità di tecniche speciali o competenze, aspetti organizzativi e conseguenze o costi sociali.

Le linee guida internazionali relative a diagnosi, trattamento, gestione e valutazione della balbuzie sono state consultate nel processo di definizione di una prospettiva professionale. Per questo sono stati consultati i database della *National Guideline Clearinghouse* degli Stati Uniti (www.guideline.gov) e della *Guidelines International Network* (www.g-i-n.net).

Questi aspetti sono discussi dopo le “Conclusioni”, sotto il titolo “Dalle Evidenze alle Raccomandazioni”. Le raccomandazioni che sono state formulate alla fine sono il risultato dell’evidenza scientifica disponibile combinate con queste deliberazioni. Questa procedura e il formato delle linee guida stessa sono stati specificatamente seguiti in modo da migliorarne la trasparenza. Nel frattempo, l’inserimento di un rationale delle raccomandazioni è un tentativo di rendere effettiva questa trasparenza. Ciò ha fornito lo spazio per una discussione efficiente durante le riunioni del gruppo di lavoro e, inoltre, una maggiore chiarezza per l’utente delle linee guida.

1.9 Disseminazione ed Implementazione

La praticità delle raccomandazioni è stata tenuta in particolare considerazione durante le differenti fasi di realizzazione delle linee guida, con particolare attenzione ai fattori che potevano favorirla o ostacolarla. E’ stata sviluppata anche una versione delle linee guida per i pazienti. - Le linee guida sono state diffuse attraverso tutte le più importanti associazioni o gruppi di professionisti e di pazienti e in tutti gli istituti scolastici. Inoltre, sono state pubblicizzate attraverso la pubblicazione in riviste e siti web di numerose organizzazioni. Le linee guida possono essere scaricate gratuitamente da:

http://nvlf.logopedie.nl/site/inhoudelijke_richtlijnen

1.10 Rilevanza giuridica delle Linee Guida

Le linee guida non sono disposizioni legali; sono approfondimenti e raccomandazioni di ampia portata basati sull’evidenza scientifica per un’assistenza di buona qualità. Visto che le linee guida si basano sul “paziente medio”, i professionisti sanitari possono, in singoli casi, deviare se necessario dalle raccomandazioni contenute nelle linee guida. Tali deviazioni dalle linee guida - se la situazione del paziente lo richiede - a volte possono anche essere una necessità. Nel caso debba esserci una deviazione dalle linee guida, tale decisione dovrebbe essere supportata dalle evidenze scientifiche, documentata e, ove necessario, intraprese in consultazione con il paziente.

1.11 Revisione delle Linee Guida

Dopo una consultazione con le associazioni che hanno partecipato alle linee guida, la NVLF e la NVST hanno determinato che queste linee guida saranno considerate come aggiornate almeno fino all'anno 2019. Se sarà necessario, sarà creato un nuovo *working group* per effettuare una revisione di alcune parti delle linee guida. La loro validità rimarrà tale fino a quando non vi saranno nuovi sviluppi che ne richiederanno l'aggiornamento o la revisione.

1.12 Finanziamenti

Lo sviluppo delle linee guida è stato reso possibile in parte attraverso il cofinanziamento della *Dutch Association for Logopedics and Phoniatrics* (NVLF), di *Demosthenes*, l'associazione per genitori di bambini e adulti che balbettano, della *Dutch Association for Stuttering Therapy* (NVST) e del *Damsté-Trpstra Fund*.

Riferimenti

1. Balshem, H., Helfland, M., Schünemann, H.J., Oxman A.D., Kunz, R., Brozek, J. Vist, G.E. Falck-Ytter, Y., Meerpohl, J., Norris, S. & Guyatt, G.H. (2011) GRADE guidelines:3. Rating the quality of evidence *Journal of Clinical Epidemiology*, 64, 401-406
2. Barkham, M., Hardy, G.E. & Mellor-Clark, J. (2010). *Developing and Delivering Practice-Based Evidence. A Guide for the Psychological Therapies*. Wiley Online Library.
3. Guyatt, G.H., Oxman, A.D., Gunn, E.V., Kunz, R., Falck-Ytter, Y. & Schünemann, H.J.(2008). GRADE: what is "quality of evidence" and why is it important to clinicians? *British Medical Journal*, 336, 995-998.
4. Regieraad Kwaliteit van Zorg. (2011). *Richtlijn voor Richtlijnen* (herziene versie, 2011). Den Haag.

Capitolo 2: Balbuzie e Trattamento Logopedico

2.1 Definizione di Balbuzie

La balbuzie è un disordine della fluenza dell'eloquio. Le caratteristiche della balbuzie comprendono ripetizione involontaria e il prolungamento di suoni e sillabe. Possono anche verificarsi pause tese o blocchi che interrompono il ritmo dell'eloquio. Le ripetizioni, i prolungamenti e i blocchi sono indicati con i termini "*core stuttering behaviour*" o "*core stuttering*" (Caratteristiche Primarie).

Inoltre, vi sono anche "*secondary stuttering behaviour*" (Caratteristiche Secondarie), che nascono per reazione a *core stuttering behaviour*. Alcuni esempi possono essere i "*flight behaviour*" (comportamenti di fuga), che variano dallo scegliere dei sinonimi sostituendoli alle parole di cui si ha paura, fino all'optare per un isolamento sociale per evitare conversazioni, nascondendo la propria balbuzie per ansia, frustrazione e vergogna. Ci sono anche "*Fight Behaviours*" (Comportamenti di attacco), che possono variare dallo sbattere le palpebre in maniera innaturale, fino a movimenti involontari delle estremità del corpo. La balbuzie può avere quindi significative conseguenze a livello del funzionamento sociale e personale della persona che balbetta. Il livello di balbuzie varia in base alla situazione. La balbuzie può aumentare in situazioni che creano ansia, come ad esempio parlare di fronte ad una platea o parlare al telefono.

Parlare con un bambino piccolo o parlare quando si è da soli sono esempi nei quali l'eloquio diventa più fluente. Anche nel canto è quasi sempre fluente.

In linea generale la balbuzie insorge prima dei sei anni, solitamente tra i due anni e mezzo e i quattro anni. La forma più comune di balbuzie a cui ci si riferisce è la balbuzie evolutiva. Essa può essere messa in contrapposizione con altre forme di balbuzie che, ad esempio, insorgono come risultato di una condizione neurologica, un trauma o attraverso uno stress emotivo.

Queste linee guida hanno come obiettivo esclusivo la balbuzie evolutiva. Ogni riferimento presente nel documento alla "balbuzie" è da intendere come "balbuzie evolutiva", poiché è il termine utilizzato genericamente tra logopedisti e specialisti della fluenza.

2.1.1 Epidemiologia

La prevalenza della balbuzie, ovvero il numero di persone che balbettano in un momento specifico nel tempo, è stimata essere tra lo 0.72% e l'1% della popolazione mondiale. Essendo spesso presente una percentuale di recupero dal disturbo nei bambini sotto i 6 anni, la prevalenza di tale giovane popolazione risulta maggiore che nella popolazione più anziana.

L'incidenza *lifetime* della balbuzie (nuovi casi per anno) ha fluttuato intorno al 5%, mentre nell'ultimo decennio sono stati riportati valori più alti - intorno al 8%. Se misurata nei

bambini, vengono riportati anche valori ancora più elevati, fino ad arrivare al 17%. I dettagli rispetto a prevalenza e incidenza differiscono da uno studio all'altro. Ciò è dovuto, in particolare, alle differenze nella definizione di balbuzie, all'età dei gruppi coinvolti negli studi e ai metodi di ricerca. Nemmeno le percentuali di recupero descritte possono essere considerate universali. La percentuale di recupero nella balbuzie viene stimata dal 50% al 90% (recupero spontaneo con l'aiuto della terapia) (Yairi e Ambrose, 2013)⁴. Subito dopo i primi sintomi della balbuzie è stata rilevata una possibilità di recupero spontaneo approssimativamente pari al 75%. La probabilità di recupero spontaneo decrementa in proporzione al tempo di permanenza della balbuzie. La maggior parte di tale recupero avviene prima del 7° anno di vita, ma può avvenire anche in adolescenza e in età adulta, sebbene sia relativamente raro. (Finn et al., 2005; Kell et al., 2009).

La balbuzie è più comune negli uomini che nelle donne. Ci sono più ragazzi che iniziano a balbettare in giovane età rispetto alle ragazze (2:1) e il recupero è, inoltre, maggiore nelle ragazze rispetto ai ragazzi. Il rapporto tra uomini e donne che balbettano in età adulta è approssimativamente 4:1 (yairi & Ambrose, 2013). La balbuzie è presente in tutto il mondo, in ogni razza e in ogni cultura.

2.1.2 Cause della Balbuzie

Nonostante ci siano diverse teorie sulla balbuzie, "la" causa è ancora ignota. La balbuzie è vista come un disturbo multifattoriale: molteplici fattori ne influenzano l'occorrenza. I fattori più importanti verranno discussi qui di seguito.

Fattori Genetici

Gli studi sui gemelli e sulle famiglie mostrano chiare evidenze scientifiche dell'esistenza di forti fattori genetici (Bloodstein & Bernstein Ratner, 2008; Rautakoski et al., 2012). E' stato calcolato che approssimativamente l'80% della balbuzie può essere spiegata a causa di un background genetico. Sono stati scoperti vari geni e alleli a rischio che possono potenzialmente giocare un ruolo nella balbuzie (Raza et al., 2012).

Struttura e funzioni Cerebrali

Fin dal 1920, le ricerche hanno indagato le differenze strutturali e funzionali nelle persone che balbettano. Gli studi elettrofisiologici e tramite *fMRI* hanno mostrato che c'è una maggiore attività nell'emisfero destro durante compiti nei quali è richiesto al paziente di parlare, in particolare un'iperattivazione della corteccia sensomotora pre-centrale destra (De Nil, Kroll & Houle, 2001). Un'ipoattivazione è stata invece riscontrata nelle aree associate alla funzione uditiva. Questo potenzialmente significa che il meccanismo

⁴Yairi e Ambrose suggeriscono come gli studi da loro esaminati non distinguessero sempre tra recupero spontaneo o recupero grazie al trattamento. La stima del recupero spontaneo è perciò significativamente più bassa del 94%.

associato con l'ascolto del proprio parlato non funzioni correttamente (Brown et al., 2005). Vi è, inoltre, evidenza scientifica che i gangli basali abbiano un ruolo nella balbuzie (Alm, 2004⁵). Sono state trovate anche delle differenze nella struttura cerebrale, in particolare nella materia grigia e bianca (Chang et al., 2008). Queste differenze sono state riscontrate anche in CWS.

Questi sono alcuni esempi dei risultati derivanti da studi sul cervello che sottolineano la presenza di un fattore neurologico. Il quesito relativo al fatto che le differenze scoperte nel cervello dei pws siano causa o conseguenza della balbuzie è ancora una discussione aperta. Inoltre, non è ancora chiaro quali di tali differenze portino alla patologia.

Sistema sensomotorio

Varie ricerche sul sistema sensomotorio delle PWS hanno dimostrato che questo reagisce più lentamente, rispetto ai gruppi controllo, e che è meno stabile. Questo vale sia per compiti che sono correlati con lo *speech* (inclusa la fluenza), sia per altre abilità sensomotorie, come compiti riguardanti il battere le mani ritmicamente (incl. Smith et al., 2010; Oleander, Smith & Zelaznik, 2010).

Fattori Linguistici

La balbuzie insorge in un periodo in cui il linguaggio si sta sviluppando, nel periodo in cui i bambini iniziano ad utilizzare frasi più lunghe e espandono il proprio vocabolario. Da vari studi sulla relazione tra abilità linguistiche e balbuzie sono emerse delle sottili differenze in tali abilità nei bambini che balbettano rispetto ai bambini normofluenti, sia nel linguaggio recettivo che espressivo (Bloodstein & Bernstein Ratner, 2008; Ntorou et al., 2013; Yairi & Ambrose, 2005; Seery & Yairi, 2013; Anderson et al, Reilly, 2013). Tali differenze non sono però evidenti nei test standardizzati sul linguaggio. Quasi tutti gli studi mostrano come i CWS abbiano più difficoltà a livello fonologico rispetto ai bambini normofluenti. I fattori linguistici potrebbero, inoltre, avere un effetto sull'evento balbuzie (all'inizio di una frase, usando una parola contenuta, in modo particolare in strutture linguistiche complesse). Non vi sono indicazioni chiare che la balbuzie abbia una prevalenza maggiore nei bambini multilingue rispetto ai monolingue (Shenker, 2011).

Personalità

Molte ricerche hanno indagato la personalità delle PWS e non vi è alcuna evidenza che sottolinei che nevrosi o disturbi della personalità ne siano la causa. Le esperienze emotive provate dalla PWS sono infatti una reazione piuttosto che una causa e perciò sono da

⁵I gangli basali (o nuclei della base) sono un gruppo di nuclei di origine differente nel cervello dei vertebrati, che operano come un'unità funzionale collettiva e sono associati, in modo particolare, a comportamenti di routine, così come funzioni cognitive ed emotive.

considerarsi secondarie. La ricerca rispetto al temperamento di bambini che balbettano ha investigato alcune caratteristiche temperamentali che potrebbero essere associate con la balbuzie. Diversi studi hanno dato luogo a risultati contrastanti, il che significa che è difficile trarre chiare conclusioni a riguardo. Alcuni di questi studi hanno rilevato come i CWS siano meno adattabili, abbiano uno span attentivo ridotto e una quantità maggiore di emozioni negative (Eggers, De Nil & Van den Bergh, 2010; Kafalianos et al., 2012). In questo momento, non può essere data una risposta al quesito rispetto al fatto che questa possa essere la causa o forse una conseguenza della balbuzie.

Contesto Ambientale

Le ricerche sulle differenze nel contesto ambientale di bambini che parlano fluentemente e quelli che balbettano non hanno portato a nessun risultato chiaro.

I genitori dei bambini che balbettano non sembrano differire in termini di carattere o nel modo in cui si comportano come genitori (*parenting style*). Comunque, un evento o un contesto stressanti sono visti come un potenziale fattore che potrebbero scatenare o mantenere la balbuzie.

Fattori di Apprendimento

Il condizionamento classico e il condizionamento operante sono dei meccanismi che assicurano che la balbuzie continui a svilupparsi ulteriormente. I *secondary behaviour* associati con la balbuzie potrebbero essere spiegati attraverso una prospettiva della teoria dell'apprendimento (*learning theory*). Ad esempio, certe situazioni (come fare una telefonata) possono essere associate, attraverso apprendimenti precedenti, con la balbuzie (condizionamento classico). Un esempio di condizionamento operante è lo sforzo durante un evento balbuzie, che fa sì che il parlante continui a parlare: l'utilizzo dello sforzo motorio viene ricompensato.

2.1.3 Balbuzie e International Classification of Functioning, Disability and Health Model (ICF)

Nella Classificazione Internazionale del Funzionamento, della Disabilità e della Salute (ICF) i problemi di salute vengono categorizzati in termini di caratteristiche anatomiche, disturbi del funzionamento, limitazioni delle attività e problemi nella partecipazione. Il fatto che una persona sperimenti problematiche relative ad attività e partecipazione non dipende solamente dalla presenza e dalla severità del disturbo funzionale; dipende anche da fattori personali ed esterni. Questi sono di conseguenza una parte del modello ICF.

La Figura 1 fornisce una rappresentazione grafica, creata da Yaruss e Quesal (2004), di come i problemi di salute associati alla balbuzie e i fattori che possono influenzare questi problemi vengono categorizzati con la terminologia ICF.

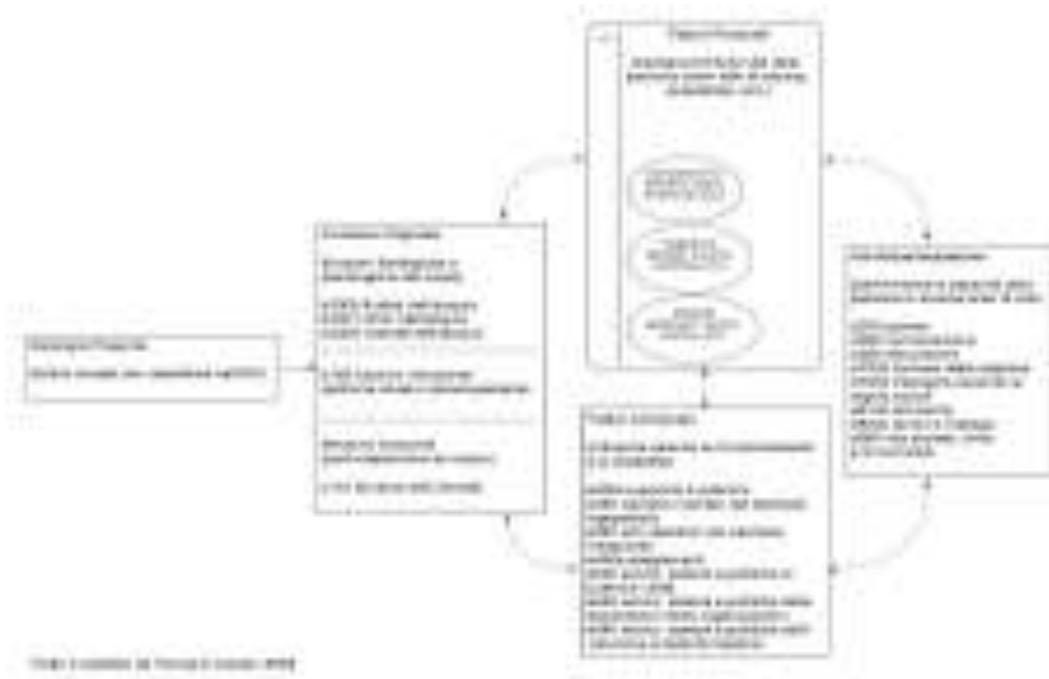


Figura 1. Rappresentazione grafica di come la *World Health Organization's International Classification of Functioning, Disability and Health (ICF)* può essere applicato alla balbuzie (Yaruss & Quesal, 2004).

2.1.4 Evoluzione della balbuzie

Molti bambini attraversano un periodo durante lo sviluppo del linguaggio/*speech*, tra i 2 e i 5 anni, dove l'eloquio diventa disfluente. Le caratteristiche di queste normali disfluenze sono, per esempio, ripetizioni di parola o di una parte della frase, interiezioni e revisioni. In questi casi non vi sono però caratteristiche secondarie e i bambini solitamente non si rendono conto di tali disfluenze. Queste disfluenze normali compaiono anche nei bambini piccoli che balbettano. Oltre ad esse però, i bambini avranno anche delle disfluenze di tipo differente, tipiche della balbuzie, e la frequenza delle disfluenze sarà maggiore del normale. L'evoluzione della balbuzie differisce a livello interindividuale, ma ha caratteristiche simili nei vari gruppi di età. L'evoluzione da una disfluenza normale fino alla balbuzie conclamata è rappresentata nella Tabella 1. Essa è stata descritta in 5 fasi. La gerarchia schematizzata nella Tabella 1 è spesso sperimentata come una sequenza per il bambino, tuttavia talvolta può accadere che il bambino mostri una disfluenza di tipo normale un giorno e poi le caratteristiche di una balbuzie intermedia il giorno successivo. Alcuni bambini possono iniziare direttamente dalla fase di Balbuzie in fase iniziale. Esistono quindi diversi percorsi di sviluppo.

Livello di sviluppo	Comportamenti principali	Comportamenti secondari	Sentimenti e atteggiamenti
Disfluenza normale	10 o meno disfluenze per 100 parole; Ripetizioni di una unità; perlopiù ripetizioni, interiezioni e revisioni	Nessuno	Non ne è consapevole, non c'è preoccupazione
Balbuzie borderline	11 o più disfluenze per 100 parole; ripetizioni di più di due unità; più ripetizioni e prolungamenti che revisioni e interiezioni	Nessuno	Generalmente non ne è consapevole; forse occasionalmente mostra sorpresa momentanea o lieve frustrazione
Balbuzie in fase iniziale	Ripetizioni rapide, irregolari e tese possono avere una postura articolatoria fissa nei blocchi	Comportamenti di fuga come strizzare gli occhi, aumentare il tono o l'intensità della voce man mano che la disfluenza progredisce	E' consapevole della disfluenza, può esprimere frustrazione
Balbuzie in fase intermedia	Blocchi in cui il suono e il flusso d'aria sono interrott	Comportamenti di fuga ed evitamento	Paura, frustrazione, imbarazzo e vergogna
Balbuzie in fase avanzata	Blocchi lunghi, tesi; alcuni con tremore	Comportamenti di fuga ed evitamento	Paura, frustrazione, imbarazzo e vergogna; concezione di se' negativa

Tabella 1. Caratteristiche dei cinque livelli di sviluppo della balbuzie (Guitar, 2014, p. 132)

2.1.5 Diagnosi

Durante la fase diagnostica, la balbuzie verrà valutata nel modo più completo possibile, con una valutazione di tutti gli aspetti descritti nello schema ICF (Figura 1). Nei bambini piccoli con problemi di fluenza ci si pone il quesito relativo al fatto che si tratti di un periodo

di disfluenza normale oppure di una forma di balbuzie precoce. a questo proposito, sono molto importanti le informazioni fornite dai genitori poiché la balbuzie può variare in modo significativo durante le fasi precoci. Le informazioni fornite dai genitori sono importanti proprio perché la balbuzie potrebbe ancora variare significativamente durante le fasi precoci. La balbuzie evolutiva dovrebbe essere distinta dalle altre forme di eloquio non fluente. Se la balbuzie insorge improvvisamente dopo i 7 anni allora viene vista come segno d'allerta per una forma potenzialmente diversa di balbuzie. Inoltre, vi sono disturbi della fluenza che possono essere confusi con la balbuzie. I più importanti di questi sono spiegati sotto.

Cluttering

Il Cluttering è una forma di disfluenza dove il parlante non riesce ad adattarsi in modo sufficientemente adeguato alle richieste del proprio sistema motorio-verbale e/o del sistema linguistico in un determinato momento (Van Zaalen, 2009). Il Cluttering è caratterizzato da un eloquio rapido o irregolare, da una ridotta intellegibilità e da un numero maggiore del normale di disfluenze, la maggioranza delle quali è atipica per la balbuzie. Cluttering e balbuzie spesso compaiono insieme, ma sono classificati in disordini separati nell'*International Classification of Functioning, Disability and Health*. Gli esperti trovano difficoltà nell'arrivare ad un accordo su quando una diagnosi di cluttering dovrebbe essere effettuata, in quanto le caratteristiche del cluttering spesso sono compresenti con la balbuzie e il cluttering puro è raro.

Balbuzie Neurogena

La balbuzie neurogena è un disordine del linguaggio acquisito, caratterizzato da disfluenze tipiche della balbuzie e causato da un danno a livello celebrale. Può insorgere successivamente ad un evento cerebrovascolare (*CVA - Cerebral Vascular Accident*), così come dopo un trauma o come risultato di una condizione neurologica degenerativa. Questa forma viene riscontrata soprattutto negli adulti. In circa il 50% dei casi è in comorbilità con afasia o disartria, occasionalmente anche con aprassia verbale. (Theys et al., 2012). Il momento di insorgenza e la storia medica del paziente sono di estrema importanza per diagnosi differenziale con balbuzie evolutiva. Una caratteristica tipica della balbuzie neurologica è che gli eventi balbuzie possono presentarsi in ogni parte della parola, e non solo nelle sillabe o nei suoni iniziali come accade nella balbuzie.

Balbuzie Psicogena

La balbuzie Psicogena è rara e può insorgere in seguito ad un'esperienza traumatica, dopo un lungo periodo di stress o insieme a un disordine di tipo psichiatrico. In questo

caso per la diagnosi differenziale è di grande importanza la storia medica. La causa di tipo neurogeno deve essere esclusa.

2.2 Trattamento

Questo capitolo, che descrive i metodi di trattamento, fornisce una panoramica della terapia della balbuzie che viene correntemente applicata nei Paesi Bassi.

2.2.1 Professionisti Sanitari

La terapia per la balbuzie viene fornita da logopedisti e da logopedisti-specialisti della fluenza. Gli specialisti della fluenza sono logopedisti che dopo aver completato la loro formazione in logopedia, hanno conseguito un programma di formazione aggiuntivo approvato dalla NVST (*Dutch Association for Stuttering Therapy*) o che si sono specializzati nella terapia della balbuzie dopo aver conseguito un certo numero di corsi post-laurea. I logopedisti e gli specialisti della fluenza devono soddisfare le richieste del *Paramedical Quality Registry*, che stabilisce gli standard di qualità per l'esperienza lavorativa e la promozione delle competenze. Per i logopedisti-specialisti della fluenza che sono registrati con la NVST, ci sono standard di qualità aggiuntivi.

Nei paesi Bassi vi è anche una grande varietà di programmi per la balbuzie offerti da individui che non sono né logopedisti né specialisti della fluenza. Coloro che forniscono tali programmi, solitamente commerciali, per persone che balbettano hanno differenti tipi di *background* rispetto alla loro preparazione e a volte utilizzano la propria esperienza personale piuttosto che approcci standardizzati, e non devono soddisfare gli standard di qualità applicati ai logopedisti e agli specialisti della fluenza. Una problematica condivisa tra questi tipi di programmi è la mancanza di dati valutabili nella letteratura scientifica. I trattamenti che verranno descritti di seguito sono basati sulla letteratura scientifica e sugli approcci utilizzati correntemente da logopedisti e specialisti della fluenza.

2.2.2 Approccio Diagnostico-Terapeutico

L'approccio utilizzato dai logopedisti e dagli specialisti della fluenza ha un rigore metodologico e contiene determinate fasi e step (vedi Figura 2). E' un processo ciclico: quando necessario si può ritornare a step precedenti.

<p>Fase 1 Diagnosi Logopedica</p> <p><i>step 1</i> presa in carico/screening</p> <p><i>step 2</i> <i>case history</i></p> <p><i>step 3</i> valutazione logopedica</p> <p><i>step 4</i> analisi (inclusa formulazione di una diagnosi)</p> <p>Fase 2 Trattamento</p> <p><i>step 1</i> piano di trattamento</p> <p><i>step 2</i> trattamento</p> <p><i>step 3</i> valutazione</p> <p><i>step 4</i> completamento</p>

Figura 2. Step metodologici per la terapia logopedica (NVLF, 2013)

Nella fase di diagnosi logopedica vengono esaminati approfonditamente tutti gli aspetti della balbuzie, come descritto nello schema ICF (vedi figura 1). Viene disegnato un piano di trattamento individuale, consultandosi con la PWS sulla base delle problematiche presenti e sugli *outcome* della valutazione diagnostica. Ridurre o modificare i *core stuttering behaviour* e gli (osservabili) *secondary stuttering behaviour* è spesso un obiettivo terapeutico importante; comunque la riduzione dell'ansia e l'utilizzo della terapia cognitiva sono componenti essenziali della terapia della balbuzie per molte PWS e vengono offerte da logopedisti e specialisti della fluenza.

Il trattamento per bambini piccoli comprende la partecipazione dei genitori e del contesto ambientale. Gli obiettivi del trattamento verranno regolarmente valutati durante la terapia e modificati come richiesto.

Il logopedista lavorerà al fianco di altri professionisti sanitari, e rinvierà il paziente ad altri in caso di necessità a causa della natura o della complessità del problema. Per esempio, un logopedista può rinviare il paziente ad un *Fluency Specialist*, oppure ci potranno essere anche collaborazioni con psicologi, assistenti sociali, Medici di Medicina Generale, Pediatri, Medici ORL e accademici. Il logopedista fornisce un resoconto in merito al trattamento al Medico di Medicina Generale.

2.2.3 Trattamento di Adulti ed Adolescenti

Metodi terapeutici e tecniche

Esistono due approcci principali distinti all'interno dei diversi metodi terapeutici: *stuttering modification therapy* e *fluency shaping therapy*.

L'obiettivo principale delle terapie *stuttering modification* è ridurre l'ansia (desensibilizzazione). Alla PWS viene insegnato a balbettare liberamente e facilmente, e come gestire adeguatamente il parlato disfluente. Si parla in questo caso di balbettare in modo più facile o rilassato (*easy* o *relaxed stuttering*).

Le terapie *fluency shaping* insegnano alla PWS principalmente ad avere un eloquio controllato e fluente utilizzando delle tecniche di fluenza; successivamente, viene insegnato come applicare la tecnica in diverse situazioni comunicative.

Varie tecniche e metodi terapeutici sono schierati con questi due principali approcci. Esempi di metodi terapeutici per la riduzione dell'ansia e la modificazione del comportamento comprendono la desensibilizzazione sistematica, il confronto graduale, il rilassamento e il *training* cognitivo. Anche il *training* delle abilità sociali può essere una parte della terapia.

Vengono utilizzate varie tecniche per imparare a parlare fluentemente, come *prolonged speech*, *easy onset*, *rhythmic speech*, riduzione della velocità dell'eloquio e tecniche di respirazione.

In generale, nei Paesi Bassi i logopedisti e gli specialisti della fluenza utilizzano un approccio integrato, in cui vengono utilizzati aspetti di *stuttering modification* e di *fluency shaping* a seconda delle esigenze del singolo cliente. La terapia è offerta sia a livello individuale che di gruppo. Di solito viene fornita una indicazione di *follow-up* in quanto può insorgere una recidiva dopo la terapia.

Devices

Sul mercato sono disponibili vari *devices* che possono essere utilizzati per promuovere un parlato fluente. Il principio di questi dispositivi si basa sull'alterazione del feedback uditivo del parlato dell'individuo, ad esempio mascherandolo con un suono o facendolo ascoltare con un tempo ritardato o modificandolo tramite un apparecchio acustico (ad es. Feedback Uditivo Ritardato (DAF - *Delayed Auditory Feedback*) ; Feedback alterato di frequenza (FAF - *Frequency Altered Feedback*)). Sono anche disponibili dei dispositivi per supportare l'eloquio a ritmo.

Farmacoterapia

Nei Paesi Bassi la farmacoterapia per la balbuzie non viene fornita. Tuttavia vi sono ricerche che hanno studiato l'effetto di alcuni farmaci sulla balbuzie. La ricerca sulla farmacoterapia verrà discussa in queste linee guida.

2.2.4 Trattamento dei Bambini

Metodi terapeutici e tecniche

Nei Paesi Bassi vengono utilizzati diversi approcci per i bambini fino ai 6 anni. Il *Demands and Capacities Model* (DCM) è l'approccio più utilizzato al momento della stesura delle linee guida. L'obiettivo del trattamento DCM è quello di eliminare o ridurre i fattori che provocano o mantengono la balbuzie. Tali "richieste" (*demands*) poste al bambino si possono focalizzare sul sistema motorio (dello *speech*) o possono essere di natura linguistica, cognitiva o sociale/emotiva. Esempi di questi fattori possono essere dei modelli

di eloquio eccessivamente rapidi nell'ambiente del bambino, o livelli di complessità linguistica eccessivamente elevati, oppure un contesto familiare impegnato e sotto pressione, ecc. In aggiunta a questo lavoro, si intraprende un percorso con il bambino volto migliorare le capacità negli stessi domini (sistema motorio (dello *speech*), linguistico, cognitivo o sociale / emotivo).

Il programma Lidcombe è un'altra forma di terapia offerta a bambini piccoli che balbettano. Il Programma Lidcombe è un trattamento che utilizza il condizionamento operante, dove viene insegnato ai genitori a promuovere e ricompensare il parlato fluente nel bambino, e correggere la balbuzie. Ciò viene effettuato in modo equilibrato utilizzando un approccio determinato e un rapporto tra ricompensa e correzione.

Oltre a quelli precedentemente descritti, vi sono vari altri approcci. Alcuni esempi sono il *Dell* (Dell, 1990) *stutter modification programme* rivolto ai bambini, lo *Speech Motor Training* (SMT) di Riley e Riley, che migliora la pianificazione motoria dello *speech*, così come la *Social Cognitive Behaviour Therapy* (SCG) (Boey, 2003), che è un programma che ha come obiettivo la riduzione delle emozioni e dei pensieri inibitori riferiti alla balbuzie.

In linea generale, i genitori e il contesto ambientale del bambino sono strettamente coinvolti nel trattamento. Se vi sono significative probabilità di recupero spontaneo nel trattamento di un bambino piccolo, questo fattore viene preso in considerazione. In tale situazione, non verrà fornito un trattamento e la balbuzie verrà monitorata dal terapeuta o dai soli genitori in modo da prevenire un ulteriore sviluppo della balbuzie.

Per quanto riguarda i bambini più grandi, dipendentemente dalla presentazione e dagli outcome della valutazione diagnostica, la terapia dovrà focalizzarsi sul promuovere un eloquio fluente e sul ridurre o eliminare i comportamenti secondari, comprese emozioni e pensieri. Proprio come con gli adulti e gli adolescenti, per questo verranno impiegati vari mezzi terapeutici e programmi di allenamento. Questi saranno adattati al livello e ai bisogni del bambino.

Riferimenti

1. Alm, P. A. (2004). Stuttering and the basal ganglia circuits: a critical review of possible relations. *Journal of Communication Disorders*, 37, 325-369.
2. Beal, D. S., Gracco, V. L., Brettschneider, J., Kroll, R. M., & De Nil, L. F. (2013). A voxel-based morphometry (VBM) analysis of regional grey and white matter volume abnormalities within the speech production network of children who stutter. *Cortex*, 49 (8), 2151-61.
3. Bezemer, M., Bouwen, J., & Winkelman, C. (2010). *Stotteren, van theorie naar therapie*. Bussum: Coutinho.
4. Bloodstein, O., & Bernstein Ratner, N. (2008). *A Handbook on stuttering*. Delmar: Clifton Park.
5. Boey, R. (2003). *Stotteren en stottertherapie bij heel jonge kinderen. Sociaal-cognitieve gedragstherapie*. Leuven/Leusden: Acco.
6. Brown, S., Ingham, R. J., Ingham, J. C., Laird, A. R., & Fox, P. T. (2005). Stuttered and

- Fluent Speech Production: An ALE Meta-Analysis of Functional Neuroimaging Studies. *Human Brain Mapping* (25), 105-117.
7. Chang, S., Erickson, K. I., Ambrose, N. G., Hasegawa-Johnson, M. A., & Ludlow, C. L. (2008). Brain Anatomy Differences in Childhood Stuttering. *Neuroimage*, 39(3), 1333-1344.
 8. De Nil, L. F., Beal, S. D., Lafaille, S. J., Kroll, R. M., Crawley, A. P., & Gracco, V. L. (2008). The effects of simulated stuttering and prolonged speech on the neural activation patterns of stuttering and nonstuttering adults. *Brain & Language*, 107, 114-123.
 9. Dell, C. (1990). *Stotterende kinderen. behandeling van jonge stotteraars*. Rotterdam: Ad Donker.
 10. Eggers, K., De Nil, L., & Van den Bergh, B. R. (2010, 35,). Temperament dimensions in stuttering and typically developing children. *Journal of Fluency Disorders* 35 (2010) 355–372, 355-372.
 11. Finn, P., Howard, R., & Kubala, R. (2005, 30). Unassisted recovery from stuttering: self-perceptions of current speech behavior, attitudes, and feelings. *Journal of Fluency Disorders*, 281-305.
 12. Guitar, B. (2014). *Stuttering, An Integrated Approach To Its Nature and Treatment*. Baltimore: Lippincott Williams & Wilkins.
 13. Howell, P., & Davis, S. (2011). Predicting Persistence of and Recovery from Stuttering by the Teenage Years Based on Information Gathered at Age 8 Years. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*, 196-205.
 14. Janssen, P. (1985). *Gedragstherapie bij stotteren*. Utrecht/Antwerpen: Bohn, Scheltema & Holtema.
 15. Kefalianos, E., Onslow, M., Block, S., Menzies, R., & Reilly, S. (2012). Early stuttering, temperament and anxiety: Two hypotheses. *Journal of Fluency Disorders* (37), 151-163.
 16. Kell, C. A., Neumann, K., Kriegstein von, K., Gudenberg von, C. A., Euler, H., & Giraud, A. (2009). How the brain repairs stuttering. *Brain*, 2747–2760.
 17. Krishnakanth, M., Haridas Phutane, V., & Mularidharan, K. (2008). Clozapine-induces stuttering: a case series. *Prim Care Companion J Clin Psychiatry*, 10, 333-334.
 18. Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie. (2013). *Beroepsprofiel Logopedist*. Woerden: Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie.
 19. Neumann, K., Preibisch, C., Euler, H. A., von Gudenberg, A. W., Lanfermann, H., Gall, V., et al. (2005). Cortical plasticity associated with stuttering therapy. *Journal of Fluency Disorders*, 30(1), 23-39.
 20. Ntourou, K., Conture, E. G., & Lipsey, M. W. (2011). Language Abilities of Children Who Stutter: A Meta-Analytical Review. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 163-179.
 21. Oleander, L., Smith, A., & Zelaznik, H. W. (2010). Evidence That a Motor Timing Deficit Is a Factor in the Development of Stuttering. *Journal of Speech and Language research*, 53, 165-196.
 22. Projectgroep ICF Nederlandse Vereniging Logopedie en Foniatrie (2009). *ICF voor de Logopedie*.
 23. Rautakoski, P., Hannus, T., Simberg, S., Sandnabba, P., & Santtila, P. (2010). Genetica and environmental effects on stuttering: A twin study from Finland. *Journal of Fluency Disorders*, 37, 202-210.
 24. Raza, M. H., Amjad, R., Riazuddin, S., & Drayna, D. (2012). Studies in a consanguineous family reveal a novel locus for stuttering on chromosome 16q. *Hum Genet*, 311-313.
 25. Reilly, S., Onslow, M., Packman, A., Cini, E., Conway, L., Ukoumunne, O. C., et al. (2013). Natural History of Stuttering to 4 Years of Age: A Prospective Community-Based Study. *Pediatrics*, 460-467.
 26. Shenker, R. S. (2011). Multilingual children who stutter: Clinical issues. *Journal of Fluency*

Disorders, 36,, 186-193.

27. Smith, A., Sadagopan, N., Walsh, B., & Weber-Fox, C. (2010). Increasing phonological complexity reveals heightened instability in inter-articulatory coordination in adults who stutter. *Journal of Fluency Disorders*, 35, 1-18.

28. Theys, C., De Nil, L., Thijs, V., Wieringen van, A., & Sunaert, S. (2013). A Crucial Role for the Cortico-Striato-Cortical Loop in the Pathogenesis of Stroke-Related Neurogenic Stuttering. *Human Brain Mapping*, 34, 2103-2112.

29. Ward, D. (2006). *Stuttering and Cluttering*. Sussex: Psychology Press.

30. Yairi, E., & Ambrose, N. (2013). Epidemiology of stuttering: 21st century advances. *Journal of Fluency Disorders*, 38, 66-87.

31. Yaruss, S. J., & Quesal, R. W. (2004). Stuttering and the International Classification of Functioning, Disability and Health (ICF): An Update. *Journal of Communication Disorders*, 35-52.

32. Zaalen van, Y., & Wnkelman, C. (2009). *Broddelen, een (on)begrepen stoornis*. Bussum: Coutinho.

Capitolo 3: Quali sono gli indicatori per trattare Bambini, Adolescenti e Adulti Che Balbettano?

3.1 Introduzione

La balbuzie è un disordine della fluenza del parlato. I primi sintomi vengono solitamente osservati nei primi anni di vita, subito dopo che lo sviluppo linguistico è cominciato. La balbuzie si può evolvere in un problema di comunicazione che può compromettere significativamente lo sviluppo sociale e il benessere personale. La balbuzie può diventare persistente e complessa da trattare in età adulta. Vi sono delle evidenze scientifiche che indicano come un intervento precoce aumenti le probabilità di recupero dal disturbo. Comunque, alcuni bambini che hanno iniziato a balbettare potrebbero recuperare spontaneamente senza essere sottoposti ad alcuna terapia. Al momento non vi è sufficiente chiarezza sul numero dei bambini che recuperano spontaneamente e non è possibile prevedere con facilità quali recupereranno naturalmente. In questo capitolo verranno formulate delle raccomandazioni per far sì che logopedisti e specialisti della fluenza prendano delle decisioni basate sull'evidenza scientifica su quale sia il momento migliore per iniziare il trattamento della persona che balbetta, oppure se permettere al recupero spontaneo di fare il suo corso.

3.2 Metodologia

La risposta al quesito principale di questo capitolo è basata su un numero limitato di pubblicazioni internazionali presenti letteratura su questo argomento. Il supporto alle raccomandazioni si è basato principalmente su un singolo studio longitudinale (Yairi & Ambrose, 2005). A livello metodologico tale studio è attualmente il migliore disponibile.

3.3 Evidenze scientifiche

La valutazione è correlata al quesito: Quando dovrebbe iniziare il trattamento?
La questione del recupero spontaneo nei bambini possiede un ruolo chiave nel fornire consigli riguardo a questo quesito. Alcuni dei bambini che hanno iniziato a balbettare recuperano completamente dal disturbo. Tuttavia, i dati sul recupero spontaneo mostrano grandi differenze che variano tra il 50% e il 94% (Yairi e Ambrose, 2013). La "affidabilità" di queste cifre è discutibile date le differenti definizioni di balbuzie utilizzate dai diversi autori, dal numero di anni in cui i bambini sono stati sottoposti a follow up e dal fatto che i bambini avessero o meno effettuato un percorso terapeutico. Dovrebbe anche essere preso in considerazione il fatto che tali valori si riferiscono al recupero su tutta la popolazione. Questo implica che possono essere applicati a bambini che sono stati identificati come bambini che balbettano in fase di screening. La domanda è se le percentuali di recupero sono applicabili anche alla popolazione clinica, in altre parole, ai bambini i cui genitori hanno optato per l'aiuto di un logopedista o di un *Fluency Specialist*.

3.3.1 Prevalenza e Incidenza

La maggior parte dei bambini inizia a balbettare tra i due anni e mezzo e i quattro anni. Sebbene ci siano *case studies* di persone che hanno iniziato a balbettare quando erano *teenager*, un'insorgenza dopo i 9 anni è rara. Il rischio di sviluppare una balbuzie evolutiva sembra essere del 5% dopo i 4 anni (Yairi e Ambrose, 2013). I bambini che hanno iniziato a balbettare dopo i 4 anni sembrano avere un rischio maggiore di sviluppare una balbuzie persistente (Yairi e Seery, 2011).

La possibilità di recupero spontaneo decresce in proporzione all'aumento del tempo in cui la balbuzie persiste. Subito dopo i primi sintomi della balbuzie è stato stimato che la probabilità di recupero spontaneo è approssimativamente del 75%. Tale percentuale scende al 63% dopo un anno, al 47% dopo due anni, al 16% dopo tre anni e al 5% dopo quattro anni dall'insorgenza della balbuzie (Yairi & Seery, 2011). Il numero di bambini che hanno avuto un recupero spontaneo completo dopo un anno dall'insorgenza sono stimati essere dal 6.3 al 9% (Yairi e Ambrose, 2005; Reilly et al., 2013). Il recupero dalla balbuzie in adolescenti ed adulti rimane possibile, ma è ancora relativamente raro (Finn et al., 2005; Kell et al., 2009).

3.3.2 Storia familiare

Il più forte e precoce fattore predittivo del recupero spontaneo è la presenza di balbuzie persistente o il recupero dalla balbuzie nella famiglia. Se è presente una balbuzie persistente nella famiglia del bambino che balbetta allora le possibilità che il bambino continui a balbettare sono circa del 65% senza trattamento. Anche la presenza di recupero dalla balbuzie nella famiglia del bambino predice che le sue possibilità di recupero spontaneo siano del 65% (Yairi e Ambrose, 2005; Seery e Yairi, 2011).

3.3.3 Genere

In età precoce ci sono più bambini che iniziano a balbettare rispetto alle bambine (2:1). Le probabilità di recupero sono maggiori nelle ragazze che nei ragazzi. Il rapporto tra uomini e donne che balbettano in età adulta è approssimativamente 4:1. Le femmine non hanno solo una prognosi più favorevole in termini di recupero, ma questo sembra anche essere più rapido che nei maschi. Se nelle femmine la balbuzie non si è chiaramente ridotta ad un anno dall'insorgenza, allora il rischio di balbuzie persistente aumenta significativamente ed è comparabile a quello dei maschi (Yairi e Seery, 2011).

3.3.4 Sintomatologia della Balbuzie

La severità della balbuzie, la presenza di prolungamenti, blocchi o comportamenti secondari aggiuntivi durante il primo anno non sono dei predittori della persistenza o del recupero dalla balbuzie (Yairi e Ambrose, 2005; Yairi e Seery, 2011).

Una riduzione significativa del numero e della severità dei sintomi della balbuzie nel corso del primo anno dopo l'insorgenza, è un indicatore importante di un potenziale recupero

spontaneo. Una riduzione del numero di ripetizioni, del numero di unità per ripetizione, dei blocchi e dei prolungamenti e di ulteriori comportamenti fisici, così come una riduzione nella percentuale di ripetizioni, sono predittori positivi di recupero. La riduzione è di maggiore importanza rispetto alla frequenza assoluta delle disfluenze (Yairy & Seery, 2011).

Yairi e Ambrose (2005) hanno osservato una riduzione del punteggio medio ponderato delle Disfluenze tipiche della Balbuzie (SLD - *Stuttering Like Dysfluencies*) di oltre il 50% durante il primo anno, fino ad un anno dall'insorgenza della balbuzie, nel gruppo di bambini che hanno avuto un recupero spontaneo dopo i primi sintomi di balbuzie. Il punteggio ponderato SLD è stato sviluppato dai ricercatori al fine di distinguere la balbuzie di grado lieve, ma conclamata, da un normale parlato disfluente. I blocchi e i prolungamenti, che si verificano raramente o non si verificano affatto nei bambini che non balbettano, nel punteggio ponderato SLD contano il doppio, mentre le ripetizioni sono ponderate in base al numero di unità (ad esempio, m-me conta una volta e m-m-m-me conta per 3). A differenza di quello osservato in quei bambini che sono andati incontro a recupero spontaneo, il punteggio medio ponderato SLD è sceso a malapena nel gruppo di bambini che hanno continuato a balbettare da metà anno ad un anno dopo che la balbuzie è insorta.

La severità della balbuzie, valutata dai genitori e dal ricercatore, è scesa su una scala di 8 punti di severità della balbuzie (dove 0 = parlato normale, fluente e 7 = balbuzie molto severa), in media di circa 2 punti da metà anno ad un anno dopo l'insorgenza della balbuzie, nel gruppo di bambini che ha avuto un recupero spontaneo (Yairy e Ambrose, 2005). Questo decremento corrisponde sostanzialmente ad un grado di riduzione della severità della balbuzie nella *Stuttering Severity Scale* di Yairi e Ambrose (2005). La media della severità della balbuzie in quei bambini che hanno continuato a balbettare 5 anni dopo l'insorgenza, ha subito un decremento di una media di meno di 1 punto durante il primo anno. I punteggi medi dei genitori e del ricercatore erano sostanzialmente gli stessi.

Intervallo	Severità della balbuzie
0-1	Parlato normale e fluente
1-3	Balbuzie lieve
3-5	Balbuzie moderata
5-7	Balbuzie grave

Stuttering Severity Scale (Yairi & Ambrose, 2005)

Un aumento del periodo di persistenza della balbuzie da uno a tre mesi dopo un anno dall'esordio è un segnale che il rischio che diventi una balbuzie persistente sta aumentando (Yairi e Seery, 2011).

Un altro indice predittivo di balbuzie persistente è la severità della balbuzie dopo un anno dall'esordio, a differenza del periodo dei primi 12 mesi dopo di esso. Il rischio di balbuzie persistente aumenta in proporzione all'aumentare della severità della balbuzie, piuttosto che rispetto alla frequenza assoluta delle disfluenze (Yairi e Ambrose, 2005; Yairi e Seery, 2011).

3.3.5 Sviluppo Fonologico

Scarse abilità fonologiche del bambino, ovvero: presenza di processi fonologici insoliti e di troppi processi fonologici rispetto all'età, potrebbero essere un fattore di rischio durante la fase iniziale della balbuzie. Le abilità fonologiche perdono il loro valore predittivo per il rischio di persistenza due anni dopo l'esordio della balbuzie (Yairi e Seery, 2011). Lo sviluppo delle abilità fonologiche non è fattore di rischio forte. Il logopedista o il *fluency specialist* dovrebbe porre attenzione ad altri fattori di rischio per la balbuzie nel caso in cui le abilità fonologiche del bambino fossero sotto la media (Yairi e Seery, 2011).

3.3.6 Linguaggio Recettivo ed Espressivo

Il vocabolario espressivo presente a due anni è un fattore predittivo debole per la balbuzie che insorge ai tre anni e non è predittivo di balbuzie ai quattro anni (Reilly et al., 2013). Il valore predittivo delle abilità di linguaggio espressivo nei confronti della balbuzie persistente non è ancora chiaro (Yairi e Seery, 2011).

3.3.7 Disturbi Concomitanti

I disturbi aggiuntivi possono complicare le problematiche riguardanti la balbuzie e, in combinazione con ad altri fattori di rischio, potrebbero aumentare la probabilità di sviluppare una balbuzie persistente. Il valore predittivo dei disturbi addizionali rispetto alla balbuzie persistente è sconosciuto (Yairi e Seery, 2011).

3.3.8 Temperamento e Benessere Sociale/Emotivo

L'effetto di una consapevolezza rispetto alla balbuzie o della risposta emotiva del bambino rispetto ad essa non possiedono sufficiente evidenza scientifica per essere considerati dei fattori di rischio per la balbuzie persistente (Yairi e Seery, 2011). Reilly et al. (2013) non hanno rilevato nessuna evidenza scientifica convincente che provi che la qualità della vita nei domini psicosociali ed emotivi differisca in due gruppi di bambini di tre o quattro anni che balbettano messi a confronto con bambini che non balbettano. Inoltre, non viene trovata alcuna differenza nel temperamento di queste due popolazioni (Reilly et al., 2009; Reilly et al., 2013). Tuttavia, ne ricerche nelle popolazioni cliniche sul temperamento nei bambini che balbettano mostrano come essi abbiano però - in media - un più alto livello di reazioni (negative) e una minore capacità di autoregolazione (Eggers, 2012).

L'ansia dei genitori, del bambino o un contesto ambientale agitato intorno ad esso può portare, individualmente, a conscie e/o subconscie reazioni verbali e non verbali rispetto alla balbuzie. Tali reazioni possono contribuire alla formazione di risposte emotive e cognitive nel bambino, che possono portare a rinforzare negativamente i suoi processi di apprendimento (Korrelboom, 1993). Questi processi di apprendimento sono influenzati dal temperamento.

3.3.9 Terapia

Trattare i bambini piccoli che balbettano nei 15 mesi dopo che la balbuzie è iniziata sembra essere più efficace rispetto all'avvio del trattamento più di 15 mesi dopo l'esordio della balbuzie. Ingham e Cordes hanno confrontato i risultati di diversi studi che indagavano il trattamento di bambini che balbettano. Del gruppo di bambini che erano stati trattati entro 15 mesi dall'inizio della balbuzie, l'85.7% aveva raggiunto i criteri per un recupero dal disturbo. La percentuale di recupero dei bambini trattati nel periodo successivo ai 15 mesi era risultata invece del 59.4% (Ingham e Cordes, 1998).

Un risultato simile è emerso confrontando i risultati terapeutici di bambini che balbettano trattati prima dei sei anni di età con quelli di bambini trattati dopo i sei anni. Tra i bambini più piccoli l'81.8% ha raggiunto un miglioramento positivo secondo i criteri definiti da Ingham e Cordes, e tra i bambini più grandi tale miglioramento è risultato positivo nel 54.2% dei casi.

Il rischio di recidiva nei bambini che hanno ricevuto il trattamento dopo i sei anni appare maggiore rispetto a quello dei bambini trattati prima del loro sesto anno (Lincoln et al., 1996; Koushik et al., 2009).

Ci sono evidenze scientifiche che dimostrano che posticipare il trattamento di un anno o più non ha un impatto negativo sulla durata del trattamento (Yairi e Seery, 2011). I bambini che hanno avuto una balbuzie che persistente per più di 12 mesi richiedono meno tempo per portare a termine la prima fase del Lidcombe Program rispetto ai bambini che sono stati trattati subito dopo l'esordio della balbuzie (Jones et al., 2000; Kingston et al., 2003).

3.4 Dalle Evidenze alle Raccomandazioni

Qualità dell'Evidenza

Il recupero spontaneo e l'efficacia del trattamento svolgono un ruolo importante nel fornire consigli rispetto al quesito riguardante il momento in cui una persona che balbetta avrebbe bisogno di essere trattata. I dati sulla ripresa spontanea mostrano grandi differenze e i fattori di rischio per la balbuzie persistente sono stati esaminati solo in misura limitata.

Trattare i bambini prima dei 6 anni ha un effetto significativo sulla frequenza della balbuzie ed è possibile affermare con ragionevole certezza che la stima di tale *effect size* corrisponda all'effettivo *effect size*. Il trattamento per bambini più grandi, adolescenti e adulti è meno efficace nel ridurre la percentuale delle sillabe balbettate. Ci sono insufficienti informazioni disponibili per determinare quanto sia efficace il trattamento della balbuzie rispetto a misure di *outcome* come la qualità della vita, i comportamenti di evitamento, la partecipazione e la naturalezza del parlato.

Bilancio degli effetti desiderati e indesiderati

La balbuzie è un disturbo nella fluency del parlato che può trasformarsi in un problema di comunicazione che può compromettere seriamente lo sviluppo sociale e il benessere personale. Il trattamento è efficace e intensivo. L'efficacia nel ridurre il numero di sillabe

balbettate a breve e medio termine è maggiore quando il trattamento viene applicato prima dei sei anni. La balbuzie di solito si verifica prima dei cinque anni. Un'ampia percentuale di bambini (dal 50 al 94%) che iniziano a balbettare recupera completamente dalla balbuzie senza trattamento. Un anno di monitoraggio attento dei bambini dal momento in cui insorge la balbuzie, garantisce che i bambini ad alto rischio di balbuzie persistente ricevano un trattamento nel momento più efficace; questo riduce anche al minimo il trattamento dei bambini che potrebbero riprendersi spontaneamente.

Monitoraggio

Il monitoraggio è un processo attivo dove il logopedista o il Fluency Specialist segue sistematicamente i progressi della balbuzie del paziente. Dopo la diagnosi/il consulto, il logopedista o il *fluency specialist* preparerà i genitori a registrare e osservare attentamente i sintomi della balbuzie del bambino. Il logopedista o il *fluency specialist* continuerà a preparare i genitori fino a verrà raggiunto un accordo con il terapeuta sul grado di severità della balbuzie osservata. L'uso del sistema di registrazione da utilizzare, della frequenza delle registrazioni, nonché la modalità e la frequenza con cui vengono riportati i dati registrati al logopedista o al *fluency specialist*, saranno discussi e concordati in consultazione con i genitori. Durante il processo di monitoraggio il logopedista o *fluency specialist* controllerà se la modalità di valutazione dei genitori continua ad essere in accordo con la propria. Verrà effettuata una rivalutazione almeno ogni 6 mesi. Tali rivalutazioni dovrebbero avvenire preferibilmente 6 mesi e 1 anno dopo l'esordio della balbuzie.

Valori e Preferenze

a. Persona che balbetta

Dato il potenziale impatto della balbuzie sulla vita personale e sociale delle persone che balbettano e i benefici dei risultati terapeutici del trattamento in giovane età, è importante un'identificazione precoce del disturbo ed un eventuale invio ad un logopedista o un *fluency specialist*. I genitori di bambini che balbettano riferiscono regolarmente di essere stati inviati troppo tardi da un logopedista o da un *fluency specialist*. La *Stuttering Screening List (SSL)* ⁶ è lo strumento più utilizzato nei Paesi Bassi per l'identificazione precoce della balbuzie. La SSL è disponibile gratuitamente tramite vari siti Web.

b. Logopedista - Fluency Specialist

L'identificazione precoce dei bambini che sono a rischio di balbuzie persistente è il primo passo nel processo di monitoraggio e trattamento potenziale della balbuzie. Logopedisti e specialisti della fluency sono gli esperti designati per informare i professionisti sanitari, gli insegnanti e i supervisori degli asili nido e delle strutture per l'infanzia in merito ai segnali di rischio della balbuzie persistente e fornire loro i mezzi necessari. È importante che il

⁶Nota di Traduttori: *Screening List for Stuttering* (Riley e Riley, 1989; olandese, a cura di P.Sandrieser 1996), ovvero la *Physician's Screening Procedure for Children Who May Stutter* (Riley e Riley, 1989; versione inglese). Tale protocollo (tradotto in Italiano in Appendice 8) è stato progettato come strumento di screening veloce ed affidabile per i Pediatri ed altri Professionisti e può essere, quindi, utilizzato facilmente anche da genitori, insegnanti e supervisori delle scuole d'infanzia.

logopedista/*Fluency Specialist* sia esperto nel monitoraggio di bambini piccoli che balbettano.

Il carattere multifattoriale della balbuzie, il potenziale impatto della balbuzie sulla vita della persona che balbetta e l'effetto limitato del trattamento sul recupero dalla balbuzie dovrebbero essere presi in considerazione nel determinare se sia indicato il trattamento di un bambino più grande, di un adolescente o di un adulto. Il logopedista o il *fluency specialist* dovrebbero approfondire ciascuno degli elementi ICF in tale processo.

c. Costi

Attualmente vi sono scarse informazioni in merito al corso della terapia. Ci sono, tuttavia, dei dati disponibili in merito alla media di sedute di trattamento effettuate nel *Lidcombe Program*. La media delle sedute per arrivare alla fase II del *Lidcombe Program* (ovvero: una severità della balbuzie significativamente ridotta) è di 10 sedute per balbuzie lieve, 12 sedute per balbuzie moderata, 14 sedute per balbuzie severa (Koushik et al., 2011). La mediana del numero di sedute durante la fase 1 è di 15.4, dopo le quali verranno fornite altre 10 sedute durante fase di stabilizzazione (Reilly et al., 2013).

Raccomandazioni

Le raccomandazioni sotto riportate dovrebbero essere considerate nella loro interezza.

1. Il trattamento dei bambini che iniziano a balbettare prima dell'età di quattro anni, inizia prima che compiano cinque anni.
2. Il logopedista o il <i>fluency specialist</i> monitorerà il bambino che ha iniziato a balbettare, prima dell'età di quattro anni, per individuare segni di recupero spontaneo durante un periodo pari ad un anno dall'esordio.
3. Il logopedista o il <i>fluency specialist</i> inizierà il trattamento a 12 mesi dall'esordio, nel caso in cui la severità della balbuzie non sia diminuita chiaramente ⁷ nei 3-6 mesi precedenti.
4. Il logopedista o il <i>fluency specialist</i> prenderà in considerazione il pattern di recupero della balbuzie in famiglia, il genere, le abilità fonologiche, eventuali disturbi addizionali e il temperamento del bambino per prendere la decisione di iniziare l'intervento terapeutico o di monitorare lo sviluppo della fluenza.
5. Il logopedista o il <i>fluency specialist</i> inizierà il suo intervento (anche se il bambino balbetta da meno di 12 mesi) se il bambino soffre a causa del disturbo, se i genitori sono preoccupati della balbuzie del bambino o se il bambino si mostra riluttante a comunicare.
6. I genitori dei bambini sotto i 6 anni di età compilano la <i>Stuttering Screening List</i> (SSL) ⁸ per determinare se è indicata un'ulteriore valutazione diagnostica da parte del logopedista o del <i>fluency specialist</i> .

⁷Una chiara diminuzione della balbuzie corrisponde ad una riduzione media di almeno 2 punti sugli 8 punti della scala di severità della balbuzie (Yairi & Ambrose, 2005) o una riduzione media di 2 punti sulla scala di severità della balbuzie del Lidcombe Program. Questa diminuzione nella severità richiede l'osservazione sia da parte dei genitori sia del logopedista/*fluency specialist*.

⁸Nota dei traduttori: nella Raccomandazione originale viene citata *Stuttering Screening List*, versione olandese (a cura di P. Sandrieser, 1996) della *Physician's Screening Procedure for Children Who May Stutter* di Riley e Riley (1989). Traduzione in lingua Italiana a cura di D. Strangis in Allegato 8.

- | |
|------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| 7. Il logopedista o il <i>fluency specialist</i> informerà professionisti medici, insegnanti e supervisori delle scuole d'infanzia all'interno della rete del/della bambino/a circa lo scopo e l'utilizzo della SSL ³ e fornirà informazioni riguardanti siti internet importanti. |
| 8. Nel caso di bambini sopra i 6 anni di età, adolescenti o adulti, in cerca di aiuto per la balbuzie, il logopedista o il <i>fluency specialist</i> , insieme al cliente, farà un inventario degli elementi ICF (<i>International Classification of Functioning, Disabilities and Health</i>) per comprendere se è indicato il trattamento. |

Razionale per le Raccomandazioni

- La balbuzie può avere gravi conseguenze sulla qualità della vita di bambini e adulti che balbettano.
- Trattare i bambini piccoli che balbettano è più efficace del trattamento di bambini di sei anni o più: il rischio di una recidiva è minore e la possibilità di un recupero persistente è maggiore (Ingham & Cordes, 1998; Lincoln et al., 1996; Koushik et al., 2009).
- Trattare la balbuzie entro i 15 mesi dopo l'insorgenza ha una più alta probabilità di recupero rispetto all'avvio del trattamento una volta che la balbuzie è stata presente per più di 15 mesi (Ingham & Cordes 1998).
- L'osservazione dei primi sintomi della balbuzie dopo i 4 o 5 anni è stata associata ad un aumentato rischio di balbuzie persistente (Yairi & Ambrose 2005; Seery & Yairi 2011).
- Un ampio gruppo di bambini che iniziano a balbettare recupererà completamente senza trattamento. Tuttavia, ci sono grandi differenze nei dati riguardanti il recupero spontaneo (Yairi & Ambrose 2013, Onslow e O'Brian 2013).
- Ritardare il trattamento per un anno non prolunga la durata del trattamento richiesto (Jones et al., 2000; Klingston et al., 2003).
- Il rischio di balbuzie persistente aumenta se la balbuzie è ancora presente un anno dopo che sono stati osservati i primi sintomi (Yairi e Ambrose 2005, Seery e Yairi 2011).
- Una tendenza alla diminuzione della severità della balbuzie durante il primo anno dopo che i primi sintomi della balbuzie sono stati osservati, è un chiaro segnale di un potenziale recupero.
- Una riduzione del numero di ripetizioni, del numero di unità per ripetizione, dei blocchi e dei prolungamenti e di ulteriori comportamenti fisici, così come una riduzione nella percentuale di ripetizioni, sono predittori positivi di recupero (Yairi & Ambrose 2005; Seery & Yairi 2011).
- La severità della balbuzie nel primo anno non è né un predittore di balbuzie persistente né un predittore di recupero dalla balbuzie (Yairi e Ambrose, 2005; Seery e Yairi, 2011).
- La severità della balbuzie, la presenza di comportamenti secondari, i blocchi e i prolungamenti sono predittori di balbuzie persistente se la balbuzie è presente da un anno o più (Yairi & Ambrose 2005, Seery e Yairi 2011).
- L'intervento terapeutico è indicato se i genitori/i *carer* sono preoccupati (Reilly et al., 2013).

- Il punteggio medio ponderato SLD diminuisce di oltre la metà nel gruppo di bambini che recuperano dalla balbuzie, nei sei mesi fino a un anno dopo dall'insorgenza della balbuzie. Il punteggio medio ponderato SLD diminuisce in misura minima nel gruppo di bambini che continuano a balbettare nei sei mesi a un anno dall'insorgenza della balbuzie. Una tendenza simile è evidente per la severità della balbuzie (Yairi e Ambrose, 2005).
- Se la balbuzie persistente è presente nella famiglia del bambino che balbetta, allora la possibilità che il bambino continui a balbettare è del 65%. Anche la presenza di recupero dalla balbuzie nella famiglia del bambino prevede che la possibilità di recupero spontaneo spontanea sia del 65% (Yairi & Ambrose, 2005; Seery e Yairi, 2011). Il rapporto tra maschi e femmine che balbettano in giovane età è di 2:1. Negli adulti, il rapporto tra uomini e donne che balbettano è di circa 4:1. Le ragazze recuperano più velocemente. Se non si osserva un chiaro recupero in una femmina che ha balbettato per più di un anno, allora le probabilità che diventi una balbuzie persistente, aumentano (Yairi & Ambrose 2005; Seery e Yairi 2011).
- Disturbi aggiuntivi, una reazione negativa più alta e una bassa autoregolazione possono complicare le problematiche relative alla balbuzie e aumentare la probabilità di balbuzie persistente.
- I genitori di bambini che balbettano riferiscono regolarmente di essere stati inviati troppo tardi da un logopedista o da un *fluency specialist*.
- SSL è lo strumento di screening più utilizzato nei Paesi Bassi. SSL è disponibile gratuitamente tramite vari siti Web.

Riferimenti

1. Eggers, K. (2012). *Temperamental Characteristics of children with developmental stuttering: From parent questionnaire to neuropsychological paradigms*. Doctoral thesis in Biomedical Sciences, Leuven. Doctoral thesis in Developmental Psychology, Tilburg
2. Finn, P., Howard, R., & Kubala, R. (2005). Unassisted recovery from stuttering: self-perceptions of current speech behavior, attitudes, and feelings. *Journal of Fluency Disorders*, 30, 281-305.
3. Ingham, R.J. & Cordes, A.K. (1998). Treatment Decisions for Young Children Who Stutter: Further Concerns and Complexities. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 7, 10-19.
4. Kell, C.A., Neumann, K., Kriegstein von, K., Gudenberg von, C. A., Euler, H., & Giraud, A. (2009). How the brain repairs stuttering. *Brain*, 2747–2760.
5. Jones, M., Onslow, M., Harrison, E., Packman, A. (2000). Treating stuttering in young children: Predicting treatment time with the Lidcombe Program. *Journal Speech Language Hearing research*, 43(6); 1440-1450.
6. Kingston, M., Huber, A., Onslow, M., Jones, M., Packman, A. (2003). Predicting treatment time with the Lidcombe Program: replication and meta-analysis. *International Journal Language Communication Disorders*, 38 (2), 165-177.
7. Korrelboom, C.W. & Kernkamp, J.H.B. (1993). *Gedragstherapie*. Uitgeverij Countinho.
8. Koushik, S., Shenker, R., Onslow M. (2009). Follow-up of 6-10-year-old stuttering children after Lidcombe Program treatment: a Phase I trial. *Journal of Fluency Disorders*, 34, 279–290.
9. Koushik, S., Hewat, S., Shenker, R.C., Jones, M. & Onslow, M. (2011). North-American Lidcombe Program file audit; Replication and meta-analysis. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 13(4), 301-307.
10. Lincoln, M., Onslow, M., Lewis, C., Wilson, L.A. (1996). A clinical trial of operant treatment for school-age children who stutter. *American Journal Speech Language Pathology*, 5, 73-85
11. Onslow, M. & O'Brian, S. (2013). Management of childhood stuttering. *Journal of*

Paediatrics and Child Health, 49, E112-E115.

12. Reilly, S., Onslow, M., Packman, A., Wake, M., Bavin, E., Prior, M., et al. (2009). Predicting stuttering onset by age 3 years: A prospective, community cohort study. *Pediatrics*, 123, 270 – 277.

13. Reilly, S., Onslow, M., Packman, A., Cini, E., Conway, L., Obioha, et al. (2013). Natural History of Stuttering to 4 Years of Age: A Prospective Community-Based Study. *Pediatrics*, 460-467, 270 – 277. Geraadpleegd op 10 maart 2014, pediatrics.aappublications.org.

14. Yairi, E. & Ambrose, N. G. (2005). *Early childhood stuttering*. Austin Texas, Pro-Ed.

15. Yairi, E. & Seery, C.H. (2011). *Stuttering. Foundations and Clinical Applications*. New Jersey. Pearson.

16. Yairi, E. & Ambrose, N. (2013) Epidemiology of stuttering: 21st century advances. *Journal of Fluency Disorders* 38. 66–87.

Capitolo 4: Qual è il Valore Diagnostico dei Test per Bambini e Adulti che balbettano?

4.1 Introduzione

La balbuzie è considerato un disturbo multifattoriale. Effettuare una diagnosi di balbuzie va oltre lo stabilire solamente se la balbuzie sia o meno presente. Durante la fase di valutazione, infatti, il Logopedista deve esplorare i vari domini dell'ICF (funzionamento, fattori esterni, fattori contestuali, fattori personali, partecipazione ed attività) in profondità e in dettaglio, e poi analizzarli e interpretare le loro interconnessioni. Per poter realizzare un profilo più completo possibile, il Logopedista dovrà quindi utilizzare i migliori strumenti diagnostici disponibili che sono applicabili e includerà tutte le persone che appartengono al contesto ambientale del cliente che sono rilevanti per il processo diagnostico. In questo capitolo viene discusso il valore degli strumenti diagnostici più utilizzati nei Paesi Bassi.

Nel campo della medicina esistono molti esempi dove un così detto *gold standard* - spesso un test istologico - è disponibile per essere utilizzato per confrontare i dati dei risultati di uno screening o di un test diagnostico (Bidle 2002; Rutjes 2007). Questo *golden standard* è lo strumento (valido) con il quale accertare una diagnosi con certezza. Le discussioni sul test diagnostico possono essere limitate alla sua affidabilità e al criterio di validità (vedi sotto). Il concetto di accuratezza del test viene spesso usato invece del criterio di validità. Tale accuratezza può essere espressa come valore predittivo positivo e negativo rispetto alla sensibilità o alla specificità. Un risultato positivo per un test altamente specifico indica che la condizione è presente.

Comunque, in assenza di un *gold* (o *silver* o potenzialmente *copper*) *standard*, non c'è più un valore "vero" e il paradigma dell'accuratezza della diagnosi non può più essere applicato. In casi come questi il paradigma dei vari aspetti della validità diventa rilevante. I concetti importanti in questo caso sono la validità di contenuto, la validità criterio-relata e la validità di costrutto di un test o strumento.

Validità di contenuto

Si riferisce al grado con cui gli item di un determinato test rappresentano adeguatamente le dimensioni che devono essere misurate. Tale valutazione è spesso soggettiva, in altre parole viene effettuata da esperti che hanno il compito di valutare se gli item sono appropriati o meno.

Validità di Criterio

Si riferisce all'efficacia dello strumento nel predire le prestazioni di qualcuno durante specifiche attività, come la sua *performance* valutata da uno strumento correlato diverso (validità concorrente) o un comportamento futuro (validità predittiva).

Validità di Costrutto

Si riferisce al grado con cui il test misura un concetto teorico o una caratteristica. Si può effettuare una distinzione tra validità convergente e divergente.

Nella validità convergente gli sviluppatori del test sono interessati a comprendere se uno strumento sia fortemente correlato con le variabili o con le caratteristiche con cui dovrebbe essere correlato. Ad esempio, uno strumento che misura l'articolazione deve essere fortemente correlato con un altro strumento che misura l'articolazione.

La validità divergente è presente quando uno strumento non è correlato con le variabili da cui dovrebbe differire.

Oltre ad essere valido uno strumento dovrebbe anche essere affidabile. I Concetti seguenti sono importanti: coerenza interna, affidabilità test-retest, affidabilità intra-rater e affidabilità inter-rater.

Coerenza Interna

La coerenza interna, chiamata (coerenza inter-item) misura quanto bene i singoli *item* (o le domande) in una scala o in scale diverse sono in accordo con il punteggio composito.

Affidabilità Test-Retest

L'affidabilità *test-retest* misura la coerenza dei risultati in due differenti momenti nel tempo.

Affidabilità Intra-Rater

L'affidabilità *intra-rater* misura se il ricercatore o il test assegnano gli stessi punteggi ad un individuo in situazioni dove il test viene somministrato in più occasioni.

Affidabilità Inter-Rater

L'affidabilità inter-rater misura se due osservatori o ricercatori danno lo stesso punteggio ad un individuo nello stesso modo.

In questo capitolo verranno discusse la validità e la affidabilità di una serie di strumenti che sono utilizzati o di interesse nei Paesi Bassi. Verranno trattati i seguenti strumenti:

- **Stuttering Screening List e Stuttering Detection Instrument**, entrambi utilizzati per segnalare ed segnalare/rilevare la balbuzie
- **Communication Attitude Test -DR**,
- **Test for Stuttering Severity (Tfs) lettori / non lettori e Stuttering Severity Instruments (SSI - 3/4)** entrambi utilizzati per determinare la severità della *balbuzie*
- **Behavior Assessment Battery (BAB)** inclusi **Communication Attitude Test e Erikson-S24 e Overall Assessment of Speaker's Experience of Stuttering (OASES)**, entrambi utilizzati per definire i vari aspetti della *qualità della vita*.

Tfs , *SSI*, *OASES* e *BAB*, inoltre, valutano anche vari aspetti dei *comportamenti di evitamento*.

4.2 Metodologia

La ricerca degli studi rilevanti è stata condotta sia in database bibliografici (*Medline, Cinahl, Cochrane, Picarta*) sia via Google (si veda l'Appendice 5 per le fonti usate e le parole chiave).

Il GRADE non è adatto per valutare la qualità di strumenti diagnostici per i quali non esiste un *golden standard*; questo vale anche per i precedenti sistemi di classificazione. Al suo posto vengono invece utilizzate misure statistiche; per esempio, i valori sono interpretati come affidabilità limitata, media, buona o perfetta.

Biddle, Watson e Hooper (2002) hanno pubblicato dei criteri nel loro *report "Criteria for determining Disability in Speech-Language Disorders. Evidence Reports/Technology Assessments, No. 52"* per determinarne il *grado* di validità ed affidabilità di *test* o strumenti.

Per valutare i vari aspetti dell'affidabilità, hanno utilizzato i seguenti criteri:

- Coerenza interna:
 - sia il coefficiente *alfa di Cronbach*, sia la statistica *Kuder-Richardson (K-R 20)*, dovrebbero essere almeno 0.80 perché ci sia una buona coerenza interna;
- Test-retest e affidabilità intra-rater:
 - almeno 0.80 in caso di un coefficiente di correlazione, o almeno 0.70 nel caso del *Kappa di Cohen*;
- Affidabilità Inter-rater:
 - almeno 0.90 nel caso di un coefficiente di correlazione, o almeno 0.70 nel caso del *Kappa di Cohen*.

I seguenti criteri sono stati utilizzati da Biddle, Watson e Hooper (2002) per valutare i vari aspetti della *validità*; *tutti* i criteri devono essere soddisfatti perché uno strumento sia ritenuto valido:

- i creatori del test hanno indagato le interazioni tra i vari sub-test, i punteggi parziali e i punteggi totali, formulando ipotesi a priori su queste interazioni e sugli schemi di punteggio;
- queste interazioni devono essere statisticamente significative ($p < 0.05$) e
- nel caso dei coefficienti di correlazione devono essere almeno 0.30 (corrispondente ad una correlazione moderata).

In termini di *standardizzazione* Biddle, Watson e Hooper (2002) hanno utilizzato i seguenti criteri; per definire una buona standardizzazione *tutti* i criteri devono essere soddisfatti:

- i dati riguardanti la popolazione *target* per lo strumento preso in considerazione sono disponibili;
- deve essere stato utilizzato un campione adeguato (almeno 100 per gruppo); e
- devono essere fornite evidenze sulla rappresentatività del campione rispetto alla popolazione.

4.3 Evidenze

a. Test per determinare la severità della balbuzie

- ***Stuttering Severity Instrument***

Il protocollo SSI 3/4 è uno strumento utilizzato per determinare la severità della balbuzie nei suoi comportamenti osservabili.

Lo strumento include le seguenti dimensioni:

- Frequenza: espressa come percentuale di sillabe balbettate e convertita in una scala che varia da 2 a 18;
- Durata: la lunghezza media dei tre episodi più lunghi di balbuzie, calcolati in decimi di secondo e convertiti in una scala che va da 2 a 18.
- Concomitanze fisiche: suoni distraenti (punteggio 0-5), smorfie del viso (punteggio 0-5), movimenti della testa (punteggio 0-5) e movimenti delle estremità (punteggio 0-5), espressi poi in un punteggio totale da 0 a 20.

C'è un'assenza di informazioni da parte di Riley sulla validità del contenuto dell'SSI-3 (Riley, 1994). Sono disponibili solo prove indirette sulla validità di criterio. Né l'affidabilità né la standardizzazione sembrano essere adeguati (Biddle, 2002).

L'SSI-4 differisce da SSI-3 in vari aspetti: "*L'SSI-4 tenta di offrire più strade di valutazione, incluse le autovalutazioni e ulteriori campioni telefonici e oltre il setting clinico*". C'è la possibilità di calcoli computerizzati del punteggio, ed è stato aggiunto un punteggio per la naturalezza del parlato. La validità di questo strumento è adeguata. L'affidabilità è difficile da valutare in quanto è stato riportato un accordo percentuale e non le statistiche kappa.

La percentuale di accordi "accidentali" non è stata presa in considerazione nel calcolo di queste percentuali. La standardizzazione era inadeguata a causa della dimensione del campione troppo piccola e non necessariamente rappresentativa.

L'SSI-3 è stato tradotto in tedesco, ma non validato. Le caratteristiche psicometriche non si conoscono. L'SSI-4 non è stato né tradotto né validato in tedesco.

Conclusioni

La validità e l'affidabilità della versione inglese dell'SSI-4 sono state esaminate in modo più dettagliato rispetto alla versione inglese dell'SSI-3. La sua validità soddisfa i criteri che possono essere applicati ad un test validato. Per quanto riguarda la standardizzazione bisogna sottolineare che il criterio di affidabilità non è valutabile perché mancano i coefficienti kappa.

- ***Test for Stuttering Severity in Readers (TfS - R) e Test for Stuttering Severity in Non-Readers (TfS - NR)***

Boey (2000) ha pubblicato dati sulla validità e l'affidabilità di due test: Test per la severità della balbuzie nei lettori (TfS-R) e Test per la severità della balbuzie nei non-lettori. Non esiste una descrizione di come i bambini del campione siano stati reclutati e selezionati. I dati sono stati ottenuti somministrando il TfS-R a 177 clienti di età compresa tra 8 anni e 1 mese fino a 53 anni e 9 mesi, che sono stati utilizzati come base per la standardizzazione. Il rapporto riguardo il genere non è stato segnalato per questi 177 clienti. Per il TfS-NR i dati sono stati raccolti somministrando il test a 342 bambini di età compresa tra 2 e 7; questo campione è stato utilizzato come base per la standardizzazione. Il rapporto tra i sessi era di 256: 86 secondo Boey⁹.

Ci sono pochissime informazioni metodologiche per entrambi i test sulla validità del contenuto, mentre la validità del concetto non è discussa. Secondo i criteri di Biddle (Biddle, 2002), denominati criteri BWH, la validità di questi test non è stata **dimostrata**.

Anche l'affidabilità di questi test in termini di criteri BWH lascia molto a desiderare. Le informazioni sulla coerenza interna mancano, mentre l'affidabilità test-retest non supera il livello richiesto per l'affidabilità. Rispetto al TfS-NR, neanche l'affidabilità inter-rater non raggiunge il livello richiesto. In termini di standardizzazione di entrambi i test, si può notare che il campione non soddisfa i criteri di rappresentatività.

Conclusioni

Ci sono solo un moderato numero di informazioni sulla validità del contenuto. La validità del criterio del TfS-R / TfS-NR appare sufficiente. Non ci sono informazioni disponibili sulla validità di concetto. L'affidabilità e la standardizzazione non sembrano essere adeguate in tutti gli aspetti.

⁹ Che deve essere un errore in quanto $256 + 86 = 352$ e non 342.

c. Test per identificare la balbuzie

I due test che devono essere descritti ed utilizzati per identificare la balbuzie - la *Stuttering Screening List* e la *Flemish Instrument for Detecting Stuttering* sono entrambi derivati da uno strumento di prova sviluppato da Riley & Riley, e quindi mostrano un forte accordo. Saranno discussi separatamente a causa della loro esistenza come strumenti individuali.

- ***Stuttering screening list***

Lo *Stuttering Screening List* (SSL) è uno strumento che ha l'obiettivo di definire la presenza o meno (*onset* della) balbuzie o se il bambino mostra un rischio di balbuzie persistente e se ha bisogno di aiuto immediato. Ai genitori viene chiesto di compilare un modulo con sei domande. L'Associazione dei Centri di balbuzie Paesi Bassi ha descritto questo strumento come "molto affidabile e valido" e fa riferimento all'*Institute for New Stutter Research* (INSO) di Zutphen per informazioni più specifiche. Tuttavia questa informazione non è accessibile, né disponibile.

Lo *Stuttering Screening List* (SSL) si basa su uno strumento di test americano (Riley, 1989). Gli *items* descritti in questa screening list sono stati i seguenti. Gli *item* del *Stuttering Prediction Instrument* (SPI) sono stati testati con 8 bambini (4-7 anni) che erano stati accettati per la terapia per la balbuzie e 31 bambini che erano stati monitorati ma non hanno ricevuto terapia. Per nessuno di questi 31 bambini sembra essere stata richiesta una terapia entro due anni. Al fine di calcolare la percentuale di falsi positivi, Riley e Riley hanno successivamente confrontato i punteggi tra i bambini in terapia e quelli che non ricevevano terapia. Queste percentuali variavano dallo 0% ("arresti fonatori") al 12,6% ("insorgenza più di 12 mesi fa"). Ciò significa che nessuno dei bambini con arresto "fonatorio" era erroneamente in terapia, ma 126 su 1.000 bambini con un linguaggio incerto per oltre 1 anno sarebbero stati inutilmente indirizzati alla terapia. Gli *item* testati sono stati definiti in termini semplici e forniti all'interno di categorie in una lista di screening con il consiglio di rivolgersi a un *fluency specialist* se sono presenti tre o più sintomi.

- ***Stuttering Detection Instrument***

Secondo Stes e Boey (1997), lo *Stuttering Detection Instrument* (SDI) è: "uno strumento che consente la selezione di bambini piccoli che sono potenzialmente balbuzienti e fornisce anche indicazioni sulla severità della balbuzie e sui rischi di balbuzie cronica. E', in sostanza, un semplice, breve questionario compilato dai genitori, potenzialmente con l'aiuto di un operatore sanitario".

Il campione utilizzato per studiare l'SDI era costituito da bambini che balbettavano (N = 42, età media: 68 mesi) e che frequentavano terapia presso il *Centre for Stuttering Therapy* ad Anversa. La proporzione di genere in questo gruppo era di 34:8. Per quanto riguarda il gruppo di bambini che non balbettano (N = 42, età media: 67 mesi), non ci sono

informazioni sul metodo di reclutamento e selezione. La proporzione tra i sessi in questo gruppo era la stessa in quanto i ricercatori lo hanno voluto consapevolmente.

In termini di validità Stes e Boey (1997) forniscono solo informazioni sulla validità del criterio definendo lo *Stuttering Prediction Instrument* (SPI) come "golden standard". Il modo in cui è stata condotta la valutazione per determinare la validità del criterio non è descritto in dettaglio: ad esempio, il ricercatore che ha indagato se ci fosse presenza di balbuzie usando l'SPI era a conoscenza dell'esito della *Stuttering Screening List* (SSL) (nota anche come *Stuttering Detection Instrument*) e viceversa? Indipendentemente da questo punto, Stes e Boey hanno accertato un alto grado di sensibilità e specificità per la loro SDI. Tuttavia, il valore predittivo positivo del test non è sembrato essere altrettanto elevato: 0,63 e 0,55 a una soglia di $SPI \geq 10$ e $SPI > 13$, rispettivamente. I corrispondenti valori predittivi negativi erano rispettivamente di 0,98 e 1,00. Il test sembrava funzionare meglio per escludere piuttosto che segnalare la presenza di balbuzie, mentre più del 10% dei bambini era erroneamente rinviato per balbuzie. Stes e Boey non forniscono alcuna informazione sui vari aspetti dell'affidabilità e della standardizzazione.

Conclusioni

Non sono disponibili informazioni sufficienti o note circa la validità e l'affidabilità del *Stuttering Detection Instrument* e del *Stuttering Screening List* al fine di ottenere un giudizio in merito alla validità o all'affidabilità di questo strumento.

c. Test per determinare l'attitudine comunicativa

Nel 1985 Brutten, ha sviluppato il *Communication Attitude Test* (CAT). Questo CAT americano originale è stato successivamente tradotto in olandese come *Communication Attitude Test - Dutch* (CAT-D). Secondo Bremer et al. (1993) è emerso che "l'uso linguistico degli item ha imposto richieste significative al livello linguistico dei bambini". Questi autori hanno sviluppato una versione semplificata sotto il nome *Communication Attitude Test-Dutch Revised* (CAT-DR). La logica di questo strumento è così riassunta da Bremer et al. : "sempre più autori stanno dimostrando che l'atteggiamento comunicativo nei bambini ha un impatto sul loro problema di fluidità". Il CAT-D comprende 32 voci con dichiarazioni o espressioni relative al parlato. Il CAT-DR contiene frasi con le negazioni e alcune modifiche introdotte attraverso la scelte di determinate parole e di specifiche costruzioni di frasi. Il CAT-D e il CAT-DR sono stati confrontati in un gruppo di 162 bambini della città olandese Almere con uno sviluppo del linguaggio *normale* di età compresa tra 6 e 13 anni. Il confronto ha esaminato l'affidabilità test-retest, validità del concetto, coerenza interna e standardizzazione. Per quanto riguarda il CAT-DR, l'affidabilità test-retest è stata notevolmente migliore rispetto al CAT-D. La coerenza interna del CAT-DR era buona e in qualche modo migliore rispetto al CAT-D. In termini di validità del concetto c'era un buon accordo tra CAT-D e CAT-DR. Non sono stati indagati altri aspetti di validità e affidabilità. Per quanto riguarda la standardizzazione, non vi era accordo tra CAT-D e CAT-DR, dato che per il CAT-DR i punteggi differivano per età e sesso. Il numero di bambini nello studio

classificato per genere ed età era insufficiente perché potesse essere classificato come standardizzazione adeguata. Ciò è stato ulteriormente aggravato dal fatto che tutti i bambini sono stati reclutati solo da Almere.

Conclusioni

La validità di costrutto e l'affidabilità del CAT-DR sembrano essere adeguate. Non vi è alcuna informazione disponibile sugli altri aspetti della validità. L'affidabilità sembra essere adeguata. Tuttavia, questo non si applica per la standardizzazione.

d. Test per ottenere una visione multidimensionale dei problemi del parlato e dei problemi correlati con la comunicazione

- ***Behaviour Assessment Battery (BAB) per adulti***

Il BAB - uno strumento di ricerca multidimensionale sviluppato da Bruten e Vanryckeghem (2003) che indaga le componenti comportamentali, cognitive e affettive della balbuzie - comprende tre procedure di test basate sull'autovalutazione: la *Speech Situation Checklist* (SSC), la *Behaviour Checklist* (BCL) e *l'Erickson S-24* (S-24). La SSC valuta il grado in cui un cliente sperimenta una situazione comunicativa come ansiosa e disturbante per il proprio parlato. L'SSC è costituito da due componenti: SSC-ER e SSC-SD. Il primo componente tenta di mappare il grado di reazioni emotive che qualcuno sperimenta in 55 situazioni di parlato. La seconda componente è finalizzata a misurare il grado di interruzione del parlato relativo a tali situazioni comunicative. Il BCL è stato sviluppato per misurare il numero e la frequenza dei comportamenti che una persona che balbetta applica consapevolmente come un modo di affrontare (anticipando) l'insorgenza di disfluenze. Questo quindi si riferisce al comportamento di evitamento. L'S-24 / CAT misura l'attitudine del cliente rispetto al parlato e alla comunicazione.

Dines (2011) mette in evidenza molti lati positivi del BAB:

- Ci sono state recensioni molto positive sulla BAB;
- Il BAB è stata utilizzato in numerosi e diversi contesti culturali al fine di validare i test;
- Le informazioni ottenute con il BAB consentono all'operatore sanitario di indirizzare la terapia in base alle esigenze del cliente.

Dines (2011) ha anche sottolineato i costi elevati e il tempo necessario richiesto per raccogliere i risultati tutti i test, definendoli come svantaggi.

La composizione del campione utilizzato per indagare il SSC era il seguente: c'erano 41 persone che balbettavano che erano state reclutate e 155 persone che non balbettavano. Le età del primo gruppo variavano da 17 a 50 anni e quelle del secondo gruppo da 18 a 50 anni. Il rapporto tra i sessi era 32:9 per il primo gruppo e 73:82 per il secondo gruppo. Questi rapporti corrispondono bene a quelli trovati nella popolazione.

Brutten e Vanryckeghem hanno esaminato vari aspetti della validità e della standardizzazione di *SSC-ER* e *SSC-SD*. Rispetto all'affidabilità questi ricercatori si sono limitati a valutare la coerenza interna. Non è chiaro, tuttavia, perché l'affidabilità *test-retest* non sia stata valutata.

Conclusioni

La validità del SSC è adeguata, come dimostrato dalle conclusioni positive in merito alla validità di concetto, alla validità di contenuto e alla validità di criterio. L'affidabilità è stata parzialmente studiata. La standardizzazione appare adeguata.

Brutten e Vanryckeghem *non hanno indagato l'affidabilità* del BCL. I motivi per non averlo fatto riguardano solo l'analisi della coerenza interna. Ad esempio, non è chiaro il motivo per cui l'affidabilità *test-retest* non è stata valutata. Tutti gli aspetti della validità sono stati ampiamente studiati.

Conclusione

La validità del BCL è adeguatamente comprovata dai risultati positivi in termini di validità di concetto, validità di contenuto e validità di criterio. L'affidabilità non è stata investigata.

Brutten e Vanryckeghem hanno *esaminato solo l'affidabilità dell'S-24* in termini di componente di coerenza interna. Questa era adeguata. Tutti gli aspetti della validità sono stati ampiamente studiati e ritenuti validi. In termini di standardizzazione si può notare che il genere non gioca un ruolo nei punteggi S-24. Questo vale sia per le persone che balbettano sia per coloro che non balbettano.

Conclusioni

La validità dell'S-24 è adeguata come dimostrato dai risultati positivi in termini di validità di concetto, validità di contenuto e validità di criterio. L'affidabilità è stata parzialmente studiata. La standardizzazione sembra adeguata.

- ***Behaviour Assessment Battery (BAB) per bambini***

Il BAB per bambini è composto dagli stessi tre componenti della versione per adulti, tranne per il fatto che il *Communication Attitude Test (CAT)* sostituisce l'S-24. I vantaggi e gli svantaggi del BAB, come descritto da Dines et al. (2011) sono stati discussi in precedenza.

Il campione utilizzato per studiare il BAB per i bambini è stato composto come segue: 270 bambini sono stati reclutati dalla St Michiels School di Merelbeke, nelle Fiandre. La proporzione di genere era 145:126. L'età di questi bambini variava da 7 a 12 anni, con 9 anni e 3 mesi come media. Secondo i ricercatori questo era un gruppo rappresentativo di bambini per le Fiandre. Novanta bambini sono stati reclutati da centri clinici e ambulatori privati distribuiti nelle Fiandre. L'età media di questi bambini era di 9 anni e 4 mesi. La proporzione di genere era 70:20.

In termini di affidabilità del SSC, i ricercatori si sono limitati a valutare la coerenza interna. Il motivo per cui l'affidabilità *test-retest* non è stata investigata non è spiegato dai ricercatori. La coerenza interna del SSC era buona. Ciò si applicava anche ai vari aspetti della validità. Una scoperta importante nello studio è stata che il sesso dei bambini che balbettavano non ha avuto effetto sui punteggi di SSC-ER e SSC-SD, tuttavia questo non si applicava ai bambini che non balbettavano: le ragazze hanno ottenuto punteggi più alti SSC-ER e SSC-SD rispetto ai ragazzi.

Conclusioni

La validità di SSC-ER e SSC-SD nei bambini è adeguata, come dimostrato dai risultati positivi in termini di validità del concetto, validità del contenuto e validità del criterio. L'affidabilità è stata parzialmente studiata. La standardizzazione sembra adeguata.

Brutten e Vanryckeghem *non hanno indagato l'affidabilità* del BCL. Gli motivi per non farlo si riferiscono solo alla ricerca della coerenza interna. L'affidabilità *test-retest* non è stata valutata e non è chiaro il perché. Tutti gli aspetti della validità sono stati ampiamente studiati e possono essere descritti come validi. In contrasto con il SSC, non è stato trovato alcun effetto di genere per i punteggi BCL.

Conclusioni

La validità del BCL nei bambini è adeguata come dimostrato dai riscontri positivi in termini di validità di costrutto, validità di contenuto e validità di criterio. L'affidabilità non è stata investigata. La standardizzazione sembra adeguata.

Brutten e Vanryckeghem hanno esaminato *vari aspetti dell'affidabilità del Communication Attitude Test (CAT)*, come la coerenza interna e l'affidabilità *test-retest*.

Entrambi questi aspetti puntano a un test affidabile. I ricercatori hanno anche discusso della sensibilità o della capacità discriminatoria del test nel contesto dell'affidabilità *test-retest*. Riportano uno studio svedese che sembrava dimostrare che i punteggi dopo la terapia erano significativamente inferiori rispetto ai bambini che erano in lista d'attesa per la terapia. Tutti gli aspetti della validità sono stati ampiamente studiati e possono essere descritti come validi. I punteggi CAT dei bambini delle scuole non sono stati influenzati dal genere.

Conclusioni

La validità del CAT nei bambini è adeguata, come dimostrato dai risultati positivi in termini di validità di costrutto, validità di contenuto e validità di criterio. Sia l'affidabilità che la standardizzazione sembrano essere adeguate.

- **Overall Assessment of the Dutch Speaker's Experience of Stuttering per adulti (OASES-A-D)**

Il lavoro svolto da Koedoot (2011) nei Paesi Bassi è importante in termini di valutazione psicometrica della traduzione olandese dell'*Overall Assessment of the Speaker's Experience of Stuttering* per adulti (OASES-A-D). OASES-A-D è uno strumento basato sull'autovalutazione ed è composto da quattro componenti:

1. Informazioni generali rispetto alla balbuzie (20 items)
2. Reazioni affettive, comportamentali e cognitive rispetto alla balbuzie (30 items)
3. Difficoltà comunicative funzionali (25 items)
4. Impatto della balbuzie sulla qualità della vita (25 items)

Koedoot (2011) ha coinvolto 142 persone nella ricerca. I dati sono stati in parte ottenuti da un altro studio, e in parte attraverso contributi di logopedisti/*fluency specialist* che avevano proposto ai loro clienti di completare l'OASES-A-D. In questo campione gli individui con istruzione universitaria sono stati sovrarappresentati: il 50% rispetto al 27% della popolazione generale, il che mina la generalizzabilità dei risultati della ricerca. La proporzione di genere era di 101: 37¹⁰. L'età media era di 34,5 anni e l'età variava da 18 a 74.

In termini di affidabilità Koedoot (2011) ha valutato solo la coerenza interna; che è stata classificata come buona. L'affidabilità *test-retest* non è stata valutata. In termini di validità, sono stati analizzate la validità di concetto e di criterio. La validità di contenuto non è stata pertanto valutata. I risultati in termini di validità di criterio erano buoni, date le forti correlazioni tra i punteggi di impatto delle OASES-A-D e i vari altri strumenti, come la versione olandese dell'S-24. In termini di validità di concetto delle OASES-A-D c'erano una serie di carenze. Ad esempio, Koedoot et al. (2011) riporta che: ... tutte le sezioni del questionario OASES-A-D sono state in grado di discriminare tra gruppi di partecipanti con diversi livelli di gravità della balbuzie (..) con l'eccezione della discriminazione tra i partecipanti con moderata e grave balbuzie come valutato dalla scala SA (SA è una scala di autovalutazione).

Conclusioni

L'affidabilità di OASES-A-D non è stata ancora sufficientemente studiata per designare questo strumento come uno strumento diagnostico valido e affidabile. Le informazioni sulla standardizzazione sono assenti.

- **Overall Assessment of the Dutch Speaker's Experience of Stuttering per bambini della scuola primaria e adolescenti (OASES-S-D e OASES-T-D)**

Lankman, Yaruss & Franken (2015) hanno validato e valutato la traduzione olandese di OASES-S e OASES-T attraverso una collocazione scientifica nel contesto della formazione medica. Entrambi gli strumenti hanno gli stessi quattro componenti delle

¹⁰ Quattro persone sono state escluse perché avevano meno di 18 anni.

OASES-A, come descritto sopra. L'OASES-S consiste in un totale di 60 domande e l'OASES-T ha 80 domande. Lankman ha reclutato 145 partecipanti alla sperimentazione per il suo studio tramite logopedisti e *fluency specialist* in tutti i Paesi Bassi, e ha selezionato allievi di età scolare che non hanno mai balbettato (N = 82) come gruppo di controllo. I bambini di una scuola elementare di Leiden sono stati contattati per il gruppo di controllo. Sebbene il metodo di reclutamento sia ampiamente descritto, non è chiaro da dove siano stati reclutati i ragazzi tra i 13 ei 17 anni.

La OASES-S è stata completata da 152 bambini e la OASES-T da 75. La proporzione di genere per il gruppo che balbettava e che ha completato la OASES-S era 71:30; per quelli che non balbettavano il rapporto era 23:28. I rapporti corrispondenti per il gruppo di adolescenti che hanno completato gli OASES-T erano rispettivamente di 35:8 e 18:13.

In termini di affidabilità, Lankman ha studiato solo la coerenza interna di OASES-S e OASES-T. L'affidabilità *test-retest* non è stata studiata. In termini di validità, Lankman ha studiato la validità di criterio e di concetto. La validità del contenuto non è stata pertanto valutata.

La coerenza interna di OASES-S è inadeguata. Questo è in contrasto con ciò che riporta Lankman. Lei ha impostato la soglia per l'alfa di Cronbach ad un valore di almeno 0,7 al fine di avere una buona coerenza interna. Secondo i criteri BWH questa dovrebbe essere almeno 0.80; questi criteri sono specificati qui.¹¹ Sulla base dei risultati relativi alle validità di criterio e di concetto, la validità può essere indicata come valida. Ci sono state alcune carenze in termini di standardizzazione. La coerenza interna di OASES-T è adeguata. Tuttavia, i dettagli relativi alla standardizzazione sono assenti. Sia la validità di concetto che di criterio sono sufficienti in base ai risultati positivi forniti da Lankman.

Conclusioni

L'affidabilità di OASES-S-D e OASES-T-D non è stata ancora valutata in dettaglio. Le validità di criterio e di concetto sono adeguate. Le informazioni sulla standardizzazione sono incomplete.

¹¹ Secondo Biddle AK, Watson LR, Hooper CR, et al. (2002) il criterio dell'affidabilità è "rigorosamente" soddisfatto se tale condizione è soddisfatta: l'affidabilità della coerenza interna, misurata usando il coefficiente alfa o la statistica di Kuder-Richardson (K-R 20), è maggiore o uguale a 0.90. Tuttavia, aggiungono: "Alcuni potrebbero ragionevolmente sostenere che il criterio dell'affidabilità della coerenza interna è troppo elevato data la complessità del funzionamento del parlato e del linguaggio e dei relativi disturbi. Inoltre la variabilità risultante nelle prestazioni quotidiane suggerisce che il nostro criterio per l'affidabilità *test-retest* o Anche l'affidabilità *intra-rater* può essere troppo elevata. Quindi abbiamo definito un criterio "rilassato", che differisce dal criterio rigoroso in quanto l'affidabilità della coerenza interna può essere di appena 0,80 e / o l'affidabilità *test-retest* / *intra-rater* può essere a partire da 0.80 (correlazioni) o 0.70 (*Cohen's Kappa*)."

e. Conclusioni generali

Nessuno strumento è stato investigato in ogni aspetto della validità e dell'affidabilità. Ciò significa che *non è disponibile* un test valido e affidabile che possieda con un'adeguata standardizzazione.

In termini di validità, il (versione olandese, fiamminga della) *Behaviour Assessment Battery* per bambini e adulti è stata studiata di più e ha buoni punteggi su tutti gli aspetti della validità. In termini di coerenza interna - un aspetto dell'affidabilità - anche i vari componenti del *Behaviour Assessment Battery* (bambini e adulti) sono affidabili. Altri aspetti di affidabilità, come l'affidabilità *test-retest* non sono stati studiati per tutti i vari componenti. Ciò è sorprendente dato che l'affidabilità è uno dei primi requisiti di un test. Dopotutto, uno strumento valido ma non affidabile, non serve a nulla.

Per quanto riguarda l'affidabilità, il test per la severità della balbuzie (lettori e non lettori) è stato studiato di più, ma il test non è affidabile sotto tutti gli aspetti. La validità di questo test è stata solo parzialmente esaminata e ritenuta sufficiente in termini di validità del criterio.

I risultati della ricerca sulle versioni (Olandesi) delle OASES per adulti, bambini di età compresa tra 7 e 12 anni e adolescenti di età compresa tra 13 e 17 anni hanno rivelato che vi era una buona validità, ma sono necessarie ulteriori ricerche per l'affidabilità e la standardizzazione. Le diverse versioni olandesi e specifiche della lingua delle OASES non sono ancora adatte all'uso nella pratica.

4.4 Dalle Evidenze alle Raccomandazioni

Qualità delle evidenze

Nessun singolo strumento ha esaminato ogni aspetto della validità e dell'affidabilità. Ciò significa che non è disponibile un test completo, valido e affidabile con un'adeguata standardizzazione. A questo punto il BAB (bambini e adulti) e il SSI sembrano essere gli strumenti più validi e affidabili.

d. Persone che balbettano

Vantaggi dell'SSI-3/4:

- Minimo impegno per il paziente con un investimento di tempo minimo;
- Può essere utilizzato sia all'interno che all'esterno dell'ambiente clinico.

Svantaggi dell'SSI-3/4:

- SSI 3/4 è un test in lingua inglese, non è disponibile la traduzione olandese

Svantaggi del BAB (adulti e bambini):

- richiede un tempo lungo

- contiene espressioni fiamminghe
- richiede una buona conoscenza dell'olandese

e. Logopedisti/ specialisti della fluenza

Vantaggi dell'SSI-3/4

- utilizzato a livello internazionale
- può essere utilizzato sia all'interno che all'esterno del setting di terapia

Svantaggi dell'SSI-3/4

- SSI 3/4 è un test in lingua inglese, non è disponibile la traduzione olandese

Vantaggi del BAB:

- è stato studiato molto accuratamente e ha ottenuto buoni punteggi su vari aspetti di validità e affidabilità.
- si adatta bene al framework ICF.

Svantaggi del BAB (adulti e bambini):

- richiede un tempo lungo
- contiene espressioni fiamminghe
- richiede una buona conoscenza dell'olandese

L'OASES fornisce buone speranze per il futuro, ma non è ancora disponibile nei Paesi Bassi.

f. Costi

Uno svantaggio del *Behaviour Assessment Battery* (BAB) per bambini e adulti è l'alto prezzo di acquisto.

Raccomandazioni

Il punto di partenza per le raccomandazioni qui di seguito è che la terapia e il lavoro del logopedista devono rispettare gli standard professionali per garantire il processo decisionale clinico e la misurazione dei risultati. Si presume che sia stata raccolta la storia del caso in un colloquio con la persona che balbetta e/o i genitori/caregivers.

9. Il Logopedista o il *Fluency specialist* deve determinare la gravità della balbuzie con uno strumento adatto. Lo *Stuttering Severity Instrument* (SSI) viene preferito perché viene usato internazionalmente, è valido e sembra essere affidabile.

10. Il Logopedista o il *Fluency specialist* valuta il funzionamento, fattori esterni, fattori contestuali, fattori individuali, partecipazione e attività secondo i principi ICF durante la valutazione diagnostica. Il *Behaviour Assessment Battery* (BAB) è raccomandato come strumento diagnostico per bambini sopra i 6 anni di età, gli adolescenti e gli adulti. Per i bambini sotto i 6 anni d'età, non viene fornita nessuna raccomandazione specifica a causa della mancanza di strumenti diagnostici per questa fascia di età.

Razionale per le raccomandazioni

- Un peso relativamente grande è stato dato alla validità, affidabilità, disponibilità e al collegamento con gli sviluppi internazionali, e meno a fattori quali costi, investimenti di tempo, e il linguaggio del BAB e della versione inglese dell'SSI.
- Sono disponibili informazioni insufficienti sulla validità e l'affidabilità del *Stuttering Detection Instrument* (SDI) e del *Stuttering Screening List* (SSL). SSL è lo strumento di screening più comunemente utilizzato per la balbuzie nei Paesi Bassi ed è liberamente disponibile tramite vari siti web.

Ricerca e raccomandazioni

L'affidabilità *test-retest* e la standardizzazione delle varie versioni per età delle OASES olandesi richiedono ulteriori ricerche.

L'affidabilità *test-retest* della maggior parte dei componenti delle versioni olandese e fiamminga della *Behaviour Assessment Battery* richiede ulteriori ricerche.

Riferimenti

1. Biddle, A.K., Watson L.R., Hooper, C.R. (2002). *Criteria for Determining Disability in Speech-Language Disorders. Evidence Reports/Technology Assessments*, 52. Rockville (MD): Agency for Healthcare Research and Quality (US);
2. Boey, R.(2000). *Stotteren. Detecteren en meten. Test voor Stotterernst –Lezers (TfS-R). Test voor Stotterernst Niet-Lezers (TfS-NR)*. Leuven, Belgium: Garant.
3. Bremer, M.I.A., Proost, M.L., Schellart, A.J.M., Bertens, A.F.(1993). Een spreekattitudelijst voor kinderen. *Logopedie en Foniatrie* (9). 240-245.
4. Brutten, G.J. & Vanryckeghem, M. (2003). *Behavior Assessment Battery*. Destelbergen. SIG.

5. Koedoot, C., Versteegh, M, Yarsuss, J.S. (2011). Psychometric evaluation of the Dutch translation of the Overall Assessment of the Speaker's Experience of Stuttering for adults (OASES-A-D). *Journal of Fluency Disorders, Volume 36*, 222-230
6. Lankman, R.S., Yaruss, J.S., Franken, M.C. (2015). Validation and evaluation of the Dutch translation of the Overall Assessment of the Speaker's Experience of Stuttering for School-age children (OASES_S_D). *Journal of Fluency Disorders, Volume 45*, 27-37
7. G. Riley en J. Riley. Physician's screening procedure for children who may stutter. *J. Fluency Disord.* 14 (1989), 57-66. Translation Stuttering Screening List (SSL) by Bertens, A., Vereniging Stottercentra Nederland, Zutphen.
8. Riley,G. (1981). *Stuttering Prediction Instrument* (rev.ed.) Austin, Texas: Pro-Ed.
9. Riley, G.D. (1994). *Stuttering Severity Instrument-3*. Austin, Texas: Pro-Ed
10. Riley, G.D. (2009). *Stuttering Severity Instrument-4*. Austin, Texas: Pro-Ed.
11. Rutjes, A.W., Reitsma, J.B., Coomarasamy, A., Khan, K.S., Bossuyt, P.M.(2007) Evaluation of diagnostic tests when there is no gold standard. A review of methods. *Health Technol Assess.* (50):iii, ix-51.
12. Stes,R. & Boey,R.(1997). *D.I.S. (SDI) Detectie Instrument voor Stotteren*. Antwerpen: CIOOS.

Capitolo 5: Quali sono gli Effetti della Terapia per la Balbuzie nei Bambini che Balbettano fino ai sei anni?

5.1 Introduzione

In questo capitolo verrà descritta l'efficacia del *Demands and Capacities Model* (DCM) e del *Lidcombe Program* (LP). Nei Paesi Bassi il DCM e l'LP sono gli interventi più comunemente impiegati per il trattamento della balbuzie nei bambini fino a 6 anni.

Il punto di partenza è che l'efficacia di un trattamento per la balbuzie deve essere valutata attraverso un *Randomized Control Trial* (RCT), studi di intervento con un gruppo controllo. Verranno considerati sia studi dove la terapia per la balbuzie viene confrontata con il "non fare nulla", sia studi che confrontano vari tipi di terapie.

Questo capitolo contiene la conclusione e il riassunto della tesi di master: *Evidence-based guideline on stuttering in children and adults. The quality of evidence for the effect of treatment of young children who stutter* (Pertjjs, 2013). Questo testo si riferisce ad uno studio di fattibilità dove furono comparati i risultati di entrambi i trattamenti dopo 3 mesi. E' stata discussa l'efficacia dello *Speech Motor Training* (Riley & Riley 1999) e della *Social-Cognitive behavioural therapy* (Boey 2003) per sostenere la conclusione e la raccomandazione nella tesi e in modo da delineare un'immagine quanto più approfondita possibile degli approcci e terapie più comunemente utilizzati nei Paesi Bassi.

La sintesi della raccomandazione per il trattamento di bambini che balbettano fino a 6 anni verrà discussa nell'ultimo paragrafo di questo documento.

5.2 Metodologia

Per rispondere alla domanda di ricerca rispetto a quali siano gli *effetti desiderati e indesiderati del Demands and Capacities Model* (DCM) rispetto al *Lidcombe Program* (LP) in termini di *severità della balbuzie, evitamento di situazioni di comunicazione verbale, naturalezza del parlato e qualità di vita di bambini fino ai 6 anni*, sono state selezionate e valutate tre revisioni sistematiche. E' stata, inoltre, discussa una meta analisi (non pubblicata in un giornale con peer-review).

5.3 Evidenze

Uno studio in particolare (Franken et al., 2005) è stato esaminato e discusso in tutte e tre le revisioni sistematiche incluse per rispondere alla domanda di ricerca; questo studio ha confrontato l'effetto del *Demands Capacities Model* con quello del *Lidcombe Program*. In questo studio la percentuale media di disfluenze è diminuita nel gruppo del DCM dal 60,7% al 7,9% (D.S.= 7,1), al 3,1% (D.S.= 2,1) e la percentuale media di disfluenze è scesa nel gruppo LP dal 48,6% al 7,2% (D.S.= 2,0), al 3,7% (D.S.= 2,1). Nella revisione sistematica di Nye et al. (2012) l'effetto calcolato in questo studio comparativo è stato pari a $g = -0,275$ (IC 95%: da -1,066 a 0,517). Supponendo che un valore di soglia di (-) 0,5 (il valore di soglia per la rilevanza clinica utilizzato dal gruppo di lavoro GRADE come standard), la stima del punto di -0,275 non indica una differenza clinicamente rilevante nella riduzione della percentuale di sillabe balbettate dopo il trattamento con il *Lidcombe Program* rispetto al trattamento basato sul *Demands and Capacities Model*. Il limite inferiore (-1.066) e il limite superiore (0.517) dell'intervallo di confidenza del 95% superano entrambi il valore di soglia di (-) 0.5 per la rilevanza clinica. Ciò implica la possibilità che il LP sia più efficace del DCM o, al contrario, che il DCM sia più efficace del DCM.

Paragoni indiretti del trattamento basato sul *Demands and Capacities Model* con il *Lidcombe Program*, mettendo a confronto gli RCT in cui il DCM e gruppo controllo non trattato sono stati confrontati con il LP e il suo gruppo controllo non trattato, non sono possibili a causa dell'assenza di RCT dove il trattamento con il DCM venga confrontato con un gruppo di controllo non trattato.

La revisione sistematica e la meta-analisi di Nye et al. (2012) discute tre RCT in cui il trattamento con il LP è stato confrontato con un gruppo controllo non trattato. La valutazione della revisione sistematica e della meta-analisi porta alla conclusione che il trattamento dei bambini sotto i 6 anni con il LP è più efficace nel breve e medio termine (da 3 a 9 mesi) nel ridurre la percentuale di sillabe balbettate rispetto a quando non viene trattata la balbuzie. L'effetto riscontrato può essere considerato grande ($g = 0,97$, IC 95%: 0,58 – 1,30, $p < .001$). L'evidenza per questo effetto è di qualità moderata. Questo implica che vi sia qualche incertezza sull'*effect size*. Il fatto che il trattamento con il LP sia più efficace di nessun trattamento è supportato da una meta-analisi pubblicata da Onslow et al. (2012). In questa meta-analisi la percentuale media di sillabe balbettate nel gruppo sottoposto a LP era 2,9% inferiore alla percentuale nel gruppo di controllo (95% CI = 1,9 a 3,8, $p < 0$). La probabilità che una percentuale di balbuzie fosse inferiore o equivalente a 1, dopo 3 fino a 9 mesi di follow-up, era sette volte più alta per il gruppo trattato rispetto a quelli che non lo erano (OR = 7,5, IC 95% = 2,7 a 20,9, $p < 0,001$)¹².

¹² Una Severità della balbuzie inferiore a 1 punto percentuale di balbuzie viene percepita come un parlato normale fluente da un ascoltatore inesperto (Lincoln et al., 1997)

Woods et al. (2002) hanno indagato gli effetti indesiderati del LP, come ansia, aggressività, evitamento e depressione, e l'effetto sulla qualità del rapporto genitore-figlio. In questo studio non vengono rilevate evidenze per un potenziale effetto negativo sul comportamento del bambino o sulla qualità del rapporto genitore-figlio durante e dopo il trattamento con il LP. Bonelli et al. (2000) e Onslow et al. (2002) hanno esaminato indirettamente la naturalezza del parlato dopo il trattamento con il LP. Bonelli et al. (2000) non hanno osservato alcun cambiamento rispetto alla velocità del parlato, allo scambio di turni o alla pragmatica del genitore e del bambino. Un numero di bambini nello studio si è sviluppato meno rapidamente del previsto rispetto a tre aspetti del linguaggio, tuttavia lo sviluppo è rimasto ai limiti della norma. Onslow et al. (2002) non hanno rilevato alcuna evidenza di cambiamenti costanti o sistematici rispetto alla velocità di articolazione, lunghezza della consonante, intervallo intervocalico o rispetto al *voice onset time* in 8 bambini che balbettavano (età da 2;7 a 4;11) dopo aver effettuato il trattamento con il *Lidcombe Program* a confronto con i dati della valutazione effettuata prima dell'inizio del trattamento.

Il numero di studi sull'effetto del trattamento basato sul *Demands and Capacities Model* rispetto all'effetto del *Lidcombe Program* nel 2013, durante lo sviluppo di queste linee guida, è stato limitato a un RCT (Franken et al., 2005). In questo studio non è stata dimostrata alcuna differenza clinicamente rilevante in merito all'efficacia tra il DCM e il LP. La certezza rispetto all'*effect size* è limitata. È molto probabile che ulteriori ricerche avranno un impatto importante sulla stima attuale dell'effetto. Gli RCT riguardo gli effetti del DCM confrontati con un gruppo di controllo non trattato non sono disponibili. Ciò ostacola un confronto indiretto tra l'effetto del *Demands and Capacities Model* e il *Lidcombe Program*.

L'effetto del trattamento LP sui bambini fino a 6 anni è grande in un periodo di tempo medio-breve (da 3 a 9 mesi) rispetto a quelli non trattati. Le evidenze per questo effetto sono di qualità moderata. Questo implica che vi sia qualche incertezza sull'*effect size*.

Le affermazioni *sull'effect size* e sul grado associato di certezza nella revisione sistematica e in tutti gli RCT sono state basate sulla misura dell'*outcome* della frequenza della balbuzie. Questa misura di *outcome* rappresenta la gravità della balbuzie, tuttavia è solo un aspetto che determina la severità della balbuzie; la durata del momento di balbuzie e il comportamento fisico concomitante aggiuntivo sono altri aspetti che determinano la gravità osservabile della balbuzie. Una quantità molto limitata di prove indirette è stata trovata per le altre misure di *outcome*, come evitamento di situazioni di comunicazione verbale, naturalezza del parlato e qualità della vita.

Queste evidenze provengono da studi individuali, ciascuno dei quali ha studiato l'effetto del trattamento con il LP. La certezza che circonda *l'effect size dei* risultati riportati è limitata.

Conclusioni

Certezza rispetto all'effect size: Moderata	Il trattamento dei bambini che balbettano fino ai 6 anni d'età con il <i>Lidcombe Program</i> è più efficace nel breve e medio termine (da 3 a 9 mesi) nel ridurre la percentuale di gruppi di sillabe balbettate, rispetto a quando non viene effettuato nessun trattamento (Nye, 2012).
--------------------------------------------------------------	-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------

*Al fine di limitare l'impatto del recupero spontaneo sui risultati della ricerca sperimentale, tutti i bambini coinvolti negli studi avevano avuto l'esordio del disturbo almeno 6 mesi prima rispetto al momento della loro inclusione. Conclusioni e raccomandazioni su come trattare i bambini che balbettano fino all'età di 6 anni che hanno balbettato meno di 6 mesi non rientrano nel quadro del quesito di ricerca di questo report.

Certezza rispetto all'effect size: Bassa	<p>Il numero degli studi sull'effetto del trattamento basato sul <i>Demands and Capacities Model</i> è limitato e la certezza rispetto all'effect size del DCM è <i>limitata</i>.</p> <p>Non è stata riscontrata nessuna differenza clinicamente rilevante nella riduzione della percentuale di sillabe balbettate dopo il trattamento tra il gruppo del <i>Demands and Capacities Model</i> e il gruppo del <i>Lidcombe Program</i>.¹³ Tuttavia, vi è un grande grado di incertezza riguardo a questa conclusione data l'ampiezza dell'intervallo di confidenza pari al 95% (Franken et al., 2005).</p>
-----------------------------------------------------------	---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------

Certezza rispetto all'effect size: Molto Bassa	Non sono state trovate evidenze rispetto ad effetti potenzialmente dannosi del <i>Lidcombe Program</i> , come ansia, aggressività, evitamento e depressione. Non si sono neppure riscontrati effetti potenzialmente dannosi sulla qualità della relazione madre-figlio (Woods, 2002).
-----------------------------------------------------------------	---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------

¹³ De Sonnevile, Stolk, Rietveld e Franken (2015) hanno confermato che non è stata trovata alcuna differenza rilevante a 18 mesi dall'esordio post-trattamento per: percentuale di bambini che non balbettano, frequenza di balbuzie, severità di balbuzie valutata da parte di genitori e terapeuta, severità di balbuzie valutata da parte del bambino, qualità della vita correlata alla salute, problemi emotivi e comportamentali e attitudine del parlato. LP e DCM erano approssimativamente uguali nel trattare la balbuzie evolutiva in modi che superano le aspettative di recupero naturale.

Speech Motor Training

Lo *Speech Motor Training* (SMT) (Riley & Riley, 1999) ha lo scopo di migliorare la pianificazione del linguaggio del discorso e quindi ridurre la balbuzie. Il programma non dovrebbe essere visto come una forma di terapia in sé, ma piuttosto come un supplemento ad altri programmi (Franken e Van Borsel, 2006). L'effetto dello SMT è stato studiato in un singolo RCT in cui la riduzione della percentuale di sillabe balbettate dopo il trattamento con SMT è stata confrontata con la riduzione della percentuale di sillabe balbuzienti dopo il trattamento il programma *Extended Length of Utterance* (ELU) (Riley & Ingham, 2000). L'età dei bambini nella popolazione di studio varia da 3;8 a 8;4 anni. SMT ha ridotto la mediana della percentuale di balbuzie del 36,5%. Questa differenza è stata significativa (analisi della coppia di Wilcoxon abbinata ($z = -2,0$, $p = 0.04$)). L'ELU ha ridotto la percentuale di balbuzie del 63,5%. L'analisi di Mann-Whitney U ha indicato che la differenza di riduzione della percentuale di balbuzie tra SMT e ELU era statisticamente significativa ($z = -2,1$; $p = 0.04$).

Lo studio di Riley & Ingham (2000) è stato discusso in due revisioni sistematiche che sono state incluse per analizzare il quesito di ricerca (Herder, 2006; Nye, 2012).

Effect-size e 95% Intervallo di confidenza negli studi con un *design* RCT in cui due interventi vengono confrontati senza un gruppo di controllo (Herder, 2006; Nye et al., 2012)

Studio	Interventi & misure di <i>outcome</i>	Statistiche				
		Hedges' G	Limite minimo CI	Limite massimo CI	TX1 n	TX2 n
Riley & Ingham (2000)	SMT vs ELU %SS	-1.079	-2.209	0.051	6	6

(Dettaglio preso da Tabella 3, Tesi Pagina 18)

L'effetto calcolato nella revisione sistematica da parte di Nye et al. di questi studi comparativi è stato $g = -1,079$ (IC 95%: da -2,209 a 0,051). Supponendo un valore di soglia di (-) 0,5 (il valore di soglia per la rilevanza clinica utilizzato dal gruppo di lavoro GRADE come standard) la stima del punto di 1,079 indica una differenza clinicamente rilevante nella riduzione della percentuale di gruppi di sillabe balbettate dopo il trattamento con SMT rispetto al trattamento basato sull'ELU. Tuttavia, considerata l'inaccuratezza del risultato, (la larghezza dell'intervallo di confidenza 95% è distribuita tra 2,209 e 0,051 ($g = -1,07$)), e l'alto rischio di *bias* (Appendice 1) noi non siamo sicuri circa l'effetto stimato in questo studio. La certezza rispetto all'*effect size* è molto bassa.

Conclusioni

Certezza rispetto all'<i>effect size</i>: Molto Bassa	Il numero degli studi che investigano l'effetto dello SMT è molto limitato. La riduzione della percentuale di balbuzie dopo il trattamento con SMT era significativamente inferiore alla riduzione dopo il trattamento con ELU. Tuttavia, l'importanza clinica di tale differenza è da considerarsi molto incerta a causa dell'ampiezza dell'intervallo di confidenza del 95% e dell'alto livello di rischio di <i>bias</i> nello studio di Riley & Ingham (2000).
----------------------------------------------------------------------------	--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------

Social-Cognitive Behavioural Therapy

La terapia cognitivo-comportamentale (SCBT) di Boey (2003) nei bambini che balbettano si basa sulla teoria dell'apprendimento sociale-cognitivo, sulla terapia comportamentale, sulla letteratura riguardante il cognitivo e le emozioni, così come sulla letteratura generale sulla balbuzie (Franken & Van Borsel, 2006). La terapia deve essere adattata alle esigenze individuali della persona che balbetta o del suo ambiente. Boey (2008) descrive gli obiettivi centrali del SCBT come:

- Riduzione dei sintomi della balbuzie;
- Prevenire e/o limitare lo sviluppo della balbuzie;
- Ridurre l'impatto negativo rispetto alla società e alla qualità di vita.

In relazione al comportamento target della terapia, vengono formulati obiettivi specifici per i comportamenti motori verbali, la componente emotiva o cognitiva della balbuzie. La terapia con bambini fino a 6 anni viene effettuata sotto forma di sessioni individuali combinate con un programma di supervisione obbligatorio per i genitori da 10 a 12 sessioni, una volta ogni tre settimane.

La ricerca nella letteratura non ha evidenziato nessuna pubblicazione in riviste con *peer-review*. Non è stato trovato alcun RCT che includesse il trattamento SCBT. Visto che la SCBT viene spesso applicata nei Paesi Bassi e in particolare nelle Fiandre per trattare bambini che balbettano, verrà discussa l'efficacia della SCBT in questa sezione attraverso uno studio pre e post intervento che non aveva incluso un gruppo controllo (nessun trattamento o un altro trattamento) (Boey, 2008)¹⁴. La certezza rispetto all'*effect size* in questo studio è quindi limitata poiché non vi sono paragoni rispetto a due o più gruppi di studio omogenei.

14 Un gruppo controllo viene definito come un gruppo che, in termini di sesso, età, gravità iniziale della balbuzie e altre potenziali variabili prognostiche, è interamente confrontabile con il gruppo sottoposto al trattamento.

L'effetto della SCBT è stato studiato a lungo termine e pubblicato in una tesi di dottorato (*Doctor of Medical Sciences*, Boey 2008) e presentato in vari simposi. 122 persone sono state selezionate casualmente fuori dal database di 1978 pazienti che balbettavano, di cui 87 avevano ricevuto il trattamento con la SCBT, 16 avevano ricevuto una diagnosi di balbuzie ma era stato consigliato di non sottoporsi a terapia e 19 individui (gruppo di abbandono) hanno rifiutato la terapia una volta ricevuta la diagnosi di balbuzie.

La diagnosi clinica è stata effettuata tra il 1991 e il 2003, e il *follow-up* è stato effettuato tra i 3 e i 14 anni, dopo la diagnosi clinica, fino al 2005-2006 con un tempo di *follow-up* medio di 10 anni. Le misure di *outcome* sono state confrontate con la severità della balbuzie, i momenti di balbuzie, l'evitamento, i comportamenti concomitanti, i fattori scatenanti, i sintomi cognitivi ed emotivi, le reazioni sociali e le caratteristiche della personalità.

Sono stati analizzati e confrontati i dati di venticinque bambini di età compresa tra 1 e 6 anni, durante il trattamento. Questi bambini hanno ricevuto una media di 64 sessioni di trattamento (DS 29,6) e un massimo di 121 trattamenti. La percentuale di disfluenza media in questo gruppo durante la fase di diagnosi clinica è stata del 18,4% di Disfluenze della Balbuzie (SLD) (DS 8,7). La media era 0,1% SLD al *follow-up* (DS 0,3). La differenza di riduzione della frequenza della balbuzie è stata significativa tra il gruppo di età compresa tra 1 e 6 anni e gli adolescenti ($p < .001$) e tra gli adulti e i bambini di età compresa tra 1 e 6 anni ($p = .007$), ma non rispetto ai bambini di età compresa tra 7 e 12 ($p = .071$). La gravità di balbuzie iniziale e il sesso (bambine) sono apparse come importanti variabili prognostiche nel successo della terapia.

La certezza rispetto alla dimensione dell'effetto nello studio Boey (2008) è limitata a causa del *design* dello studio. La certezza finale rispetto all'*effect size* dopo la valutazione con GRADE è molto bassa, dato l'elevato rischio di *bias* (vedi Appendice 2).

Conclusioni

<p>Certezza rispetto all'<i>effect size</i>:</p> <p>Molto Bassa</p>	<p>Un singolo studio di intervento è disponibile con le valutazioni prima e dopo, ma senza controllo; questo studio ha esaminato l'effetto della SCBT sui bambini che balbettano. La percentuale media di disfluenze tipiche della balbuzie è diminuita, nel gruppo di età compresa tra 1 e 6 anni, fino a 0,1% (DS 0,3).</p> <p>Tuttavia, c'era un grande dubbio su questo risultato, dato che lo studio non aveva un gruppo di controllo e dato l'alto rischio di <i>bias</i> (Boey, 2008).</p>
-----------------------------------------------------------------------------------	---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------

5.4 Dalle Evidenze alle Raccomandazioni

5.4.1 Certezza rispetto all'*effect-size*

La certezza rispetto al grado in cui la percentuale di balbuzie si è ridotta nei bambini che balbettano fino a 6 anni varia per i diversi metodi di trattamento.

C'è una ragionevole quantità di affidabilità rispetto all'*effect-size* per il trattamento con il *Lidcombe Program* e con il *Demands and Capacities Model*, mentre c'era una certezza molto limitata rispetto a *Speech Motor training* e a *Social Cognitive Behavioral Therapy*. Il numero di studi (RCTs) è ridotto per tutti i trattamenti ad eccezione del LP e gli studi sono piccoli in termini di dimensioni del campione. Nello studio Franken et al. (2005) non è stata riscontrata alcuna differenza clinicamente rilevante nella riduzione della percentuale di balbuzie dopo il trattamento tra il gruppo sottoposto a DCM e il gruppo sottoposto a LP. Ciò significa che al momento sarebbe prematuro privilegiare il trattamento con LP al posto del programma DCM sulla base degli effetti dimostrati.

5.4.2 Bilancio degli effetti Desiderati e Indesiderati

La misura di *outcome* più comunemente riportata è la percentuale di balbuzie, le altre misure di *outcome* non sono divulgate o riportate raramente. L'effetto sui bambini fino a 6 anni trattati con il LP è grande nel breve-medio termine (da 3 a 9 mesi) rispetto a quelli non trattati. C'è un maggiore grado di incertezza circa l'effetto del trattamento con LP a lungo termine. Non sono stati dimostrati effetti indesiderati collegati al trattamento con LP. L'*effect size* del trattamento con SCBT non può essere confrontata direttamente con l'*effect size* di LP e DCM dato che l'*effect size* del trattamento con SCBT è stata determinata utilizzando le Disfluenze tipiche della Balbuzie (Stuttering Like Dysfluencies - SLD) invece della percentuale di balbuzie. Gli effetti indesiderati di DCM, SCBT e SMT non sono stati o sono stati a malapena studiati o riportati.

5.4.3 Valori e preferenze

a. Persone che Balbettano

Vista l'entità dell'effetto del trattare i bambini con il LP per sei mesi o più dopo l'inizio della balbuzie, rispetto al non trattare, è importante che i genitori di bambini che iniziano a balbettare entro i 6 anni siano informati sui potenziali benefici del trattamento della balbuzie. Ulteriori ricerche potrebbero potenzialmente rivelare che l'*effect-size* per il trattamento con DCM è paragonabile al LP, così sia le preferenze del bambino che del genitore potrebbero svolgere un ruolo importante nel determinare quale di questi due metodi di trattamento sia il più adatto.

b. Logopedisti/*Fluency specialists*

Per quanto riguarda l'entità dell' *effect-size* del trattamento con LP e il grado di certezza è consigliabile per logopedisti e gli specialisti della fluenza diventare qualificati nell'utilizzo di questo metodo di trattamento e di mantenere le competenze nel trattamento LP a un livello elevato. Poiché non è stata riscontrata alcuna differenza clinicamente rilevante nell'effetto del trattamento con DCM o LP, potrebbe essere un beneficio per il logopedista o il *fluency specialist*, padroneggiare entrambi i metodi di trattamento, per permettere che venga presa una decisione in consultazione con i genitori del bambino piccolo che balbetta su quale dei due debba essere preferito rispetto all'altro. In tale procedimento è garantito il un processo decisionale condiviso.

5.4.4 Costi della terapia

Le informazioni disponibili in merito ai costi della terapia sono scarse. De Sonnevile, Bouwmans, Franken e Stolk (2015) hanno valutato la *cost-effectiveness* incrementale e la *cost-utility* del *Lidcombe Program* e le hanno messe a confronto con il trattamento basato sul *Demands And Capacities Model*. Le differenze di effetti e costi tra il trattamento di LP e di DCM erano piccole. I rapporti *cost-effectiveness* e *cost-utility* erano a favore del LP. Hanno considerato il LP una buona alternativa al trattamento con DCM nelle cure primarie Olandesi. Nelle circostanze olandesi, una terapia efficace con entrambi gli approcci ammonta a € 2500.

Raccomandazione

11. Discutere con i genitori del bambino che balbetta, fino ai 6 anni d'età, in merito ai benefici dell'effettuare o meno un trattamento (riduzione della percentuale di sillabe balbettate e della severità della balbuzie). Spiegare la differenza tra il "*Lidcombe program*" e il trattamento basato sul "*Demands and Capacities Model*". Giungere ad una decisione condivisa con i genitori relativamente a quale dei due approcci sia preferibile.

Razionale per la raccomandazione

- Esiste un buon grado di certezza sul fatto che trattare i bambini che balbettano fino a 6 anni con il *Lidcombe Program* sia più efficace nel ridurre la percentuale di sillabe balbettate, rispetto al non effettuare il trattamento.
- Non sono stati rilevati effetti nocivi del trattamento con LP.
- L'analisi ha messo in luce una corrispondenza del livello di efficacia del trattamento con LP rispetto al trattamento DCM.

- Le differenze di effetti e costi tra il trattamento con LP e DCM sono ridotte. Il LP è una buona alternativa al trattamento DCM nelle cure primarie olandesi.
- Il LP e il DCM dovrebbero essere preferiti rispetto al trattamento con *Speech Motor Training* e *Social Cognitive Behavioural Therapy* dato il grado di certezza rispetto all'effect size del trattamento. Va segnalato che lo *Speech Motor Training* non è un programma di trattamento di per sé, ma una componente di un programma. Lo SMT è potenzialmente applicabile nei trattamenti basati sul DCM se appare adatto al profilo del bambino che balbetta in base alla diagnosi.

Riferimenti

1. Boey, R. (2003). *Stotteren en stottertherapie bij heel jonge kinderen. Sociaal-cognitieve gedragstherapie*. Leuven / Leusden. Acco.
2. Boey, R. (2008). *Stuttering. An epidemiological and phenomenological study. Effects of a social-cognitive behaviour therapy*. Antwerpen. Universiteit Antwerpen
3. Boey, R. (2013). Effecten van een sociaal cognitieve gedragstherapie voor stotteren: Invloed van leeftijd, geslacht, initiële stotterernst en temperament. *Logopedie VVL*, mei-juni 2013, 33-48.
4. Bonelli, P., Dixon, M., Bernstein Ratner, N. & Onslow, M. (2000). Child and parent speech and language following the Lidcombe programme of early stuttering intervention. *Clinical Linguistics & phonetics*, 14, 427-446
5. Franken, M.C.J., Kielstra- Van der Schalk, C.J. & Boelens, H. (2005). Experimental treatment of early stuttering: A preliminary study. *Journal of Fluency Disorders*, 30, 189-199.
6. Franken, M.C. & Van Borsel, J. (2006). De behandeling van jonge stotterende kinderen. *Handboek Stem- Spraak- Taalpathologie*. Houten. Bohn Stafleu, van Loghum.
7. Herder, C., Howard, C., Nye, C., & Vanryckeghem, M. (2006). Effectiveness of Behavioral Stuttering Treatment: A Systematic Review and Meta-Analysis. *Contemporary Issues in Communication Science and Disorders*, 33, 61-73.
8. Lincoln, M., Onslow, M. & Reed, V. (1997). Social validity of the treatment outcomes of an early intervention program for stuttering. *American Journal of Speech- Language Pathology*, 6, 77-84.
9. Nye, C., Vanryckegem, M., Schwartz, J.B., Herder, C., Turner III, H.M. & Howard, C. (2012). Behavioral Stuttering Interventions for Children and Adolescents: A systematic Review and Meta-Analysis. *Journal of Speech, Language , and Hearing Research*. Published online December 28, 2012. doi: 10.1044/1092-4388(2012/12-0036). Geraadpleegd op 10 juni 2013, <http://jslhr.asha.org>.
10. Onslow, M., Stocker, S., Packman, A. & McLeod, S. (2002). Speech timing in children after the Lidcombe Program of early stuttering intervention. *Clinical Linguistics & phonetics*, 16, 21-33.
11. Onslow, M. & Millard, S. (2012). Palin Parent Child Interaction and the Lidcombe Program: Clarifying some issues. *Journal of Fluency Disorders*, 37, 1-8.
12. Pertijs, M. (2013). Evidence-based richtlijn stotteren bij kinderen en volwassenen. *Kwaliteit*

van bewijs voor het effect van behandeling van jonge stotterende kinderen. Master's thesis Universiteit Utrecht, Utrecht.

13. Riley, J. & Riley, G. (1999). Speech motor training. In M. Onslow & A. Packman (Eds.), *The handbook of early stuttering intervention* (pp.139-158). San Diego: Singular.

14. Riley, G. & Ingham, J.C. (2000). Acoustic duration change associated with two types of treatment for children who stutter. *Journal of Speech, Language and hearing Research*, 43, 965-978.

15. De Sonnevile-Koedoot, C., Stolk, E., Rietveld, M., Franken, M.C. (2015). Direct versus Indirect Treatment for Preschool Children who Stutter: The Restart Randomized Trial. *Plos One*. DOI:10.1371/journal.pone.0133758 July 28, 2015

16. de Sonnevile-Koedoot, C., Bouwmans, C., Franken, M.C., Stolk, E. (2015). Economic evaluation of stuttering treatment in preschool children: RESTRT randomized trial. In *The impact and treatment of developmental stuttering*. Erasmus University. Rotterdam pag 103-123.

17. Woods, S., Shearsby, J., Onslow, M. & Burnham, D. (2002). Psychological impact of the Lidcombe Program of early stuttering intervention. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 37, 31-40.

Capitolo 6: Efficacia delle Terapie per la Balbuzie nei Bambini con età compresa tra i 6 e i 13 Anni

6.1 Introduzione

I bambini di età compresa tra i 6 e i 13 anni generalmente balbettano da alcuni anni. Le esperienze accumulate durante questi anni possono portare ad ansia verso la balbuzie e agli associati comportamenti di evitamento, emozioni e pensieri negativi che possono influenzare la loro interazione con gli altri. Nei Paesi Bassi le terapie per la balbuzie per i bambini con età compresa tra 6 e 13 anni sono mirate ai diversi aspetti della balbuzie, alle emozioni e agli aspetti cognitivi associati alla balbuzie e all'influenza della balbuzie sulla partecipazione alla vita quotidiana.

In questo capitolo viene discussa l'efficacia delle terapie per la balbuzie in bambini con età compresa tra i 6 e i 13 anni. Il punto di partenza è che l'efficacia della terapia è stata valutata in *trial* clinici randomizzati (RCT), in studi di intervento con gruppo di controllo. Saranno presi in considerazione sia gli studi in cui una terapia per la balbuzie viene paragonata al "non fare nulla", sia gli studi che confrontano varie terapie della balbuzie.

L'efficacia della *Social-Cognitive Behavioural Therapy* (Boey, 2003) sarà discussa per completare la conclusione al fine di delineare un'immagine aggiornata delle terapie e degli approcci più comunemente usati nei Paesi Bassi.

Il progetto di raccomandazione per il trattamento di bambini piccoli che balbettano tra i 6 e i 13 anni sarà discusso nell'ultimo paragrafo di questo documento.

6.2 Metodologia

Per rispondere alla domanda su quali fossero gli effetti desiderati e indesiderati delle terapie per la balbuzie nei bambini di età compresa tra i 6 e i 13 anni di età in termini di severità della balbuzie, evitamento di situazioni di parlato, naturalezza del parlato e qualità di vita, sono state selezionate e valutate tre revisioni sistematiche (Bothe et al., 2006; Herder et al., 2006; Nye et al., 2012). La qualità metodologica di queste tre revisioni sistematiche è descritta nel capitolo sugli effetti desiderati e indesiderati della terapia della balbuzie negli adolescenti e negli adulti e nel capitolo sugli interventi con bambini piccoli che balbettano.

6.3 Evidenze

6.3.1 Panoramica delle revisioni sistematiche degli studi sull'efficacia delle terapie della balbuzie nei bambini di età compresa tra 6 e 13 anni

Per rispondere alla domanda di ricerca sugli effetti desiderati e indesiderati delle terapie balbuzie nei bambini di età compresa tra 6 e 13 anni, nelle tre revisioni sistematiche, sono discussi tre diversi RCT e due studi con un *design* quasi sperimentale (QED) (Tabella 1).

Tabella 1. Riassunto delle RCTs e QED tratti dalle revisioni sistematiche di Bothe et al. (2006), Herder et al. (2006) e Nye et al. (2012)

	Design	Intervento	N	Età (anni)	Durata del follow up	Misure di Outcome
Ladouceur & Martineau (1982)	RCT	<i>Breathing regulation, breathing regulation home, control</i>	21 (7/7/7)	5-16	1 mese	<i>Stuttering percentage, Speech rate</i>
Ryan & Ryan (1983)	QED	<i>Stuttering Modification, DAF^a, Time Out, GILCU^b</i>	16 (4/4/4/4)	7-18	6 mesi	<i>SW/M^c WS/M^d</i>
Ryan & Ryan (1995)	RCT	<i>DAF, GILCU</i>	20	7-17	Sconosciuta	<i>SW/M c WS/Md</i>
Craig et al. (1996)	QED	<i>EMG^e, Intensive Smooth Speech, Smooth Speech home, Control</i>	97	9-14	12 mesi	<i>Stuttering percentage, Speech rate in syllables per minute</i>
Riley & Ingham (2000)	RCT	<i>SMT^f, ELU^g</i>	12	3.8-8.4	Sconosciuta	<i>Stuttering percentage</i>

a. Delayed Auditory Feedback, b. Gradual Increase in Linguistic Complexity of Utterance, c. Stuttered words per minute, d. Words spoken per minute, e. Electromyography Feedback, f. Speech Motor Training, g. Extended Length of Utterance

Nye et al (2012)

Nye e colleghi hanno pubblicato una revisione sistematica e due meta-analisi nel 2012, valutando l'efficacia degli interventi comportamentali sulla fluency del parlato nei bambini di età compresa tra i 2 e i 18 anni. In questa revisione sistematica sono stati valutati due studi randomizzati controllati e un singolo studio quasi sperimentale sull'effetto delle terapie balbuzie nei bambini di età compresa tra 6 e 13 anni.

Entrambi gli RCT hanno confrontato l'effetto di due diversi interventi l'uno rispetto all'altro. Questo riguarda uno studio sull'influenza del *Delayed Auditory Feedback* rispetto all'effetto del *Gradual Increase in Length and Complexity of Utterance* (Ryan & Ryan 1995) e uno studio in cui una riduzione della percentuale di gruppi di sillabe balbettate dopo il trattamento con *Speech Motor Training* (SMT) è stato confrontato con una riduzione della percentuale di gruppi di sillabe balbettate dopo il trattamento con *Extended Length of Utterance* (ELU) (Riley & Ingham 2000).

Lo studio quasi-sperimentale di Craig et al. (1996) ha confrontato l'efficacia del *Feedback Elettromiografico*, dell'*Intensive Smooth Speech* e dello *Smooth Speech Home* con un gruppo controllo che non era trattato, in termini di percentuale di sillabe balbettate e il numero di Parole pronunciate al minuto in bambini che balbettano di età compresa tra 9 e 14 anni. I partecipanti a questo studio non sono stati assegnati in modo casuale a una delle tipologie di intervento.

Nella revisione sistematica di Nye et al. (2012) l'effetto calcolato per lo studio Craig et al. (1996) è stato pari a $g = 1,75$ (IC 95%: 1,05 – 2,45) (Tabella 2). Supponendo che un valore di soglia di (-) 0,5 (il valore di soglia per la rilevanza clinica utilizzato dal gruppo di lavoro GRADE come standard) la stima del punto di 1,75 indica una differenza clinicamente rilevante nella riduzione della percentuale di sillabe balbettate dopo trattamento *Intensive Smooth Speech* e *EMG*. L'effetto trovato per *EMG*, $g = 1,62$, come per *ISS*, $g = 2,58$, può essere considerato grande. Valori maggiori di 0,7 possono essere considerati come aventi un grande effetto (Higgins & Green, 2008). Subito dopo l'intervento la percentuale di sillabe balbettate era, in media, inferiore all'1%. Non è stato possibile effettuare analisi statistiche al fine di mantenere l'indipendenza dei dati a causa del confronto di un unico gruppo di controllo con tre diversi gruppi di intervento (Nye et al., 2012).

La percentuale di sillabe balbettate sul numero di parole al minuto sono stati ancora una volta valutati 12 e 52 settimane dopo l'intervento. Non è stata rilevata alcuna differenza statisticamente significativa ($p > 0.05$) per nessuno degli interventi. La percentuale media di sillabe balbettate è stata inferiore al 3% per i tre gruppi. Il gruppo sottoposto a *Smooth Speech Home* e il gruppo *EMG* hanno ottenuto un punteggio migliore rispetto al gruppo *Intensive Smooth Speech* utilizzando un valore di soglia del 2% per le sillabe balbettate.

La naturalezza del parlato è stata misurata pre-intervento, post-intervento e durante il *follow-up* a 12 e 52 settimane dopo l'intervento da parte di ricercatori, genitori e del bambino su una scala *Likert* a 5 punti. La naturalezza del parlato è stata valutata come più naturale nei tre momenti di valutazione dopo l'intervento rispetto a prima da tutti i valutatori ($p < 0.001$). Rispetto al gruppo di controllo, la naturalezza del discorso nei tre gruppi di trattamento è aumentata nel tempo secondo per i genitori e per i ricercatori. Questa differenza tra i gruppi di trattamento e il gruppo di controllo non è stata confermata nella valutazione della naturalezza del discorso da parte dei bambini stessi. L'ansia è stata misurata con *State-Trait Anxiety Inventory for Children* (Spielberger et al., 1972). Un risultato significativo è stato trovato per il tempo (*Wilks' lambda* = .92, $DF = 4,90$, $p < 0.01$) per i quattro diversi gruppi direttamente dopo l'intervento e 12 settimane dopo l'intervento. Non è stata rilevata alcuna differenza significativa tra i quattro gruppi, incluso il gruppo di controllo.

Il grado di certezza rispetto all'*effect-size* è stato limitato a causa del disegno quasi-sperimentale dello studio in cui i partecipanti non sono stati assegnati in modo casuale a un particolare intervento o gruppo.

Tabella 2. Effect Size, 95% Intervallo di Confidenza e p-value per la percentuale di sillabe balbettate di bambini di età compresa tra 6 e 13 anni in studi con un intervento contro un gruppo di controllo con design RCT e valutazione follow-up diretta dopo l'intervento (Nye et al., 2012)

Studio	Statistica per studio					
	Trattamento n	Control n	Hedges's g	Limite inferiore	Limite superiore	P value
Craig et al (1996)	26	20	1.75	1.05	2.45	<.001

¹ Valutazione con utilizzo di GRADE

Rischio di bias: ridotto di -1 (Vedi Appendice).

Indirectness: ridotto di -1 a causa del confronto di un singolo gruppo di controllo con tre gruppi di intervento; (Da detrarre dal totale nelle pubblicazioni date tutte le terapie differenti).

Imprecisione: nessuna evidenza per giustificare una riduzione (limite inferiore dell'intervallo di confidenza è > 0,5);

Incoerenza: non applicabile;

Bias della pubblicazione: nessuna evidenza per giustificare una riduzione;

Rapporto bias: ridotto di -1 dato che non tutte le misure psicologiche sono state riportate.

Ryan & Ryan (1995) hanno confrontato l'effetto del *Delayed Auditory Feedback* utilizzato per ottenere un parlato lento, ritardato e quindi ridurre la balbuzie con l'effetto del *Gradual Increase in Length and Complexity of Utterance* (GILCU). GILCU è un programma *Fluency Shaping* basato sul condizionamento operante in cui il discorso fluente è supportato in fasi strutturate. I risultati sono stati riportati per le misure di *outcome* di percentuale di sillabe balbettate, parole balbettate al minuto e numero di parole al minuto per 20 bambini di età compresa tra 7 e 17, entrambi post-intervento e 14 mesi dopo l'intervento. Il numero di parole balbettate per 11 partecipanti che hanno completato i programmi è diminuito da 7,9 a 0,8 in 18,3 ore. Il parlato fluente è stato mantenuto durante la valutazione a 14 mesi dopo il *follow-up*.

La revisione sistematica di Nye et al., (2012) ha calcolato l'effetto nello studio Ryan & Ryan (1995) come $g = 0,295$ (IC 95%: da -0,797 a 1,387) (tabella 3). Supponendo un valore di soglia di (-) 0,5 (il valore di soglia per la rilevanza clinica utilizzato dal gruppo di lavoro GRADE come standard) la stima del punto di 0,295 non indica una differenza clinicamente rilevante nella riduzione della percentuale di sillabe balbettate dopo il trattamento con DAF rispetto al trattamento basato su GILCU. Il limite inferiore (- 0,797) e il limite superiore (1,387) dell'intervallo di confidenza al 95% superano entrambi il valore di soglia di (-) 0,5 per rilevanza clinica. Quest'analisi suggerisce la possibilità che DAF sia più efficace della GILCU, o viceversa anche che la GILCU sia più efficace del DAF.

La scarsa accuratezza del risultato (la larghezza dell'intervallo di confidenza del 95% si è diffusa tra -0,797 e 1,387 ($g = 0,295$)) e l'elevato rischio di *bias* (Appendice A) significa che non siamo sicuri se l'effetto stimato in questo studio sia vicino all'influenza effettiva del trattamento con DAF o con GILCU. La qualità dell'evidenza trovate è stata valutata come molto bassa.

Tabella 3. Dimensione dell'effetto e Intervallo di Confidenza 95% negli studi con un *design* RCT in cui due interventi vengono confrontati senza un gruppo di controllo (Nye et al., 2012)

Studio	Interventi & Misure di Outcome	Statistiche				
		Hedge' G	Limite Inferiore CI	Limite superiore CI	TX1 n	TX2 n
Ryan & Ryan (1995)	DAF ^A vs GILCU ^B	SWM	0.295	1.387	5	6
Riley & Ingham (2000)	SMT ^C vs ELU ^D	%SS	-1.079	0.051	6	6

^A Delayed Auditory Feedback; ^B Gradual Increase in Length and Complexity of Utterance; ^C Speech Motor Training; ^D Extended Length of Utterance;

¹ Valutazione con utilizzo di GRADE. Ryan & Ryan (1995)

Rischio di *bias*: ridotto di -1 (Vedi Appendice A).

***Indirectness*: ridotto di -1 dato che i limiti di età della popolazione di ricerca non corrispondono alla popolazione nella domanda di ricerca e nessuna analisi di sottogruppi è stata effettuata su bambini di 6-13 anni.**

Imprecisione: ridotta di -1 (il limite inferiore dell'intervallo di confidenza è <0,5);

Incoerenza: non applicabile;

***Report Bias*: ridotto di -1 data l'assenza di informazioni pertinenti;**

Rapporto *bias*: nessuna prova per ridurre i punteggi.

Riley e Ingham (2000) hanno confrontato l'influenza dello *Speech Motor Training* (SMT) con l'effetto del *Extended Length of Utterance* (ELU) sulla misura di *outcome* della percentuale di sillabe balbettate nei bambini di età compresa tra 3,8 e 8,4 anni. Lo scopo dell'ELU è quello di incoraggiare un parlato privo di balbuzie offrendo una stimolazione contingente alla risposta in compiti linguistici significativi. SMT ha ridotto la percentuale di balbuzie mediana del 36,5%. Questa differenza era significativa (analisi della coppia corrispondente di *Wilcoxon* ($z = -2.0$, $p = 0.04$)). ELU ha ridotto la percentuale di balbuzie del 63,5%. L'analisi *Mann-Whitney U* ha indicato che la differenza nella riduzione della percentuale di balbuzie tra SMT ed ELU era statisticamente significativa ($z = -2.1$; $p = 0.04$).

La revisione sistematica di Nye et al. (2012) ha calcolato l'effetto dello studio sullo SMT rispetto al risultato con ELU (Riley & Ingham, 2000) come $g = -1,079$ (IC: 95% da -2,209 a 0,051) (Tabella 3). Supponendo che un valore di soglia di (-) 0,5 la stima del punto di - 1,079 indica una differenza clinicamente rilevante nella riduzione della percentuale di sillabe balbuzie dopo il trattamento con SMT rispetto al trattamento basato su ELU. L'inaccuratezza del risultato (la larghezza dell'intervallo di confidenza del 95% è diffusa tra - 2,209 e 0,051 ($g = 1,079$)) e l'elevato rischio di *bias* (Appendice A) significa che restano molti dubbi circa l'effetto stimato in questo studio per i bambini di età compresa tra 6 e 12, in parte poiché la popolazione di ricerca non corrisponde pienamente alla popolazione bersaglio nella domanda di ricerca e in parte perché non è stata effettuata alcuna analisi dei sottogruppi per questa categoria di età. La qualità delle prove trovate è stata valutata come molto bassa.

Bothe et al (2006)

La revisione sistematica di Bothe et al. (2006) discute quattro studi che confrontano l'effetto della terapia della balbuzie in un RCT o QED in bambini di età compresa tra 6 e 13 anni. Questo riguarda due studi che sono stati anche discussi nella revisione sistematica di Nye et al. (2012); Craig et al (1996) e Ryan & Ryan (1995).

Il RCT di Ladouceur & Martineau (1982) ha confrontato l'effetto della *breathing regulation therapy*, con e senza il supporto di genitori di bambini di età compresa tra i 5 e i 15 anni, con un gruppo di controllo che non è stato trattato. Dopo tre settimane di trattamento è stato raggiunto il criterio utilizzato da Bothe et al. (2006) di meno del 5% delle sillabe balbettate. Non è stata dimostrata alcuna differenza statisticamente significativa nella riduzione delle sillabe balbettate tra il gruppo di intervento e il gruppo di controllo non trattato dopo il trattamento rispetto alla situazione iniziale ($F = 1,23$, $p > 0.05$).

Ryan e Ryan (1983) hanno confrontato l'effetto del trattamento di *Stuttering Modification*, *Delayed Auditory Feedback*, *Pausing* e *GILCU* sul numero di parole balbettate al minuto e sul numero di parole pronunciate al minuto in 16 bambini che balbettavano dai 7 ai 18 anni. Gli autori hanno concluso che la fluenza del parlato è aumentata significativamente nei 16 bambini attraverso tutti e quattro gli interventi. La natura sperimentale dello studio, in cui un gruppo di controllo non trattato è assente, il fatto che il numero di partecipanti per intervento era molto limitato e il rischio di un *bias* molto alto significa che abbiamo poca fiducia nella qualità delle prove di questo studio. La pubblicazione non descrive un'analisi statistica. Questo studio non è incluso nella revisione delle prove rispetto alla domanda di ricerca sull'efficacia della terapia della balbuzie nei bambini di età compresa tra 6 e 13 anni.

Herder et al (2006)

Herder e colleghi nelle loro revisioni sistematiche dal 2006 discutono due RCT che valutano l'efficacia degli interventi comportamentali sulla fluenza del parlato in bambini che balbettano tra i 2 e i 18 anni. Questo concerne gli studi di Ryan & Ryan (1995) e Riley & Ingham (2000). Entrambi gli studi sono stati presentati in questo documento nella revisione sistematica di Nye et al. (2012).

6.3.2 Studi individuali (internazionali) sull'Efficacia delle Terapie per la Balbuzie nei bambini di età compresa tra 6 e 13 anni

Questa sezione illustra lo studio di Hancock et al. (1998) nel *follow-up* a lungo termine dello studio Craig et al. (1996).

Hancock et al (1998)

Lo studio di Hancock et al. (1998) ha analizzato l'effetto a lungo termine di *Feedback Elettromiografico*, *Intensive Smooth Speech* e *Intensive Smooth Speech Home* rispetto alla riduzione della percentuale di sillabe balbettate, alle sillabe parlate al minuto, alla naturalezza del parlato, al grado di ricorrenza secondo i genitori, all'attitudine comunicativa e all'ansia. La popolazione di ricerca consisteva in 62 bambini che avevano partecipato allo studio Craig et al. (1996). Non sono stati inclusi in questo studio i 20 bambini del gruppo di controllo non trattati, poiché non è etico negare il trattamento a bambini che balbettano dai 2 ai 6 anni. La durata media del periodo di *follow-up* per i bambini dopo la randomizzazione è stata di 4,2 anni. I risultati hanno indicato un potenziale effetto positivo a lungo termine del trattamento con *Feedback Elettromiografico*, *Intensive Smooth Speech* e *Intensive Smooth Speech Home*; la percentuale di sillabe balbettate era dal 75% all'80% più bassa dai 2 ai 6 anni dopo la randomizzazione, rispetto alla valutazione per l'intervento.

Non è stata dimostrata alcuna differenza di efficacia tra i gruppi di trattamento. Il gruppo *Smooth Speech Home* e il gruppo *EMG* hanno ottenuto un punteggio migliore nel lungo termine rispetto al gruppo *Intensive Smooth Speech* utilizzando una soglia del 2% per le sillabe balbettate.

Nessuna differenza nella valutazione della naturalezza del parlato è stata dimostrata nel lungo termine rispetto a un *follow-up* di 12 mesi. Inoltre, non è stata dimostrata nessuna differenza tra i gruppi di trattamento in termini di naturalezza del parlato.

L'attitudine comunicativa misurata con il CAT-R ha evidenziato un punteggio medio di 12,4 (DS = 8,1) per tutti i partecipanti. I punteggi medi per i vari gruppi di trattamento erano virtualmente gli stessi. Il punteggio medio di 12,4 era più alto della media per i bambini che non balbettano (M = 8,7), ma inferiore alla media dei bambini che balbettano (M = 16,7) (De Nil & Brutten, 1991).

In termini di ansia di tratto ed ansia di stato non c'erano differenze tra i vari gruppi e nessuna differenza rispetto al *follow-up* a 12 mesi dopo la randomizzazione.

Il 75% dei genitori ha indicato che il loro bambino parlava fluentemente durante la valutazione di *follow-up* a lungo termine; il 25% ha riferito che il bambino parlava meno fluentemente durante questo periodo. Il 13% dei genitori ha avuto l'impressione che il linguaggio fluente del loro bambino fosse tornato al livello pre-trattamento; il 53% ha avuto l'impressione che ci fosse un decremento, ma non fino a tornare al livello prima della terapia e il 29% ha indicato che il risultato ottenuto attraverso la terapia è stato mantenuto.

La grandezza dell'*effect size* è stata estremamente incerta, dato che non erano disponibili dati di *follow-up* utilizzabili per il gruppo di controllo.

6.3.3 Social-Cognitive Behavioural Therapy

Il programma di *Social-Cognitive Behavioural Therapy* di Boey (2003) per bambini che balbettano si basa sulla teoria dell'apprendimento sociale-cognitivo, sulla terapia

comportamentale, sulla letteratura riguardante il cognitivo e l'emozione, nonché sulla letteratura generale sulla balbuzie (Franken & van Borsel, 2006). La terapia deve essere adattata alle esigenze individuali della persona che balbetta o del suo ambiente. Boey (2008) descrive gli obiettivi centrali dell'SCBT come:

- ridurre i sintomi della balbuzie;
- prevenire e/o limitare lo sviluppo della balbuzie;
- ridurre l'impatto negativo sul dominio sociale e sulla qualità della vita.

Gli obiettivi specifici per l'aspetto motorio verbale, la componente emotiva o la componente cognitiva della balbuzie vengono formulati a seconda del comportamento oggetto dell'intervento. La terapia con bambini di età compresa tra 7 e 12 anni viene proposta sotto forma di sessioni individuali preferibilmente combinate con un programma di counselling obbligatorio per i genitori da 10 a 12 sessioni, una volta ogni tre settimane.

Non è stata trovata alcuna pubblicazione sull'effetto di SCBT in riviste *peer-reviewed*. Non è stato trovato alcun RCTs che includesse SCBT. Visto che la SCBT è spesso applicata nei Paesi Bassi, e in particolare nelle Fiandre, per il trattamento dei bambini che balbettano, sarà discussa l'efficacia del SCBT in questa sezione utilizzando uno studio prima e dopo l'intervento, anche se non include un gruppo di controllo (gruppo di non trattati o gruppo sottoposto ad altro trattamento) (Boey, 2008).¹⁵ Il livello di certezza rispetto all'*effect-size* in questo studio è, incidentalmente, limitato visto che non vi è stato alcun confronto tra due o più gruppi di studio omogenei.

L'effetto della SCBT è stato studiato a lungo termine e pubblicato in una tesi di dottorato (Doctor of medical Sciences, Boey 2008) e presentato in vari simposi. 122 pazienti che balbettavano sono stati selezionati casualmente dal database dell'autore del 1978, di cui 87 avevano ricevuto il trattamento con SCBT, 16 avevano ricevuto una diagnosi di balbuzie durante quel periodo, ma gli era stato consigliato di non sottoporsi a terapia e 19 individui (gruppo di *drop-out*) hanno rifiutato la terapia una volta ricevuta la diagnosi. La diagnosi clinica è stata effettuata tra 1991 e 2003, e il *follow-up* ha avuto luogo da 3 a 14 anni dopo la diagnosi clinica nel 2005-2006, con un tempo di *follow-up* medio di 10 anni. Le misure di *outcome* confrontate sono state severità della balbuzie, episodi di balbuzie, evitamento e movimenti associati, fattori scatenanti (*trigger*), sintomi cognitivi ed emotivi, reazioni sociali e caratteristiche della personalità. Boey (2008) ha concluso che il 32% del gruppo che ha ricevuto il trattamento al *follow-up* ha comunque ricevuto la diagnosi Balbuzie ed il 55% ha riferito ancora balbuzie. Nel gruppo diagnosticato il 73% non balbettava più dopo il trattamento o per un possibile recupero spontaneo. Dei *drop-out* il 68% balbettava ancora durante il follow-up e il 79% riferiva di avere ancora episodi di balbuzie. La diagnosi di balbuzie era stata fatta sulla base di più del 3% Disfluenze tipiche della Balbuzie (SLD) misurate in un campione di linguaggio di 100 parole durante un dialogo nella clinica dell'autore. Ventiquattro bambini avevano un'età compresa tra 7 e 12 anni nel periodo in cui sono stati

¹⁵ Un gruppo di controllo è definito come un gruppo che in termini di sesso, età, gravità della balbuzie iniziale e potenzialmente altre variabili prognostiche sono del tutto comparabili al gruppo sottoposto all'intervento da valutare.

selezionati per partecipare allo studio. Questi bambini hanno ricevuto una media di 75,5 sessioni di trattamento (DS 29,3) e un massimo di 140 trattamenti. La percentuale media di balbuzie in questo gruppo durante la fase di diagnosi clinica è stata di 13,3% SLD (DS 7,1). La media al *follow-up* era 1,3% SLD (DS 2,2).

L'*outcome* per la severità della balbuzie è stato misurato utilizzando lo *Stuttering Prediction Instrument* (SPI) per alcuni bambini che balbettavano di età compresa tra 7 e 12 anni e lo *Stuttering Severity Instrument* per altri. I punteggi totali sono stati convertiti in punteggi z al fine di confrontare i punteggi di tutti i partecipanti (i bambini di età compresa tra 7 e 12 che balbettavano). La riduzione della severità della balbuzie è più limitata nei bambini fino a 6 anni ed è più alta in adolescenti e adulti. I risultati individuali in termini di severità della balbuzie nei bambini di età compresa tra 7 e 12 anni erano meno omogenei rispetto ai bambini più piccoli.

I risultati sulle misure di *outcome* di evitamento e movimenti associati, fattori scatenanti (*trigger*), sintomi cognitivi ed emotivi, reazioni sociali e caratteristiche della personalità non sono stati descritti per categoria di età.

La certezza rispetto *all'effect size* nello studio Boey (2008) è limitata a causa del disegno dello studio. La certezza assoluta rispetto *all'effect-size* dopo la valutazione con GRADE è molto limitata dato l'elevato rischio di *bias* (Vedi appendice B).

Conclusioni

<p>Certezza dell'effect-size:</p> <p>Da basso a molto basso per tutte le misure di <i>outcome</i></p>	<p>Il numero di studi sull'efficacia del trattamento nei bambini tra i 6 e i 13 anni d'età risulta essere limitato e la qualità dell'evidenza di tale efficacia è perlopiù molto povera.</p> <p>La risposta alla domanda di ricerca per la fascia di età da 6 a 13 è ostacolata dal fatto che i limiti di età utilizzati nella popolazione di ricerca nella maggior parte degli studi sono più ampi rispetto alla categoria da 6 a 13 anni e perché non sono state condotte analisi per questo sottogruppo.</p> <p>Un'eccezione sono gli studi di Craig e colleghi (1996) e Hancock e colleghi (1998) sull'effetto del <i>Feedback Elettromiografico</i> (FE), dell'<i>Intensive Smooth Speech</i> (ISS), dello <i>Smooth Speech Home</i> (SSH) e lo studio di Boey (2008) sugli effetti della <i>Social Cognitive Behavioural Therapy</i> sulla balbuzie. Il <i>Feedback Elettromiografico</i>, la <i>Intensive Smooth Speech</i>, la <i>Smooth Speech Home</i> e la SCBT hanno un effetto positivo sulla frequenza della balbuzie subito dopo il trattamento e a lungo termine, con variazioni dai 2 ai</p>
---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------	---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------

	<p>14 anni dopo l'intervento.</p> <p>Vi è un alto grado di incertezza riguardo all'<i>effect size</i> di queste terapie. Questo è dovuto principalmente alla natura quasi sperimentale dello studio di Craig (1996), all'assenza di un gruppo di controllo nello studio di Boey (2008) e al numero limitato del campione nei gruppi sperimentali, che significa che sono stati ottenuti risultati meno accurati.</p>
--	----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------

6.4 Dall'Evidenze alle Raccomandazioni

6.4.1 Certezza rispetto all'*Effect size*

L'evidenza per tutte le misure di *outcome* per le diverse terapie della balbuzie per i bambini di età compresa tra i 6 e i 14 anni è di qualità bassa fino a molto scarsa.

Questo significa che vi è un alto grado di incertezza rispetto all'*effect size* del trattamento e che quindi il Logopedista/*Fluency Specialist* non sa che tipo di effetti aspettarsi nel sottoporre il trattamento per il/la suo/a paziente, ed è conseguentemente incapace di informare con accuratezza il paziente rispetto agli effetti del trattamento.

Ciò è dovuto al numero limitato di RCT o perché si tratta di studi in cui i partecipanti non sono stati randomizzati in un gruppo di trattamento o di controllo o in cui mancava un gruppo di controllo. Rispetto alla dimensione del campione, i numeri dei partecipanti agli studi erano piccoli e la popolazione di ricerca degli RCT superava il limite di età di 6 a 13 anni. Non era rilevabile l'analisi per il sottogruppo di età compresa tra 6 e 13 anni. Da questa prospettiva non c'è motivo valido per scegliere uno dei trattamenti discussi rispetto agli altri.

6.4.2 Bilancio tra effetti desiderati e effetti indesiderati

L'effetto del trattamento sulla percentuale di sillabe balbettate in bambini di età compresa tra 6 e 13 che balbettano tramite l'utilizzo di *Feedback Elettromiografico*, *Intensive Smooth Speech* e *Smooth Speech Home* risulta essere grande immediatamente dopo l'intervento quando viene comparato all'assenza di trattamento. E' stato dimostrato un effetto positivo a 12 mesi e da 2 a 6 anni dopo il trattamento.

Un effetto positivo è stato anche dimostrato nel breve e lungo termine rispetto alla naturalezza percepita del parlato. Non sono state dimostrate differenze per quanto riguarda l'ansia di tratto e di stato tra i vari gruppi e il gruppo di controllo non trattato. Nello studio di Boey (2008) è stata riportata una riduzione media del 90,2% nella percentuale di Disfluenze tipiche della Balbuzie (SLD) rispetto alla percentuale prima dell'intervento.

Gli *effect-size* di entrambi gli studi non possono essere confrontati direttamente tra loro a causa del fatto che negli studi sono state utilizzate diverse misure di *outcome*. Vi è un grande grado d'incertezza sull'effetto descritto negli studi di Craig et al. (1996), Hancock et al. (1998) e Boey (2008).

6.4.3 Valori e preferenze

a. Persone che balbettano

Poiché vi è un'assenza di un ragionevole, o addirittura un ampio grado di certezza circa l'*effect size* delle diverse terapie di balbuzie per la balbuzie per i bambini dai 6 ai 13 anni per tutte le misure di *outcome*, le preferenze dei bambini che balbettano e dei loro genitori possono svolgere un ruolo importante. È importante che i genitori di bambini di età compresa tra 6 e 13 anni che balbettano e i bambini stessi siano informati circa il potenziale beneficio di trattare la balbuzie. Ci sono indicazioni che il trattamento per bambini che balbettano di età compresa tra i 6 e i 13 anni possa ridurre significativamente la gravità della balbuzie rispetto al trattare la balbuzie in adolescenza ed età adulta. Dato che non c'è prova che un tipo di terapia sia più efficace di un'altra i genitori e i bambini che balbettano dovrebbero, consultando un logopedista o un *fluency specialist*, decidere quale metodo di trattamento preferiscono.

b. Logopedisti - *Fluency Specialist*

Consultare il testo per adulti.

6.4.4 Costi della Terapia

Non sono disponibili dati relativi ai costi sostenuti per il trattamento di bambini che balbettano da 6 a 13 anni. Per questa popolazione è quindi auspicabile che siano raccolti elementi che giustifichino la *cost-effectiveness*.

Raccomandazione

- | |
|----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| <p>12. Il trattamento della balbuzie nei bambini tra i 6 e i 13 anni d'età dovrebbe essere basato su un piano di lavoro che contenga tutti gli elementi ICF e che si concentri sui tipi di comportamento, emozioni e sugli aspetti cognitivi che sono stati identificati, in collaborazione con il bambino che balbetta e con i suoi genitori durante la valutazione.</p> |
|----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|

Razionale delle raccomandazioni

- Esiste un grado (molto) limitato di certezza rispetto alla misura in cui il numero di sillabe balbettate si è ridotto dopo il trattamento nei bambini di età compresa tra 6 e 13 anni.
- Non ci sono prove sufficienti che una terapia per la balbuzie sia più efficace di un'altra nel trattamento di bambini che balbettano dai 6 ai 13 anni.
- Esiste un certo grado, limitato, di certezza che una riduzione della severità della balbuzie nei bambini di età compresa tra 6 e 13 anni sia inferiore a quella dei bambini fino a 6 anni, ma maggiore negli adolescenti e negli adulti.
- Il processo decisionale condiviso riguardante gli obiettivi sulla base della diagnosi e in consultazione con il bambino che balbetta e i genitori è giustificato, data la natura multifattoriale della balbuzie.

Raccomandazioni per i futuri ricercatori

Vista la grande mancanza di evidenze scientifiche di alta qualità riguardanti l'efficacia della terapia per la balbuzie in bambini con età compresa tra i 6 e i 13 anni, sono raccomandate ulteriori ricerche sull'efficacia della terapia della balbuzie in questo gruppo target.

Riferimenti

1. Boey, R. (2003). *Stotteren en stottertherapie bij heel jonge kinderen. Sociaal-cognitieve gedragstherapie*. Leuven / Leusden. Acco.
2. Boey, R. (2008). *Stuttering. An epidemiological and phenomenological study. Effects of a social-cognitive behaviour therapy*. Antwerpen. Universiteit Antwerpen
3. Bothe, A.K., Davidow, J.H., Bramlett, R.E. & Ingham, R.J. (2006). Stuttering treatment research 1970-2005: I. Systematic review incorporating trial quality assessment of behavioural, cognitive and related approaches. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 15, 321-341
4. Craig, A., Hancock, K., Chang, E., McCready, C., Shepley, A., McCaul A., Costello D., Harding, S., Kehren, R., Masel, C. & Reilli, K.(1996). A controlled clinical trial for stuttering in persons aged 9 to 14 years. *Journal of Speech and Hearing Research*, 39, 808-826.
5. De Nil, L.C. & Brutten, G.J. (1991). Speech-associated attitudes of stuttering and nonstuttering children. *Journal of Speech and Hearing Research*, 34, 60-65.
6. Franken, M.C. & Van Borsel, J. (2006). De behandeling van jonge stotterende kinderen. *Handboek Stem- Spraak- Taalpathologie*. Houten. Bohn Stafleu, van Loghum.
7. Hancock, K., Craig, A., McCaul A., Costello D., Campbell, K. & Gilmore, G. (1998). Two-to Six Year Controlled-Trial Stuttering Outcomes for Children and Adolescents. *Journal of Speech, Language and hearing Research*, 41, 1242-1252.
8. Herder, C., Howard, C., Nye, C. & Vanryckeghem, M. (2006). Effectiveness of

Behavioral Stuttering Treatment: A Systematic Review and Meta-Analysis.
Contemporary Issues in Communication Science and Disorders, 33, 61-73.

9. Higgins, J.P.T. & Green, S. (2008). Cochrane Handbook for Systematic Reviews of Interventions Version 5.1.0. The Cochrane Collaboration, 2011. Available from www.cochrane-handbook.org/ [15 maart2013]
10. Ladouceur, R. & Martineau, G. (1982). Evaluation of regulated-breathing method with and without parental assistance in the treatment of child stutterers. *Journal of Behavior Therapy and Experimental Psychiatry*, 13, 301-306.
11. Nye, C., Vanryckegem, M., Schwartz, J.B., Herder, C., Turner III, H.M. & Howard, C. (2012). Behavioral Stuttering Interventions for Children and Adolescents: A systematic Review and Meta-Analysis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*. Published online December 28, 2012. doi: 10.1044/1092-4388(2012/12-0036). Geraadpleegd op 10 juni 2013, <http://jslhr.asha.org>.
12. Riley, G. & Ingham, J.C. (2000). Acoustic duration change associated with two types of treatment for children who stutter. *Journal of Speech, Language and hearing Research*, 43, 965-978.
13. Ryan, B.P. & Ryan, B. (1983). Programed stuttering therapy for children: Comparison of four establishment programs. *Journal of Fluency Disorders*, 38, 291-321.
14. Ryan, B.P. & Ryan, B. V.K. (1995). Programed stuttering treatment for children: Comparison of two establishment programs through transfer, maintenance, and follow-up. *Journal of Speech and hearing Research*, 38, 61-75.

Capitolo 7: L'efficacia del trattamento della Balbuzie in Adolescenti ed Adulti

7.1 Introduzione

In questo capitolo verrà discussa l'efficacia di diversi trattamenti per la balbuzie in età adolescenziale ed adulta. Il punto di partenza è che verrà provata l'efficacia della terapia analizzando diversi RCT con gruppo di controllo, che non viene sottoposto al trattamento oppure viene sottoposto a un trattamento differente. La percentuale di successo dei diversi trattamenti sarà valutata in base ai seguenti *outcome*: gravità della balbuzie, comportamenti di evitamento, partecipazione, qualità della vita e naturalezza del linguaggio. Tutte queste misure di *outcome* sono di cruciale importanza per la persona che balbetta (PWS), ma visto che sono raramente utilizzate tutte insieme nei vari studi, è molto complesso effettuare un confronto efficace.

Visto da una prospettiva storica, le due correnti a cui fanno riferimento i vari programmi di trattamento per adolescenti ed adulti sono la *stuttering modification therapy* e la *fluency shaping therapy*. L'obiettivo di un trattamento con "*stuttering modification*" è quello di essere in grado di balbettare più liberamente e facilmente e in questo approccio la riduzione dell'ansia di balbettare è il punto di partenza centrale. Nel trattamento con "*Fluency shaping*" il balbettare stesso è il punto centrale ed il trattamento aiuta la persona che balbetta a parlare più fluentemente passo passo, attraverso un programma di terapia comportamentale (Bezemer et al., 2010).

Tuttavia, nella pratica e nella ricerca scientifica sono disponibili diversi metodi, modelli di lavoro e tecniche di trattamento che possono essere integrati. Tali approcci sono spesso inseriti in diversi metodi e tecniche, che verranno considerati nella seguente analisi.

7.2 Metodologia

Il 30 Luglio 2012 per revisioni sistematiche (con o senza meta analisi) di RCT. Sono state utilizzate per questo con le revisioni sistematiche potenzialmente rilevanti le seguenti fonti e gli studi totali inclusi tra parentesi: PsycInfo (0/29), EMBASE (0/11), CINAHL (0/37), Cochrane Library (0/13) e Medline (6/111). Tra i cinque studi e le recensioni sistematiche potenzialmente rilevanti trovate in MEDLINE, si è considerato un commento su una revisione sistematica.

I criteri utilizzati per determinare la rilevanza degli studi sono i seguenti:

- Soggetto pertinente alla balbuzie
- Partecipanti dello studio: adolescenti o adulti.

- Studi riguardanti interventi terapeutici (trattamento della balbuzie oppure farmacoterapia) e non diagnostici¹⁶.

Una ricerca effettuata il 12 febbraio 2013 utilizzando le fonti di cui sopra per RCTS originale, tra cui un aggiornamento delle revisioni sistematiche; il numero di RCT potenzialmente rilevanti e il numero totale di studi trovati sono inclusi tra parentesi: EMBASE (4/94), CINAHL (4/108), MEDLINE (7/99) e PsycInfo (3/107).

I criteri per determinare la rilevanza erano gli stessi della precedente ricerca, con l'aggiunta che gli RCT potenzialmente pertinenti riscontrati non erano già stati inclusi in una revisione sistematica.

In entrambe le ricerche sono stati quindi selezionate 5 revisioni sistematiche e 8 RCT. Tra queste non era stata inclusa nessuna ricerca effettuata nei Paesi Bassi. A questo proposito è stato ritenuto opportuno, da parte delle Linee guida olandesi, discutere anche lo studio longitudinale di Huinck e Peters (2004): questo contiene, infatti, la valutazione di tre differenti metodi utilizzati nei Paesi Bassi.

Per i dettagli della strategia di ricerca, consultare l'appendice 5.

7.3 Evidenze

Le varie revisioni sistematiche saranno discusse nella sezione 3,1. I singoli studi che sono stati successivamente pubblicati o non inclusi nelle revisioni saranno discussi nella sezione 3,2. Le terapie valutate nei Paesi Bassi saranno discusse nella sezione 3,3.

7.3.1 Panoramica delle revisioni sistematiche sull'efficacia degli interventi comportamentali

Bothe et al (2006)

Nel 2006, Bothe e colleghi hanno pubblicato una revisione sistematica degli studi pubblicati tra 1970 e 2005, che ha valutato gli interventi comportamentali, gli interventi cognitivi e gli interventi integrati per la balbuzie. Sono state avanzate molte critiche sul metodo utilizzato per questa revisione. Ad esempio, la descrizione degli interventi e la composizione dei gruppi di studio in termini di sesso, età e presenza di co-morbidità non sono state descritte in modo dettagliato ed inoltre il livello e le cifre non sono stati

¹⁶ L'efficacia e gli effetti collaterali della terapia farmacologica sono stati descritti altrove.

forniti in un formato tabulare per i risultati, il che significa che è difficile un confronto tra e all'interno dei diversi tipi di interventi.

Va anche segnalato che i revisori hanno utilizzato anche una misura di successo per la frequenza di balbuzie - pari a meno del 5% delle sillabe balbettate dopo l'intervento - che non si presta facilmente a discussione (Vedi anche appendice 3).

Praticamente tutti gli studi hanno valutato un intervento che rientra nel "*Fluency shaping*". Per quanto riguarda gli adulti la maggior parte degli studi ha descritto il trattamento del tipo "*Prolonged/Smooth Speech*" e "*Regulated breathing e airflow*".

Gli studi sperimentali, comparativi randomizzati (intervento A contro intervento B o intervento A versus non fare nulla/placebo) sono i migliori metodi di valutazione per valutare gli effetti positivi e negativi degli interventi. I risultati di follow-up (6 mesi, 12 mesi dopo la fine del trattamento) sono molto più rilevanti per la persona che balbetta rispetto ai risultati rilevati alla fine del trattamento. In questo caso ci sono stati due studi con un disegno comparativo, ma nessuna randomizzazione¹⁷ che hanno valutato il "*Prolonged/Smooth speech*" negli adulti¹⁸. Questi due studi hanno inoltre presentato i dettagli del *follow-up* (tabella 1). La durata del *follow-up* è stata di 6 mesi. La frequenza della balbuzie alla fine del trattamento e alla fine del *follow-up* si è ridotta di circa il 50-80% ma è evidente che la frequenza della balbuzie è (gradualmente) aumentata di nuovo durante il periodo fino al *follow-up*. In termini di *speech tempo* è sembrato che ci fosse un aumento come risultato della terapia. Lo studio di James e colleghi (1989) ha valutato in che misura le variabili sociali, emotive o cognitive sono migliorate. Il loro gruppo di studio che ha seguito DAF e la terapia sulla frequenza respiratoria, fraseggio e prosodia ha concluso che le persone sottoposte a trattamento hanno diminuito le situazioni evitate perché si sentivano più a loro agio¹⁹.

Tabella 1. Frequenza della balbuzie e frequenza della parola dopo varie terapie "prolonged/smooth speech"

¹⁷ È stata presa una decisione per determinare solo il rischio di pregiudizi e la certezza della effect-size per quegli studi che segnalano gli intervalli di confidenza. In assenza di intervalli di confidenza, non è possibile giungere a un giudizio sull'accuratezza della dimensione dell'effetto.

¹⁸ Questo riguarda gli studi che i revisori hanno codificato come "gruppi multipli, nessuna assegnazione casuale" e "gruppi multipli, assegnazione casuale".

¹⁹ Nello studio di Perkins et al. non sono state fornite informazioni sul livello di riduzione

		Frequency of stuttering (% stuttered syllables)				Speech rate (number of syllables per minute)			
		Baseline	PT*	FU*	% improvement (FU-baseline)	Baseline	PT*	FU*	% improvement (FU-baseline)
Perkins 1974									
N=44	Fluency training								
<hr/>									
		Frequency of stuttering (% stuttered syllables)				Speech rate (number of syllables per minute)			
m/f: 37/7	-CF** condition	7.82	2.41	2.98	62	163	-	193	18
Age: 12-52 (virtually only adults)	-TO** condition	5.17	1.75	1.67	68	175	-	189	8
James 1989									
N=24 (4 dropouts)	Delayed auditory feedback (DAF)	16.32	2.64	8.44	48	230	-	245	6
m/f:18/2									
Age:19-50	DAF and therapy for breathing, phrasing and prosody	9.04	1.04	1.73	81	245	-	249	2
		Median percentage improvement: 65 (range: 48-81%)				Median percentage improvement: 7 (range: 2-18%)			

* PT: post treatment; FU: follow-up period of ≥ 6 months. ** CF: "contingency free"; TO: "time -out"

Bothe e coll. (2006) hanno riportato due studi che utilizzano la respirazione e il flusso d'aria regolati, dove la frequenza di balbuzie è stata misurata durante il *follow-up*, di 6 o 27 mesi. Per queste tipologie di terapia sono stati osservati anche effetti favorevoli sulla frequenza della balbuzie (Tabella 2). Il grado di miglioramento variava dal 35-67% in meno di sillabe balbettate. Questi risultati sono stati meno positivi rispetto a quelli del gruppo sottoposto a "*prolonged/smooth Speech*". Per quanto riguarda la velocità del linguaggio non sembra applicabile per il gruppo sottoposto a terapia basata sul controllo della respirazione e sembrava essere un po' più vantaggioso. Tuttavia, in entrambi i casi vi è stata una notevole variazione all'interno di queste forme di terapia (Tabella 1 e Tabella 2).

Tabella 2. Frequenza della balbuzie e velocità del linguaggio dopo varie terapie "respirazione regolata e flusso d'aria" (con forse terapie aggiuntive)

		Frequency of stuttering (% stuttered syllables)				Speech rate(number of letter groups per minute)			
		<i>Baseline</i>	<i>PT*</i>	<i>FU*</i>	<t score="N /A">	<i>Baseline</i>	<i>PT*</i>	<i>FU*</i>	% <i>improvement (FU- baseline)</i>
Ladouceur 1986									
N=16	regulated breathing method & systematic desensitisation & cognitive restructuring								
m/f:12/4									
Lft: 18-37									
	- "Persons who stutter"	7.7	3.7	2.5	67	No change in respect to "persons who do not stutter"			
	- "Persons who do not stutter"	2.5	-	1.8	28				
Saint- Laurant 1987									
N=40	- Intensive regulated- breathing	9.3	4.1	5.4	42	186	204	224	20
m/f: 27/13									
Lft: 18-50	- Spaced regulated- breathing	9.2	4.7	4.7	49	163	190	212	30
	- Intensive regulated- breathing and maintenance phase	9.3	4.2	5.0	46	171	186	204	19
	- Spaced regulated- breathing and maintenance phase self-	10.8	5.4	7.0	35	153	175	178	16

	Frequency of stuttering (% stuttered syllables)				Speech rate(number of letter groups per minute)			
	Baseline	PT*	FU*	<t score="N /A">	Baseline	PT*	FU*	% improvement (FU- baseline)
recording procedure (=placebo)	9.8	8.4	-	-	145	156	-	
	Median percentage improvement: 44 (range: 35-67%)				Median percentage improvement: 19 (range: 16-30%)			

* all values were graphically interpolated

Ladoucer e Saint-Laurent (1986) hanno esaminato se l'attitudine comunicativa (utilizzando la scala Erickson degli atteggiamenti comunicativi) e la presenza di convinzioni irrazionali nelle persone che balbettano come si sono modificati con l'esposizione al trattamento basato sulla terapia respiratoria in combinazione con la desensibilizzazione e la ristrutturazione cognitiva, concludendo che non era possibile accertare alcun cambiamento significativo.

Due dei quattro studi condotti sulla terapia respiratoria senza informazioni di *follow-up* hanno evidenziato una riduzione della frequenza della balbuzie inferiore al 5% mentre i revisori non hanno segnalato le altre misure di esito.

Bothe et al (2006) ha riportato due studi relativi a adolescenti e adulti che hanno seguito altri tipi di interventi rispetto a quelli qui considerati. Öst et al. (1976) ha messo a confronto (1) training del linguaggio con il metronomo (n = 5) e (2) "shadowing" (n = 5) con un gruppo di controllo lista d'attesa (n = 5). L'età media dei partecipanti alla sperimentazione era di 25 anni (11 uomini e 4 donne). Il training del linguaggio con il metronomo ha comportato una riduzione statisticamente significativa della percentuale di "disfluenza" da 16,6 a 9,3 dopo 14 mesi di *follow-up*, in altre parole una differenza del 44%.²⁰

Il metodo "shadowing" è stato descritto con una riduzione non significativa 14% a 9,6% dopo 14 mesi di *follow-up*, o una riduzione del 33%. Per quanto riguarda il gruppo di controllo della lista d'attesa le cifre sono state: 17,2% contro 9,5%, o un calo del 45%.²²

Il training del linguaggio con il metronomo non modifica il numero di parole lette ad alta voce al minuto (108 contro 105 al follow-up); non è stata osservata alcuna modifica nel gruppo di controllo della lista d'attesa. Nel gruppo sottoposto a "shadowing", tuttavia, il numero di parole è aumentato significativamente da 75 a 90 al minuto. Lo studio Ingham & Andrews (1973) ha valutato una terapia basata sull'integrazione del DAF con un metodo di premi abbinati alla riduzione degli episodi di disfluenza; purtroppo erano

²⁰ Questo studio non ha fornito alcuna informazione sulla naturalezza della parola

²² La riduzione del 45% non era statisticamente significativa a causa della grande variazione nella risposta all'interno del gruppo di controllo della lista di attesa.

disponibili solo i risultati immediatamente dopo il trattamento e non è stata applicata alcuna analisi statistica.

I grafici non lineari hanno rivelato una riduzione della percentuale di sillabe balbettate da circa 15,5 a 11 (esperimento 1) o 8 (esperimento 2, dove la ricompensa è stata raddoppiata). Le cifre corrispondenti per il numero di gruppi di sillabe al minuto erano 80 contro 125 e 110 contro 135.

La revisione non ha indagato sulla misura in cui il genere, lo status socio-economico, il livello educativo, l'età e l'etnia potrebbero aver influenzato l'effetto della terapia. È stato prodotto un profilo di prova (Appendice 3) al fine di stabilire il grado di certezza rispetto all'*effect-size* per la terapia della balbuzie.²³ Concludendo il grado di certezza dell'*effect-size* è stato classificato come scarso a causa di importanti limitazioni nella progettazione e nell'attuazione degli studi e la considerevole eterogeneità dei risultati. Degli studi considerati in questa revisione e completi di follow up è importante sottolineare che solo in un caso il periodo di follow-up è stato maggiore di 24 mesi.

La conclusione dei revisori è che negli adulti il "*prolonged/smooth speech*" è efficace: *"per gli adulti che balbettano, molti degli articoli che hanno soddisfatto il criterio di qualità di prova di questa revisione supportano l'uso di procedure di tipo prolonged/smooth speech all'interno di un trattamento completo che comprenda il lavoro intensivo iniziale, la pratica in gruppo, attività per il trasferimento o la generalizzazione dei risultati, l'autovalutazione del linguaggio e/o la gestione autonoma delle fasi del programma, l'attenzione alla naturalezza del linguaggio e il feedback delle misurazioni naturalezza, e un programma attivo di mantenimento che continua ad affrontare non solo le disfluenze ma anche la naturalezza del discorso e le capacità di autovalutazione"*.

Questa conclusione non corrisponde completamente alla conclusione che abbiamo segnalato in precedenza: "*prolonged/smooth speech*" è potenzialmente più efficace in termini di riduzione della frequenza della balbuzie, mentre la terapia basata sulla gestione della respirazione appare più favorevole per la velocità del linguaggio anche se quest'ultimo elemento viene considerato meno importante come metodo di valutazione e misura del risultato. Probabilmente questa differenza dipende dal fatto che ci siamo concentrati su studi con un *follow-up* di almeno sei mesi e non tanto sui risultati direttamente dopo la terapia possa aver portato a un giudizio diverso da quello di Bothe et al. (2006).

Herder et al. (2006)

La revisione sistematica di Herder et al. (2006) ha effettuato una serie di analisi di RCT in cui una forma di terapia comportamentale con metodi operanti ("intervento di

²³ La certezza della dimensione dell'effetto è definita in GRADE come segue.

Elevato: è molto improbabile che ulteriori ricerche cambino la nostra fiducia nella stima dell'effetto.

Moderato: è probabile che ulteriori ricerche abbiano un impatto importante sulla nostra fiducia nella stima dell'effetto e possano cambiare la stima.

Basso: è molto probabile che ulteriori ricerche abbiano un impatto importante sulla nostra fiducia nella stima dell'effetto ed è probabile che cambino la stima.

Molto basso: siamo molto incerti sulla stima.

balbuzie comportamentale") è stata confrontata con un gruppo di controllo o una terapia diversa. L'applicazione di questa revisione sistematica è stata moderata, in particolare perché nessuno di questi studi è stato valutato in termini di qualità metodologica (Appendice 2).

Sei studi sono stati inclusi nella prima analisi in cui un gruppo sottoposto a terapia è stata confrontato con un gruppo di controllo. Alcuni studi hanno coinvolto adolescenti e adulti, mentre altri si sono concentrati sui bambini. L'*effect-size* era 0,91 (95% IC: 0,57-1,26) immediatamente dopo il trattamento; valori superiori a 0,7 sono generalmente considerati come grandi *effect-size*.²⁴ Tuttavia, vi è stata una notevole quantità di variazione delle *effect-size* nei sei studi che variano da 0 a 1,87 (Figura 1) per questo valutiamo da ridimensionare in negativo la certezza rispetto all'*effect-size*.²⁵

I revisori hanno trovato quattro studi in cui sono stati confrontati diversi tipi di terapia comportamentale negli adulti e negli adolescenti (Figura 2) ed hanno concluso sulla base di una meta-analisi che non vi era alcuna differenza nelle potenzialità tra i diversi tipi di terapia comportamentale. La dimensione dell'effetto (hedge's G) del 0,29 non indica una rilevante differenza di efficacia (Figura 1), dato che il valore di soglia abituale impiegato è 0,5²⁶. Tuttavia, il risultato della meta-analisi su cui si fonda questa conclusione è incerto, dato il fatto che il valore limite massimo dell'intervallo di confidenza (0,76) si trova al di sopra del valore di soglia 0,5. La certezza rispetto all'*effect size* può essere classificata come scarsa²⁷.

²⁴ Holger J Schünemann, Andrew D Oxman, Gunn E Vist, Julian PT Higgins, Jonathan J Deeks, Paul Glasziou e Gordon H Guyatt per conto del gruppo Cochrane Applicability and Recommendations Methods (2008). Capitolo 12 , Interpretazione dei risultati e conclusioni. Pubblicato da John Wiley & Sons, Ltd sotto "The Cochrane Book Series".

²⁵ Valutazione con GRADE.

Rischio di bias: non valutato;

Indirectness: ridotta di -1 poiché i bambini e gli adulti non sono stati analizzati separatamente;

Imprecisione: nessuna evidenza da giustificare una riduzione (il limite inferiore dell'intervallo di confidenza è > 0,5); *Incoerenza*: ridotta di -1. Sebbene il valore p per il test di eterogeneità non fosse significativo (p = 0,13), l'I² era 41,07 e le stime puntuali variavano considerevolmente.

Publication Bias: nessuna prova per garantire una riduzione.

²⁶ Il valore 0.5 deve essere letto come metà della deviazione standard. In altre parole, se il risultato di due interventi differisce di oltre la metà di una deviazione standard, questa differenza sarà, in linea di principio, classificata come differenza (clinica) rilevante.

²⁷ 20 Valutazione con GRADE.

Rischio di bias : non valutato;

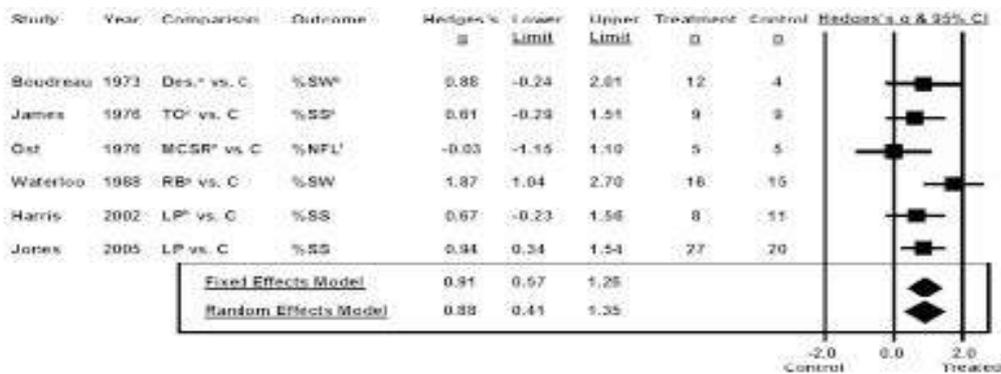
Indirectness: nessuna prova per garantire la riduzione del valore;

Imprecisione: ridotta di -1 poiché 0,5 rientra nell'intervallo di confidenza (-0,18; 0,76);

Incoerenza: ridotta di -1. Sebbene il valore p per il test di eterogeneità non fosse significativo, le stime puntuali (-0.01 ; 0.68; 0.22; 0.30) differivano considerevolmente;

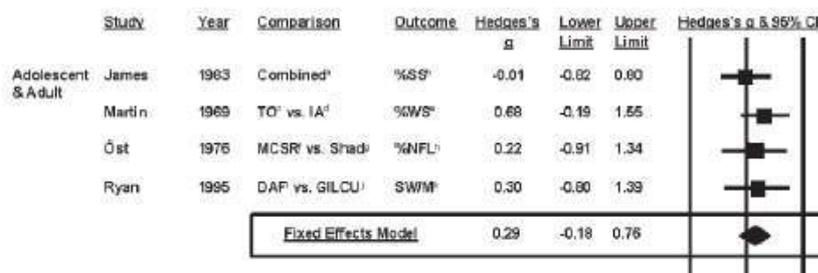
Publication Bias: nessuna prova per garantire una riduzione.

Figura 1. Studi in cui l'efficacia di diverse terapie comportamentali per bambini, adolescenti e adulti è stata confrontata con un gruppo di controllo in RCTs



Fonte: Herder et al (2006)

Figura 2. Studi in cui l'efficacia di diverse terapie comportamentali per adolescenti e adulti è stata confrontata con un gruppo di controllo in RCTs



Heterogeneity statistics for a fixed model: $Q=4.38$, $df=6$, $p=.63$, $I^2=0.00$

^a Experimenter-Administered Time-Out, Self-Initiated Time-Out, and Experimenter-Administered Self-Terminated Time-Out; ^b Percent Stuttered Syllables; ^c Time Out from Speaking; ^d Information-Attitude; ^e Percent Words Stuttered; ^f Metronome-Conditioned Speech Retraining; ^g Shadowing; ^h Percent Non-Fluency; ⁱ Delayed Auditory Feedback; ^j Gradual Increase in Length and Complexity of Utterance; ^k Stuttered Words per Minute; ^l Lidcombe Program; ^m Demands and Capacities Model; ⁿ Lidcombe Program with and without Parental Verbal Contingencies for Stuttering and Stuttering Severity Ratings; ^o Speech Motor Training; ^p Extended Length of Utterance

Source: Herder et al. (2006)

Fonte: Herder et al (2006)

Bate et al. (2011) and Woodman & Moore (2011)

L'obiettivo della revisione di Bate et al. (2011) era quello di indagare l'influenza delle cosiddette terapie di "inversione di abitudine" (*habit reversal*) per TIC, *habit disorders* e balbuzie. In questa recensione sono stati inclusi due studi relativi alla terapia della balbuzie negli adulti. Entrambi gli studi hanno coinvolto una valutazione dell'efficacia della terapia basata sul controllo della respirazione e sono stati inclusi nella revisione di Bothe et al. (2006). L'obiettivo della revisione Woodman & Moore (2011) è stata una valutazione sistematica della letteratura scientifica riguardante l'efficacia e la sicurezza dell'applicazione della tecnica *Alexander* per condizioni correlate alla salute. I revisori hanno reperito la tecnica Alexander nel campo della "medicina complementare e approcci alternativi". Hanno riferito un singolo studio che ha valutato l'applicazione della

tecnica Alexander in 30 sessioni di terapia individuale con due partecipanti alla sperimentazione. Otto delle 17 unità di misura degli effetti dal punto di vista fisico e psicologico non convalidati hanno dimostrato un miglioramento non quantificato e statisticamente significativo ($p < 0.01$ e $p < 0.05$).

I ricercatori riferiscono "prove preliminari suggeriscono un miglioramento nella balbuzie, ma queste prove sono insufficienti per sostenere l'inserimento nelle raccomandazioni in questo settore".

7.3.2 Studi individuali (internazionali) sull'efficacia degli interventi cognitivi e/o comportamentali successivi alla pubblicazione delle revisioni sistematiche.

Carey et al. (2010) ha effettuato un RCT ($n = 40$, di cui 17,5% femminile) in un ambiente universitario in cui una versione telematica (*tele-health*) del *programma Camperdown* – un programma per la ristrutturazione del linguaggio con un focus sulla respirazione, la fonazione e l'articolazione - è stato confrontato con la versione classica dello stesso programma²⁸. I ricercatori hanno utilizzato i seguenti criteri di esclusione: minori di 18 anni, una frequenza di balbuzie inferiore al 2%, conoscenza insufficiente dell'inglese e trattamento per la balbuzie ricevuto nei 12 mesi precedenti. Il programma ha quattro componenti: sessioni di apprendimento individuali, un giorno di gruppo per la pratica, sessioni individuali di problem-solving e mantenimento delle tecniche per il controllo della fluenza apprese. La versione *tele-health* è stata adattata come segue: l'intero trattamento è stato effettuato per telefono; il prolonged speech e la naturalezza del discorso sono stati insegnati attraverso registrazioni inviate ai partecipanti allo studio; una specifica linea di segreteria telefonica poteva essere utilizzata per registrare i campioni vocali, per richiedere supporto e per dare feed-back.

Le misure primarie di *outcome* sono state la percentuale di balbuzie e il tempo trascorso con il SLT. Le secondarie sono state la naturalezza del linguaggio (valutata con uno strumento standardizzato), la gravità della balbuzie auto-valutata (utilizzando una scala a 9 punti) e la soddisfazione rispetto al trattamento²⁹; il *follow-up* è stato dopo 12 mesi. Questo è stato uno studio ben implementato con un basso rischio di *bias* (vedere Appendice B). Il grado di certezza rispetto all'*effect size* è limitato³⁰.

²⁸ Non sono stati trovati studi RCT in cui il modulo standard del Programma Camperdown fosse stato esaminato come tale in termini di efficacia.

²⁹ La percentuale di balbuzie era determinata da un logopedista indipendente che utilizzava una registrazione audio di 10 minuti di una conversazione telefonica della persona che balbettava con altri tre; due estranei e il terapeuta.

³⁰ Valutazione con GRADE. Per entrambi i risultati:

Rischio di bias: nessuna evidenza per garantire una riduzione;

Indirectness: nessuna prova per garantire una riduzione;

Imprecisione (-1): gli intervalli di confidenza per queste due misure di outcome erano assenti, quindi il livello di accuratezza era difficile da determinare; *Incoerenza*: non applicabile;

Publication Bias (-1): è stato intrapreso un RCT di fase 3 per valutare l'efficacia della versione standard del Programma Camperdown. Per esempio, O'Brian et al. (2003) hanno scritto: "La promessa di questo

Per quanto riguarda la percentuale di balbuzie tra i due gruppi non è stata trovata nessuna differenza significativa ($p = 0,9$) sia immediatamente dopo il trattamento, sia durante il *follow-up* di 6 o 12 mesi.

La percentuale media di balbuzie è stata di 2,4 (immediatamente dopo il trattamento), 2,8 (6 mesi dopo il trattamento) e 2,6 (12 mesi dopo il trattamento). La percentuale di balbuzie è stata stimata a 7 nel gruppo del *tele-health* all'inizio della terapia, e approssimativamente 5,4 nel gruppo di terapia regolare. Questa differenza è stata corretta nell'analisi e la riduzione della percentuale di balbuzie era quindi approssimativamente del 60%. La severità di balbuzie con auto-valutazione (1 = non balbettare, 9 = molto grave) è stata ridotta nel gruppo *tele-health* da 3,9 a 2,3 dopo 9 mesi, e dal 3,8 al 2,4 nel gruppo sottoposto a terapia regolare, una riduzione del 40%. Gli autori non hanno riportato dati relativi alla naturalezza, anche se hanno solo fatto notare che non c'era differenza tra i due gruppi. La versione *tele-health* è stata descritta molto spesso come "particolarmente appropriata" ($p = 0.018$). La tabella seguente fornisce una panoramica dell'effetto di varie variabili sul tempo trascorso con il *Fluency specialist*.

Tabella 3. Differenza di tempo di contatto (minuti) con uno specialista di influenza tra i gruppi di trattamento corretti per tutte le altre variabili

Variabili	Stima	Intervallo di confidenza 95%
Versione tele-health	-221	-387; -56
Donne	227	0; 453
Partecipanti più anziani	-15	-25; -4
SS prima del trattamento	213	41; 384
Trattamento precedente	361	171; 551
Storia Familiare	17	-152; 185

Cream et al (2010) ha effettuato un RCT multicentrico in un ambiente universitario con 89 adolescenti e adulti che balbettano (m:f = 4:1; età media: 27 anni) sottoposti a training di ristrutturazione del linguaggio con mantenimento standard messo a confronto con lo stesso intervento integrato con self-modelling attraverso video. Il self-modelling attraverso un video è stato definito dai ricercatori come segue: "un intervento comportamentale durante il quale le persone visualizzano immagini video di sé stessi senza un comportamento caratterizzato da disfluenze .

Sono stati utilizzati i seguenti criteri di esclusione: meno di 2 sulla percentuale di balbuzie; non sufficiente conoscenza dell'inglese; balbuzie insorta dopo l'età di 12 anni; balbuzie derivante da un disturbo psicologico; trattamento nei 6 mesi precedenti. Tre centri hanno applicato il "*Smooth Program di La Trobe*" e tre centri una versione modificata del programma Camperdown. Secondo i ricercatori entrambi i programmi

studio clinico di Fase 2 ha portato gli autori ad avviare uno studio controllato randomizzato di Fase 3 del Programma Camperdown". Tuttavia, non è stata trovata alcuna pubblicazione, quindi potrebbe esserci un elemento di bias di pubblicazione.

avevano precedentemente mostrato gli stessi risultati; *l'outcome primario* è stato identificato nella percentuale di balbuzie.³¹

Ci sono state 5 misure di *outcome* secondario: ansia auto-valutata, auto-valutazione della gravità della balbuzie, comportamenti di evitamento verbale, qualità della vita e la soddisfazione con eloquio fluente. Il *follow-up* è stato a 6 mesi (calcolati dal punto di randomizzazione). Questo riguardava uno studio ben condotto con un rischio di *bias* basso o moderato (Vedi appendice B), anche se la conformità (hanno guardato il video ogni giorno) era solo 50%, mentre quasi 40% non ha fornito alcuna informazione sulla frequenza di visualizzazione del video per il self-modelling. In termini di differenza nella percentuale di balbuzie il video per self-modelling non ha aggiunto nulla: alla fine del periodo di follow-up la differenza nella percentuale di balbuzie era 0,06 (95% CI: - 1,3 a + 1,4 percentuale di balbuzie).

Per le misure di *outcome* secondario si è osservata una differenza statisticamente significativa su alcuni, ma non su altri, e quindi non è chiaro se si tratta di differenze clinicamente rilevanti. Rispetto alla effect-size c'è un grado di certezza alto per la percentuale di risultati della balbuzie e un grado di certezza scarso per le misure di *outcome* secondari.³²

Nello studio di Lincoln e colleghi (2010) è stato indagato in 11 adulti (età: 21-65 anni; m:f = 7:4) se quattro diverse combinazioni di feedback uditivo – (minimo/massimo) feedback uditivo ritardato (DAF), (minimo/massimo) feedback alterato in frequenza (FAF) e mascheramento feedback uditivo (MAF) – hanno un effetto diverso durante la conversazione sulla percentuale di sillabe balbettate rispetto al normale feedback uditivo³³. Lo studio presenta un grande limite costituito da una scarsa chiarezza sulla misura in cui le combinazioni che sono state valutate influenzano i risultati. I risultati di questo studio sono stati sintetizzati nella tabella 4 e non vi sono rilevate differenze statisticamente significative tra la condizione di controllo e le altre condizioni come dimostrato dagli intervalli di confidenza molto ampi. Questo può eventualmente essere ricondotto a una grande quantità di variazione inter-individuale da un lato e una piccola dimensione del campione dall'altro. La certezza rispetto all'*effect-size* è limitata³⁴.

³¹ La percentuale è stata determinata utilizzando due registrazioni audio di 10 minuti di conversazioni telefoniche con assistenti di ricerca sconosciuti che hanno registrato le conversazioni

³² Valutazione con GRADE. Non c'era evidenza per la percentuale di risultato della balbuzie per ridurre uno dei fattori GRADE. Tuttavia questo non era il caso per le altre misure di outcome:

Rischio di bias: nessuna evidenza per giustificare una riduzione;

Indirectness: nessuna prova per garantire una riduzione; *Imprecisione*: nessuna prova per garantire una riduzione; *Incoerenza (-2)*: nessuna coerenza per la qualità della vita e altre misure di outcome;

Publication Bias: nessuna prova per garantire una riduzione

³³ La percentuale di balbuzie è stata determinata utilizzando registrazioni video da un logopedista esperto nella valutazione della balbuzie e inconsapevole dello scopo dello studio e delle circostanze in cui si svolgevano le conversazioni. Per fare ciò, ha guardato i DVD con dei campioni di parlato e ha segnato la percentuale di balbuzie in tempo reale con l'aiuto di uno strumento per appiglio.

³⁴ *Rischio di bias*: (-1): implementazione dello studio non del tutto chiara (vedi testo);

Indirectness: nessuna prova per garantire una riduzione; *Imprecisione (-1)*: intervalli di confidenza molto ampi; *Incoerenza*: nessuna prova per garantire una riduzione;

Publication Bias: nessuna prova per garantire una riduzione

I ricercatori hanno concluso che: "le diverse risposte dei partecipanti alle diverse impostazioni di feedback uditivo alterato (AAF) probabilmente rappresentavano l'impossibilità di trovare differenze di gruppo tra le condizioni impostate nello studio. Questi risultati suggeriscono che gli studi che utilizzano le impostazioni standard DAF e FAF per tutti i partecipanti sono suscettibili di sottovalutare qualsiasi effetto AAF. Non è ancora possibile prevedere chi beneficerà dei dispositivi AAF nelle situazioni quotidiane e la portata di tali benefici".

Tabella 4. Differenza percentuale nella percentuale di balbuzie di varie combinazioni di feedback uditivo alterato con feedback uditivo normale.

Condizioni/combinazioni	Differenze della % di balbuzie	Intervallo di confidenza 95%
1. Controllo (NAF)	--	
2. MIN FAF + MIN DAF	-27	-65; 53
3. MAX FAF + MAX DAF	-49	-76; 8
4. MAX FAF + MIN DAF	-31	-67; 44
5. MIN FAF + MAX DAF	-39	-71; 28
6. MAX FAF + MAX DAF (lettura)	-62	-90; 40
7. Rumore bianco (MAF)	-51	-77; 3
8. Controllo lettura (NAF)	--	

Hewat et al (2006) ha esaminato in 22 adolescenti e adulti se la terapia comportamentale basata sull'apprendimento di fermarsi dopo un momento di disfluenza (time-out autoimposto) è efficace. Hanno utilizzato i seguenti criteri di inclusione per questo: età inferiore a 14, capacità di utilizzo dell'inglese sufficiente, nessuna terapia nei 12 mesi precedenti.

Questo studio è stato organizzato sulla base anche dei seguenti principi: "(...) a differenza del *prolonged speech*, che deve essere usato continuamente per evitare le disfluenze, il *timeout* viene applicato solo in momenti di balbuzie. Di conseguenza, è probabile che abbia un impatto sociale minore rispetto ad impostare ed usare un nuovo modello di linguaggio (...); il *Timeout* sembra essere un mezzo flessibile per controllare la balbuzie perché alla sua efficacia non è collegato né la durata del periodo di *timeout* né la coerenza dell'applicazione dello stimolo (...). Il *timeout* sembrerebbe essere in grado di produrre riduzioni clinicamente significative delle disfluenze in molte meno ore di trattamento rispetto al *prolonged speech*". Come ultimo punto, i ricercatori hanno dovuto stabilire sulla base dei loro risultati che il discorso di ristrutturazione del linguaggio fornisce una risposta clinica più prevedibile (sicura) ed è associato a una riduzione più forte della percentuale di sillabe balbettate rispetto all'approccio di *timeout*. Inoltre, secondo Hewit et al. (2006) era anche necessario "per identificare i clienti che hanno più probabilità di rispondere al programma"³⁵.

³⁵ Questo studio era di natura non comparativa e può pertanto essere caratterizzato solo come evidenza che fornisce un grado limitato di forza della raccomandazione rispetto alla dimensione dell'effetto. Un progetto comparativo era, in linea di principio, facilmente realizzabile. In quel disegno un gruppo di controllo avrebbe potuto seguire una terapia comportamentale basata sulla ristrutturazione del

Menzies et al (2008) ha impiegato un RCT (N = 32; 2 dropouts; m:f = 25:5; Età: 18-66) per indagare se la terapia cognitiva comportamentale (CBT) più la terapia balbuzie (ristrutturazione del linguaggio) potrebbe ridurre l'ansia sociale e balbuzie più della terapia della balbuzie (ristrutturazione del linguaggio/*speech restructuring*). I criteri di esclusione sono stati: trattamento con terapia del cognitivo comportamentale nei precedenti 6 mesi o con terapia del linguaggio nei 12 mesi precedenti; livello di inglese non adeguato; disturbo di apprendimento; ideazione suicidaria transitoria; l'uso corrente di benzodiazepine; non disposto a mantenere una dose stabile di farmaci psicotropi durante lo studio. Il programma CBT consisteva di 10 sedute settimanali di trattamento individuale per un totale di 15 ore, ed era quindi specificamente finalizzata a ridurre l'ansia legata al parlare. Questo programma è stato presentato prima della terapia per la balbuzie per il gruppo sperimentale, mentre il gruppo di controllo non ha ricevuto un intervento in quel periodo. La durata di *follow-up* è stata di 12 mesi.

All'inizio dello studio, 67% del gruppo sperimentale e 53% del controllo ha avuto una diagnosi di fobia sociale. Dopo 12 mesi non c'era nessuno nel gruppo sperimentale con questa diagnosi clinica e la diagnosi era stata fatta da uno psicologo che non era a conoscenza di quale gruppo di studio erano stati assegnati i partecipanti. La percentuale di individui con una fobia sociale nel gruppo di controllo è rimasta invariata. I risultati sono stati leggermente sotto il significato statistico a causa della piccola dimensione del campione di studio (test esatto di Fisher, $p = 0,0055$, odds ratio 2,0, [95% CI: 0,9 – 4,5]).

Il programma CBT sembrava avere un effetto sostanziale e positivo sul funzionamento generale, misurato dalla valutazione globale della scala di funzionamento (scala GAF con punteggi tra 0 e 100). Dopo aver seguito il programma CBT, il punteggio della scala GAF era di 21 punti (95% CI: 12,6-32,7) più alto nel gruppo di controllo. Ciò significa che coloro che avevano seguito il programma CBT sono stati in grado di svolgere più attività quotidiane con meno difficoltà psichiatriche cioè meno ansia e meno comportamenti di evitamento. Seguendo il programma CBT probabilmente c'è anche stato un coinvolgimento di più attività in alto nella "gerarchia dell'ansia": 33% ($p < 0,005$) più che nel gruppo di controllo. I punteggi sullo UTBAS hanno anche dimostrato un calo significativo in vari punti temporali, tuttavia alla fine del follow-up questi non erano più significativi. All'inizio dello studio, la percentuale di balbuzie nel gruppo di controllo era di circa 8,5 e stimata a 7 nel gruppo sperimentale³⁶.

Direttamente dopo il trattamento, la riduzione della percentuale di balbuzie è stata rispettivamente del 35% e del 70% nel gruppo sperimentale e di controllo, nella misura in cui queste persone coinvolte hanno una diagnosi di fobia sociale. Dopo 12 mesi queste percentuali sono state rispettivamente del 56% e del 88% nel gruppo

linguaggio e il gruppo sperimentale avrebbe potuto seguire la terapia comportamentale in base al time-out.

³⁶ La percentuale di balbuzie è stata determinata utilizzando due registrazioni di conversazioni di 10 minuti con personale amministrativo o studenti della clinica. Ciò è stato realizzato da un logopedista esperto nella valutazione della balbuzie, ma non a conoscenza dello scopo dello studio.

sperimentale e di controllo, con altrimenti nessuna rilevanza statistica. La certezza rispetto all'*effect-size* è stata limitata per le misure di risultato "UTBAS" e fobia sociale, e moderata per "funzionamento"³⁷.

Iverach et al (2009) ha esaminato se la presenza di disturbi psichiatrici nelle persone che balbettano contribuisce all'incapacità di mantenere un linguaggio fluente dopo il trattamento. Hanno reclutato 64 adulti (m:f = 4:1, età media: 32 anni) per uno studio che ha valutato l'effetto di self-modelling sul mantenimento dei benefici della ristrutturazione del linguaggio. La percentuale media di sillabe balbettate all'inizio del trattamento era di 8,3, il CIDI-auto-2,1 (Computerised Version of the Composite International Diagnostic Interview) – un colloquio tramite computer standardizzato che ha dimostrato di essere affidabile e valido per la ricerca scientifica-è stato utilizzato per determinare i problemi psichiatrici. In aggiunta a questo il IPDEQ (*International Personality Disorder Examination Questionnaire*) è stato utilizzato per l'identificazione di nove disturbi della personalità (paranoica, schizoide, antisociale, impulsivo, borderline, istrionica, ossessivo-compulsivo, ansia disturbo della personalità dipendente).

I ricercatori hanno studiato alcune variabili (un disturbo di personalità, un disturbo d'ansia, un disturbo dell'umore, la presenza di 1-2 disturbi psichiatrici, più di 3 disturbi psichiatrici) a tre tempi (prima del trattamento, immediatamente dopo il trattamento, e 6 mesi dopo il trattamento) per osservare se c'è stata una differenza nella percentuale di sillabe balbettate, l'auto-valutazione della balbuzie e l'autovalutazione dei comportamenti di evitamento.³⁸ Ciò ha comportato l'esecuzione di un test statistico $5 * 3 = 15$ volte per risultato misurato, che ha aumentato il rischio di un accertamento di possibilità. L'approccio più ovvio, vista la domanda di ricerca dello studio, sarebbe stato quello di analizzare se, per esempio, la differenza nella percentuale di sillabe balbettate era la stessa o diversa dopo 6 mesi di follow-up per coloro che non avevano un disturbo della personalità. In entrambi i casi, i ricercatori non hanno trovato una differenza statisticamente significativa nel principale. Per la misura del risultato della gravità di balbuzie auto-valutata non c'era alcun risultato statisticamente significativo per nessuna delle variabili. Per la misura del comportamento di evitamento auto-valutato, ci sono stati due risultati statisticamente significativi dopo 6 mesi: quelli con un disturbo d'ansia hanno dimostrato un maggiore comportamento di evitamento rispetto a

³⁷ Valutazione con GRADE.

Rischio di bias: moderato (-1);

Indirectness: nessuna prova per garantire una riduzione;

Imprecisione: ridurre di -1 poiché la dimensione dell'effetto era altamente incerta per le misure di outcome UTBAS e fobia sociale;

Incoerenza: n.a. ;

Publication Bias: nessuna prova per garantire una riduzione

³⁸ La percentuale di balbuzie è stata determinata da un logopedista indipendente che utilizza due conversazioni telefoniche registrate su un registratore. La prima conversazione è stata una discussione di routine della durata di 10 minuti. La seconda era una conversazione "a sorpresa" con un assistente di ricerca.

quelli senza disturbo d'ansia la stessa cosa vale per quelli con più di tre disturbi psichiatrici³⁹.

7.3.3 Studi sull'efficacia degli interventi cognitivi e comportamentali applicati nei Paesi Bassi negli ultimi anni

Nel 2004, Huinck e Peters hanno pubblicato i risultati di uno studio longitudinale (esplorativo) di tre terapie della balbuzie: il "*Comprehensive Stuttering Programme (CSP)*", il "*Doetinchemse Method (DM)*", e la "*Individual Stutter Therapy (IS)*". Secondo i ricercatori "il CSP si concentra in particolare sull'influenzare il comportamento del linguaggio attraverso l'apprendimento di nuove tecniche di utilizzo del linguaggio (respirazione controllata, attacco dolce e graduale e articolazione ritardata). Inoltre, l'attenzione è anche rivolta agli aspetti emotivi e cognitivi della balbuzie. In contrasto con questo, DM si concentra principalmente sugli aspetti esperienziali di balbuzie agevolando l'apprendimento di un modo più rilassato di parlare con esercizi di regolazione respiratoria. DM, quindi, dedica più tempo alle emozioni e alle cognizioni, mentre il CSP si concentra più sul "cambiamento del modello del linguaggio". Entrambe le terapie sono offerte come terapie di gruppo in cui la durata e il protocollo per la terapia sono fissi. In contrasto con le precedenti terapie, IS è focalizzato individualmente dove il "programma di terapia è concentrato sui singoli problemi legati alla balbuzie e quindi l'enfasi può essere posta più sul cambiamento nel comportamento del linguaggio o l'esperienza della balbuzie vissuta liberamente".

La Tabella 5 mostra una serie di caratteristiche della terapia e dei partecipanti allo studio. Due aspetti sono rilevanti in questo studio: il numero di partecipanti alle varie terapie è limitato e ci sono notevoli differenze tra i partecipanti allo studio in proporzione alla durata della terapia, che può avere avuto un effetto sui risultati nello studio Huinck & Peters. I tempi di valutazione sono stati scelti al fine di valutare l'efficacia delle terapie: immediatamente dopo la terapia, dopo 1 anno di *follow-up* e di *follow-up* di 2 anni. La valutazione di *follow-up* di due anni è un punto di forza per questo studio perché permette di valutarlo e per questo sono stati utilizzati strumenti standardizzati per valutare le misure di *outcome* (percentuale di balbuzie e velocità del linguaggio, la qualità del linguaggio, il sistema meccanismi vocali; emotivi, sociali e cognitivi associati al discorso). Sulla base della seconda valutazione di *follow-up*, la percentuale di *dropouts* è stata rispettivamente di 3,8, 6,7 e 48 per CSM, DM e IS. La grande percentuale di *dropouts*, in particolare nel gruppo IS, mina l'affidabilità dei risultati dello studio.

³⁹ Il grado di certezza relativo all'effect size è limitato. L'analisi statistica era al di sotto dello studio. Pertanto il rischio di parzialità è stato ridotto di -2.

Tabella 5. Una serie di caratteristiche della terapia e dei partecipanti allo studio secondo Huinck & Peters (2004)

	CSP	DM	IS
Numero di partecipanti allo studio	26	15	25*
Numero di ore di terapia per persona	25.2	28. 6	20. 8
% di tempo utilizzato per il comportamento verbale	73.3	36. 1	32. 9
% di tempo utilizzato per aspetti emotivi e cognitivi	26.7	64. 9	67. 1
Ripartizione percentuale per livello di istruzione:			
-formazione professionale inferiore e media	32	80	60
- istruzione superiore secondaria generale	12	7	0
-laurea	56	13	40

*10 partecipanti hanno lasciato il trattamento in fase di terapia

Tabella 6. Vari risultati per le tre diverse terapie secondo Huinck & Peters (2004)

	CS P	DM	IS
Percentuale di balbuzie iniziale	13. 2	8.6	10.2
Percentuale di balbuzie dopo 1 anno	8.0	6.2	6.1
Percentuale di balbuzie dopo due anni	6.9	6.1	6.1
Percentuale di miglioramento della % di balbuzie (3 w.r.t. 1)*	91	41	67
SPM iniziale	126	138 .2	135. 0
SPM dopo 1 anno	147 .8	153 .3	158. 6
SPM dopo 2 anni	154 .0	150 .0	162. 0
Percentuale di miglioramento SPM (3 w.r.t. 1)*	18	8	17
Auto-valutazione iniziale	4.7 9	5.1 8	4.88
Auto-valutazione	6.3 9	7.1 8	6.50
Auto-valutazione	6.5 1	7.1 8	5.92
Percentuale di miglioramento dell'auto-valutazione (3 w.r.t. 1)*	26	28	18
Speech motor system - sequence /p t k/ DDK iniziale	13. 19	14. 92	13.5 8
Dopo 1 anno	16. 75	16. 79	15.0 0
Dopo 2 anni	15. 77	16. 46	15.7 1
Percentuale di miglioramento (3 w.r.t. 1)*	16	9	14

*calcolato con HdB

La tabella 6 mostra le misure di *outcome* delle diverse terapie della balbuzie. L'accuratezza non adeguata è giustificata dal numero limitato di partecipanti allo studio. Ancora una volta sembra che il CSP è il più efficace delle tre terapie. La IS sembra

essere più efficace del "*Doetinchemse Method*" per la maggior parte delle misure di *outcome* (tabella 6). L'esperienza di sé è stata una misura di esito importante, un termine usato da Huinck & Peters (2004) per indicare i fattori sociali, emotivi e cognitivi collegati al linguaggio. L'esperienza di sé è stata misurata utilizzando i seguenti strumenti:

- *Perceptions of Stuttering Inventory* (blocchi, evitamento, aspettative)
- *Speech Situation List* di Brutten (reazione emotiva, disordini del linguaggio)
- Questionario di comunicazione di Erikson (S44, S24)
- Questionario sulla severità della balbuzie di Lanyon
- *Inventory List Concerning dealing with others - Tension* (fare critiche, richiedere attenzione, discutere dei tuoi valori, prendere l'iniziativa nella conversazione, valorizzare se stesso e il valore "Totale")
- *Inventory List Concerning dealing with others - Frequency* (fare critiche, richiedere attenzione, discutere dei tuoi valori, prendere l'iniziativa nella conversazione, valorizzare se stesso e il valore "Totale")
- *Performance Motivation test* (motivazione delle prestazioni, ansia da fallimento negativo, ansia da fallimento positivo)

Huinck & Peters (2004) hanno rappresentato le misure di *outcome* della *self-experience* come differenze assolute tra la valutazione *baseline* e quella successiva (compreso il *follow-up*). Dato che le differenze nelle valutazioni *baseline* tra le terapie potrebbero (e vorrebbero) portare ad *outcome* diversi, sarebbe stato meglio includere un miglioramento percentuale al fine di determinare l'efficacia relativa del tipo di trattamento. Se iniziamo esaminando il grado di differenza statistica tra la seconda valutazione di *follow-up* e la valutazione *baseline* delle 23 differenze valutate, 16, 9 e 7 sono statisticamente significativi rispettivamente per CSP, DM e IS. Il CSP sembra anche essere più efficace qui rispetto agli altri trattamenti anche se, bisognerebbe tuttavia notare che il gruppo CSP aveva il maggior numero di partecipanti, il che significa che la significatività statistica era *in ogni caso* più facilmente realizzabile.

Lo studio di Huinck & Peters (2004) ha fornito una rappresentazione grafica per i risultati delle misure di *outcome* della qualità del linguaggio (fonazione, articolazione, pitch, sonorità e naturalezza del discorso). La scala utilizzata suggerisce che è impossibile interpolare graficamente i risultati. Il grado di rilevanza statistica è illustrato nella tabella 7 e in particolare CSP sembra essere meno efficace qui rispetto a gli altri trattamenti.

Tabella 7. Effetti di tre trattamenti sulla qualità del linguaggio secondo Huinck & Peters (2004)

Rilevanza statistica della differenza tra la prima e l'ultima valutazione di <i>follow-up</i> in relazione al tipo di trattamento			
	CSP	DM	IS
Dinamica vocale	n.s.*	P=0.001	P=0.001
Qualità dell'articolazione	p<0.05	n.s.*	n.s.*
Capacità del linguaggio	n.s.	P=0.001	P=0.001

*: non significativo

Il grado di certezza rispetto all'*effect size* indagato nello studio Huinck & Peters (2004) è limitato, in particolare a causa del piccolo numero di partecipanti allo studio, il che significa che i risultati non sono molto precisi, che sono difficili da valutare in termini di presenza/assenza di rilevanza clinica. La seconda limitazione di cui sopra è l'alta percentuale di *dropouts* nel gruppo IS⁴⁰.

La tesi di Huinck (2006) esamina la questione se il grado di gravità della balbuzie e la gravità delle emozioni negative e delle cognizioni siano associati ai diversi *outcome*. Le sue conclusioni sono che non vi è alcuna relazione tra le emozioni negative e le cognizioni e che i partecipanti con il grado di balbuzie più severa hanno riportato anche maggiori benefici dalla terapia, senza tralasciare il fatto che hanno ugualmente dimostrato un più grande grado di recidiva nel corso del *follow up* a due anni. Inoltre, lei è del parere che le differenze iniziali tra i sottogruppi con lievi e gravi emozioni negative tendano a scomparire dopo il trattamento, "principalmente a seguito di una significativa riduzione delle emozioni negative e delle cognizioni nel sottogruppo con gravi emozioni negative/cognizioni". Huinck (2006) ha condotto questa analisi solo sul gruppo CSP, e quindi non sappiamo se i risultati ottenuti si applichino anche per gli altri due tipi di trattamenti.

Conclusioni

<p>Certezza rispetto all'effect-size:</p> <p>limitata per tutte le misure di outcome rilevanti</p>	<p>Vari trattamenti della balbuzie, che vanno dalla <i>Breathing therapy</i>, alla <i>Response contingent reinforcement</i> (che incorpora il <i>fluency shaping</i>), al <i>Comprehensive Stuttering Programme</i> (CSP), al <i>Doetinchemse Method</i> (DM), alla <i>Individual Stutter della Therapy</i> (IS), hanno avuto effetti positivi sulla frequenza della balbuzie subito dopo il trattamento, sebbene la grandezza degli effetti sia molto variabile. Dove erano disponibili informazioni sul follow-up per almeno sei mesi dopo la fine della terapia, alcuni studi hanno mostrato che si sono mantenuti effetti positivi, mentre altri hanno mostrato la presenza di (alcune) recidive.</p>
------------------------------------------------------------------------------------------------------------------	-----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------

⁴⁰ *Rischio di bias*: moderato (-1);

Indirectness: nessuna prova per garantire una riduzione;

Imprecisione: ridotta di -1 poiché la dimensione dell'effetto era altamente incerta;

Incoerenza: n.a. ;

Publication Bias: nessuna prova per garantire una riduzione.

Gli studi che hanno investigato il *Delayed Auditory Feedback* (DAF - Lincoln et al., 2010, Ingham e Andrews, 1973) non hanno mostrato una differenza significativa dal punto di vista statistico nella percentuale della balbuzie tra i gruppi sperimentali e di controllo; inoltre, non è stato effettuato un follow-up.

Ci sono prove insufficienti per poter applicare la tecnica *Alexander* nel contesto della terapia per la balbuzie. Aggiungere video di self-modelling o self-imposed time-out come terapie sembra essere meno efficace rispetto ad una terapia basata sulla ristrutturazione dello *speech*.

L'aggiunta della *Cognitive Behaviour Therapy* alla terapia che mira alla ristrutturazione dello *speech* non sembra avere nessun valore aggiunto nel ridurre la frequenza della balbuzie ma, tuttavia, porta ad una riduzione dell'ansia, di comportamenti di evitamento e dei pensieri e delle credenze problematiche relative alla balbuzie.

Sia la versione *tele-health* che quella standard del *Camperdown Program* forniscono circa il 60% di riduzione percentuale della balbuzie dopo 12 mesi di follow-up e circa il 40% di riduzione della gravità della balbuzie auto-valutata. Entrambi i programmi, che si basano sulla ristrutturazione del parlato attraverso tecniche che lavorano sulla respirazione, sulla fonazione e sull'articolazione, hanno mostrato di possedere sostanzialmente la medesima efficacia. Tuttavia, il *Camperdown program* non è stato paragonato ad altre terapie per il trattamento della balbuzie in un RCT.

La certezza rispetto all'*effect size* della misura di outcome relativa alla frequenza della balbuzie è da ritenersi *limitata*: questo può parzialmente essere spiegato dal fatto che questa terapia viene spesso impiegata in studi con pochi partecipanti, il che porta ad ottenere risultati meno accurati. Anche la grande variazione nei tipi di terapia e modelli di studio messe in atto gioca il suo ruolo, in quanto i risultati individuali degli studi sono difficili da combinare; il che implica che non si possano ottenere stime più accurate.

Le misure di *outcome*, fatta eccezione per la frequenza della balbuzie, quali comportamenti di evitamento, naturalezza del parlato, partecipazione e qualità della vita, non sono state spesso oggetto di investigazione. Inoltre, anche quanto sono state riportate, i dettagli riguardanti tali outcome non sono

	<p>stati sufficienti per poter emettere un giudizio sul grado di certezza rispetto al loro <i>effect-size</i>.</p> <p>Poca ricerca è stata condotta fino ad ora rispetto alle variabili (co-morbidità, status socio-economico, livello di istruzione, ecc.) che influenzano l'efficacia degli interventi: questo implica che l'abbinamento <i>paziente-trattamento individualizzato</i> è ancora poco concreta.</p> <p>Vi sono infatti delle evidenze scientifiche che suggeriscono che la compresenza di molteplici disordini di tipo psichiatrico (ansia, disordini della personalità, disordini dell'umore) possano limitare l'efficacia della terapia rispetto a uno o più outcome.</p> <p>Gli studi delle terapie per la balbuzie utilizzate nei Paesi Bassi e valutate da Huinck & Peters (2004) non permettono di trarre conclusioni stabili sulla loro efficacia. Sembra però che il <i>Comprehensive Stuttering Programme</i> sia più efficace del <i>Doetinchemse Method</i> e della <i>Individual Stutter Therapy</i>, in termini di miglioramento della frequenza della balbuzie e di una migliore <i>self-experience</i>, sebbene risulti meno efficace in termini di miglioramento della qualità del parlato (fonazione, articolazione, tono, forza e naturalezza del parlato). Complessivamente, la <i>Individual Stutter Therapy</i> sembra più efficace del <i>Doetinchemse Method</i>.</p> <p>Nessun metodo da solo può garantire che venga raggiunto, sul lungo termine, un eloquio normofluente.</p>
--	------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------

Sintesi

La meta-analisi di Herder et al. (2006) ha messo in evidenza un buon livello di efficacia dopo il trattamento per la percentuale di parole o sillabe balbettate in pazienti esposti alla terapia basata sul controllo della respirazione e il "*response contingent reinforcement*". E' stato riportato un *effect-size* di 0,91 in confronto con un gruppo non esposto a trattamento, che supera significativamente la soglia 0,5 necessaria per un effetto rilevante. Va notato qui però che le dimensioni degli *effect size* degli studi separati combinati nella meta-analisi variano da 0 a 1,87. Secondo Herder et al. (2006) sembra che non ci siano (grandi) differenze negli *effect size* per vari trattamenti a cui si riferiscono i quattro studi inclusi.

Una vasta rassegna letteraria di Bothe et al. (2006) ha rivelato che le terapie che insegnano il "*prolonged speech*" costituiscono forme efficaci di trattamento. Lo stesso articolo (2006) non ha segnalato alcun *effect-size*, ma ha semplicemente riferito che la

terapia è riuscita a ridurre la percentuale di sillabe balbettate o parole al di sotto del 5% (una soglia altrimenti arbitraria). Se ci limitiamo a quegli studi segnalati da Bothe et al. (2006) fornendo dati di *follow-up* e includendo un progetto di studio comparativo, la riduzione della frequenza di balbuzie varia da 48 a 81% nelle terapie basate sull'apprendimento del "*prolonged speech*".

Uno studio è stato incluso nella recensione di Woodman & Moore (2012) attraverso la valutazione dell'efficacia della tecnica Alexander per la frequenza della balbuzie in relazione ai risultati sia fisici che relativi ai fattori psicosociali, indicando questa tecnica come metodo di trattamento alternativo. I diversi risultati di questo studio non consentono di trarre una conclusione definitiva, ma la versione *tele-health* del programma Camperdown è stata valutata in un unico studio. Si tratta di un programma per la ristrutturazione del linguaggio con particolare attenzione alla respirazione, alla fonazione e all'articolazione. Il risultato di questo studio ha dimostrato che la versione di *tele-health* era potenzialmente altrettanto efficace rispetto al trattamento tradizionale di questo programma (Carey et al., 2010). L'aggiunta della terapia cognitivo-comportamentale alla terapia per la ristrutturazione del linguaggio porta a una riduzione del comportamento di ansia e di evitamento e a ristrutturazione dei pensieri e delle convinzioni sulla balbuzie, ma non ha alcuna influenza sulla gravità della balbuzie (Menzies et al., 2008). Il *self-modelling* con il supporto del video che viene descritto dai ricercatori come "un intervento comportamentale durante il quale le persone visualizzano immagini video di sé stessi privi di un comportamento problematico *target*" non sembra ridurre, come complemento alla terapia basata sulla ristrutturazione del linguaggio, la gravità della balbuzie. Questo approccio sembra avere un effetto benefico sulla qualità della vita (Cream et al., 2010). Il *timeout* autoimposto (che insegna a fermarsi autonomamente dopo un momento di disfluenza) appare, come trattamento, meno efficace della terapia basata sulla ristrutturazione del linguaggio (Hewat et al., 2006). Quegli studi che hanno indagato il DAF (Lincoln et al., 2010, Ingham & Andrews, 1973) non hanno mostrato alcuna differenza statisticamente significativa nella percentuale di balbuzie tra i gruppi sperimentali e di controllo.

Nel 2004, Huinck e Peters hanno pubblicato i risultati di uno studio longitudinale (esplorativo) di tre trattamenti per la balbuzie applicate dai *fluency specialist* olandesi: il "*Comprehensive Stuttering Program (CSP)*", il "*Doetinchemse Method (DM)*", e "*Individual Stutter therapy (IS)*".

A causa del numero limitato di partecipanti allo studio, l'interpretazione dei risultati dello studio Huinck e Peters (2004) non può essere considerata completamente. Inoltre, non si tratta di uno studio comparativo. Tuttavia, il CSP sembra essere il più efficace in termini di riduzione della frequenza delle disfluenze e miglioramento dei fattori emotivi, sociali e cognitivi misurati da questionari standardizzati e di autovalutazione, seguiti dalla IS e quindi dal DM. Il trattamento con CSP tuttavia sembra essere meno efficace rispetto agli altri due metodi in termini di qualità del linguaggio (fonazione, articolazione, pitch, sonorità e naturalezza) mentre non sono evidenti altre differenze rilevanti rispetto

alle altre misure di *outcome* (*speech tempo*, soddisfazione rispetto al proprio discorso, capacità motorie).

L'analisi della letteratura ha rivelato che un numero insufficiente di studi si era dedicato ai comportamenti di evitamento (evitamento delle situazioni di verbalizzazione e di evitamento delle parole), alla naturalezza del linguaggio e partecipazione o ai risultati riguardanti la qualità della vita per verificare l'efficacia di una terapia. Nel caso in cui gli effetti delle varie terapie agivano sul comportamento legato alla balbuzie, la partecipazione e la qualità della vita questi benefici si erano mantenuti a lungo termine (almeno 2 anni) questo non può o può essere quantificato in misura minima a causa del numero esiguo di studi così progettati; sembra esserci una certa corrispondenza con quegli studi in cui sono stati segnalati i dettagli di *follow-up* per 6 a 12 mesi dopo il trattamento.

Si sono ricercate le informazioni utili per definire in che misura l'età, il sesso e la comorbidità influenzano l'efficacia del trattamento, ma sono irreperibili. Ci sono prove che suggeriscono che la presenza concomitante di disturbi psichiatrici multipli (disturbi d'ansia, disturbi della personalità, disturbi dell'umore) possa forse limitare l'efficacia della terapia su una o più misure di *outcome*.

Il grado di certezza rispetto all'*effect size* degli interventi è basso per la maggior parte delle misure di *outcome*. Questo può essere spiegato - per lo più - dal fatto che spesso riguarda gli studi con pochi partecipanti, che vuol dire che i risultati sono meno accurati. C'è anche una grande variazione nei tipi di terapie e disegni di studio, il che significa che i singoli risultati degli studi sono difficili da combinare.

7.4 Dalle evidenze alle raccomandazioni

7.4.1 Certezza in relazione alle effect-size

In generale si può concludere che l'*effect size* è incerta per la maggior parte delle misure di *outcome* dei trattamenti discussi in precedenza.

Ciò è dovuto al numero di studi (RCTs) limitati e al numero limitato di partecipanti agli studi. Da questo punto di vista non c'è motivo che spinga a preferire un trattamento ad un altro tra quelli discussi.

7.4.2 Bilancio tra gli effetti desiderati e indesiderati

Dalla rassegna della letteratura, la frequenza delle disfluenze (percentuale di balbuzie) sembrava essere l'unità di misura di *outcome* più segnalata e che le altre, come i comportamenti di evitamento, la naturalezza del linguaggio, la partecipazione o la qualità della vita sembrano non essere state sufficientemente studiate.

Nella pratica clinica, nei Paesi Bassi, adolescenti ed adulti cercano aiuto in diversi modi, ad esempio nella cura fornita da professionisti sanitari o in programmi di trattamento non convenzionali e commerciali. Per professionisti sanitari, in questo caso, ci si riferisce a Logopedisti o *Fluency Specialist*. Questi effettuano un “trattamento su misura”, basato sulle richieste del paziente e sulle sue caratteristiche, in accordo con la persona che balbetta. Nei Paesi Bassi Logopedisti e *Fluency Specialist* devono rispettare, inoltre, i requisiti di qualità dettati dal *Paramedic Quality Registry*, basando quindi il proprio intervento sull’evidenza scientifica in accordo con le linee guida più recenti e con i protocolli forniti dalle associazioni professionali, in modo tale da poter fornire la cura più adatta e aggiornata possibile. I programmi non convenzionali e commerciali per il trattamento della balbuzie sono spesso basati su approcci e visioni specifiche del disturbo e spesso (non sempre) esperienze e soluzioni personali. Tali programmi sono, in parole povere, i medesimi per tutti i partecipanti. I *leader* o i *coach* che forniscono tali trattamenti non devono soddisfare nessuno standard di qualità. Inoltre, non vi sono dati pubblicati in letteratura riguardo ai reali effetti di questi metodi e programmi.

Un effetto desiderato della *care* fornita dai Logopedisti è che i pazienti ricevono dei trattamenti su misura. Gli effetti indesiderati possono invece includere una mancanza di training da parte del Logopedista nei differenti tipi di trattamento: lui/lei può non riconoscere i propri limiti, con il risultato che la PWS investe troppe energie e tempo in un approccio, per poi essere rinviato troppo tardi ad un altro professionista.

Il valore aggiunto dell’aiuto offerto da chi ha avuto esperienza diretta della propria balbuzie è l’esperienza condivisa rispetto alla balbuzie. Un effetto indesiderato a questo proposito è il fatto che qualcosa (ad esempio una tecnica) che può essere stata utile ad una PWS può allo stesso modo non essere utile per un’altra; la persona che balbetta e che offre il suo aiuto ad altre PWS potrebbe, inoltre, non essere sufficientemente preparata in termini di diagnosi e trattamento e potrebbe non riconoscere i propri limiti. Anche in questo caso la PWS potrebbe quindi essere rinviata ad un professionista competente troppo tardi.

Viene, inoltre, sottolineato come la terapia focalizzata esclusivamente sui miglioramenti dello *speech* non porti ad una riduzione di ansia o comportamenti di evitamento e non assicuri un miglioramento nel funzionamento psicologico; inoltre, niente di tutto ciò accade nel periodo successivo al trattamento (Menzies, 2008; Yaruss, Quesal, Reeves et al., 2002). Ansia e preoccupazione persistono, infatti, dopo approcci di questo tipo (Cream, Onslow, Packman e Llewellyn, 2003; Plexico et al. 2009). Questo è quindi considerabile come un effetto indesiderato.

Ulteriori effetti indesiderati possono sopraggiungere nel caso in cui la terapia non sia scelta su misura per il paziente: questo potrebbe infatti trovare difficoltà a generalizzare nella pratica quotidiana ciò che ha imparato in terapia. In questi casi spesso vi sono delle recidive (Manning, 2010, pagine 475-476, 530, 575-588).

La *Cognitive Behaviour Therapy*, come accennato precedentemente, contribuisce invece alla riduzione di ansia, comportamenti di evitamento, pensieri e credenze problematiche rispetto al disturbo (Menzies, 2008). Tale terapia assicura un miglioramento nella qualità di vita, che è un effetto desiderato. E' esperienza comune, nella pratica e nel setting clinico nei Paesi Bassi, che la persona che balbetta, tramite tale trattamento, sia portata a non vedere più la balbuzie come un problema, e quindi a non avere un handicap socio-emozionale e a partecipare pienamente alla società senza evitare attività a causa del proprio disturbo. Questa è un'esperienza da inserire nella pratica e nella impostazione clinica.

L'effetto desiderato del trattamento individualizzato è che gli obiettivi specifici del singolo individuo che balbetta siano raggiunti.

Sia le PWS, come anche i clinici che hanno confidenza con la partecipazione alla terapia di gruppo riconoscono che le attività e le opportunità della terapia di gruppo possono essere un complemento appropriato al trattamento individuale. Non vi sono però molte ricerche che abbiano investigato gli effetti di tale terapia. Comunque, alcuni studi suggeriscono che la terapia di gruppo (Stewart e Richardson, 2003; Hearne et al., 2008; Beilby et al., 2013) e gruppi di auto aiuto (Boyle, 2003) contribuiscano positivamente ai risultati del trattamento. Lo studio di Huink e Peters (2004) suggerisce un certo grado di relativa efficacia in termini di terapia di gruppo. L'impostazione collettiva migliora l'effetto di apprendimento e crescita in termini di promozione e mantenimento di competenze e approfondimenti appresi (Manning, 2010, pag. 411). Turnbull (2005) riporta anche la forza di partecipare alla terapia di gruppo: "la nostra esperienza è che molti clienti che partecipano alla terapia di gruppo registrano maggiori progressi e risultati migliori in termini di raggiungimento e mantenimento dei comportamenti rispetto ai clienti in un'impostazione *One-to-One*". (Turnbull & Stewart tradotto 2005, pagina 136) (Stewart, 1996). I bambini sembrano preferire la terapia di gruppo quando sono alla ricerca di aiuto (Hearne, 2008) e una combinazione di terapia individuale e di gruppo fornisce un effetto significativo per i giovani adolescenti (Fry, 2009).

La ricerca scientifica ha dimostrato che l'uso di apparecchiature basate sul feedback uditivo ritardato (DAF) non garantisce una riduzione significativa nella percentuale di disfluenze, appare evidente che DAF ha un effetto transitorio per alcuni PWS. Il DAF può avere un valore aggiunto solo per alcuni PWS ma è importante che il paziente si renda conto che, poiché l'effetto di DAF è transitorio, può essere impiegato solo sporadicamente per alcune situazioni. E auspicabile che il Logopedista/Flency specialist informi e si confronti sulle caratteristiche e le potenzialità del DAF con il paziente.

Anche l'applicazione della tecnica *Alexander* il *video self-modelling* e il *timeout* auto imposto non sembrano rivelare nessun valore aggiunto per il raggiungimento dei risultati.

7.4.3 Valori e preferenze

Sulla base degli studi RCT pubblicati nella letteratura scientifica nessun trattamento per la balbuzie è stato identificato come più efficace di qualsiasi altro e quindi sarebbe giusto e auspicabile implementare i trattamenti esistenti per rispondere alle esigenze delle persone che balbettano (PWS). Questo assunto deve costituire la base del piano di trattamento elaborato sulla base di un consenso informato.

Secondo il *working group*, le problematiche associate alla balbuzie devono essere estese oltre alla percentuale delle sillabe balbettate, come è invece spesso riportato nelle ricerche scientifiche. Il *focus group*, in accordo con il *working group*, sottolinea come un trattamento di successo non abbia come *outcome* positivi la sola riduzione della frequenza e/o della gravità della balbuzie, ma anche la soddisfazione della persona che balbetta rispetto al proprio *speech* e/o il raggiungimento della fiducia nel poter balbettare liberamente. Vista la pluralità di variabili che influiscono sulle persone che balbettano, sia a livello generale che a livello individuale, è quindi preferibile fornire un approccio multidimensionale. Diversi autori che hanno scritto studi riguardanti il trattamento della balbuzie sono a favore di tale approccio (inclusi Guitar, 2014; Manning, 2010 (p558); Yaruss, 2010), così come anche la *American Speech-Language-Hearing Association* (ASHA, 2007). Anche la qualità della vita merita attenzione, oltre ad affrontare i comportamenti primari della balbuzie (inclusa la balbuzie non udibile). Craig, Blumgart e Tran (2009) hanno dimostrato che la qualità di vita delle persone che balbettano è inferiore rispetto ad un gruppo controllo di persone che non balbettano. Quindi, è di estrema importanza affrontare la natura multidimensionale del disturbo in un'ottica ICF, facendo riferimento a tutti i suoi elementi⁴¹.

L'ICF per la balbuzie è stato sviluppato in 2009. L'associazione olandese per la logopedia e la foniatra (NVLF, www.nvlf.nl) ha addestrato i professionisti nell'applicazione dell'ICF all'interno del trattamento. L'NVLF utilizza il principio fondante dell'ICF nello sviluppo di linee guida e altri strumenti per garantire la qualità, come gli standard linguistici, il profilo professionale e i test di qualità.

Conseguentemente, le PWS dovrebbero essere informate rispetto alle varie opzioni di trattamento e prendere delle decisioni (*shared decision making*) relative al percorso da seguire insieme al Logopedista/*Fluency Specialist*. I benefici e gli svantaggi dovrebbero essere chiari e mirati alle circostanze specifiche della PWS. Il terapeuta e PWS dovrebbero essere in grado di concordare sulla base di una "decisione condivisa" quale percorso da seguire. Ciò dovrebbe essere giustificato sulla base di un piano di trattamento con obiettivi SMART. Inoltre, mettere in relazione gli scopi del trattamento

⁴¹ L'Organizzazione Mondiale della Sanità (OMS) ha sviluppato un sistema di classificazione internazionale per classificare il funzionamento individuale. Questa è la "Classificazione internazionale del funzionamento, della disabilità e della salute" (ICF).

rispetto alle componenti ICF consente sia di trattare il disturbo in modo globale, sia di valutare il trattamento stesso.

Il *working group* è del parere che un logopedista e/o *fluency specialist* dovrebbe applicare alla struttura del suo lavoro l'ICF e dove possibile lavorare seguendo i principi della pratica basata sulle evidenze nel suo lavoro quotidiano.

- **Persone che balbettano**

Poiché vi è un'assenza di certezza significativa o moderata rispetto *agli effect size* derivanti dai vari e diversi tipi di trattamento per la maggior parte delle misure di *outcome*, le preferenze della PWS possono svolgere un ruolo importante.

Un buon risultato di un trattamento non dovrebbe consistere solo nell'imparare una tecnica e/o esercizi di altro tipo, ma anche lavorare sulle percezioni e sui sentimenti associati alla balbuzie. Un buon risultato dovrebbe comprendere una riduzione della frequenza delle disfluenze e/o dell'intensità, che la PWS sia soddisfatta del proprio linguaggio e/o la PWS sia in grado di balbettare liberamente.

Non c'è "cura" facile e risolutiva per la balbuzie e quindi il trattamento deve essere adattato a ogni PWS. La terapia costerà molto sforzo e impegno alla PWS dovendo dedicare un tempo lungo al trattamento prevedendo la possibilità di interrompere e poi riprendere la terapia in un secondo momento. Anche se il logopedista/*fluency specialist* lavorerà con la PWS in maniera importante all'interno del processo riabilitativo, tuttavia sarà la persona a dover lavorare da solo per ottenere un buon risultato.

Il logopedista/*Fluency Specialist* dovrà possedere una vasta gamma di competenze per poter adattare il trattamento alle esigenze della PWS. E' auspicabile l'utilizzo della terapia di gruppo in aggiunta alla terapia individuale in modo che la PWS riceva il massimo aiuto. Queste indicazioni sono derivate dal *Focus Group*, che raccoglie l'esperienza dei membri dell'associazione *Demosthenes* ed è sottolineato dallo studio Boyle (2013).

Una terapia dovrebbe avere l'obiettivo di lavorare sulla percezione e i sentimenti collegati e derivanti dalla balbuzie e non solo quello di apprendere una o più tecniche di linguaggio e/o altri esercizi fisici. Questo è l'*outcome* più importante che emerge dal *focus group* in termini di contenuti della terapia e viene sottolineato anche da ricerche con PWS (Yaruss, Quesal e Murphy, 2002). Solitamente è possibile affrontare in modo adeguato la propria balbuzie nella quotidianità se la persona che balbetta riesce a pensare e discutere razionalmente del disturbo.

Conseguentemente, la gestione della balbuzie nella vita quotidiana dev'essere una parte essenziale del trattamento (non solo della impostazione della terapia). Infine, il *focus group* sottolinea come la soddisfazione rispetto al proprio *speech* venga raggiunta generalmente solo da pazienti che si prendono la responsabilità della propria balbuzie, uscendo di casa e non permettendo che la loro vita ne venga limitata.

- **Logopedisti/specialisti della fluenza**

I Logopedisti nei Paesi Bassi sono addestrati per trattare i pazienti con disturbi della fluenza. Tuttavia, non tutti i logopedisti si sentono abbastanza competenti in termini di trattamento della balbuzie. I logopedisti iscritti alla *Dutch Association for Stutter Therapy* (NVST) sono specializzati nel trattamento della balbuzie; lavorano seguendo le linee guida sulla balbuzie nei bambini, negli adolescenti e negli adulti, basate su evidenze e di solito hanno più conoscenze, competenze ed esperienza nel campo del trattamento dei disturbi di fluenza rispetto a un logopedista non specializzato. Essi sono stati addestrati sia per il lavoro sugli aspetti tecnici, così come sui problemi psicologici, pedagogici e psico-sociali che sono sempre associati alla balbuzie. Essi seguono l'indicazione internazionalmente valida di utilizzare un approccio integrato e sono addestrati a fornire terapia di gruppo come aggiunta alla terapia individuale.

Attualmente, diverse forme di terapia di gruppo sono fornite nei Paesi Bassi da logopedisti/specialisti di fluenza tra cui programmi di terapia intensiva di gruppo (Bezemer et al., 2006; Weijts et al., 2012), gruppi di esercizio, gruppi di genitori e gruppi di bambini.

Non vi è alcuna prova che le terapie proposte per la balbuzie nei Paesi Bassi da debbano essere modificate nè che debba essere implementato il livello di competenza dei professionisti. Ci deve essere un "processo decisionale condiviso" nella scelta della terapia, e che la persona che balbetta deve essere informato in maniera chiara dal logopedista/*Fluency Specialist* e che il logopedista deve tener presente che ci sono tre fattori generali in tutte le procedure cliniche che contribuiscono a un esito terapeutico di successo: la "alleanza terapeutica", il grado di flessibilità con cui il terapeuta attribuisce e implementa un protocollo di trattamento e la qualità (livello di competenza) del clinico (buone capacità terapeutiche) (Ahn & Wampold, 2001 in Manning (2010, p 310)).

È stato dimostrato che addestrare i *fluency specialist* nella terapia cognitivo-comportamentale (CBT) si è rivelato utile. La CBT può essere molto importante per le PWS per ridurre i sentimenti di ansia e i comportamenti di evitamento. Recenti rapporti di ricerca hanno indicato come la "*Acceptance and Commitment Therapy*" svolta in gruppo potrebbe essere una nuova e valida forma di intervento. I logopedisti/*fluency specialist* devono essere formati per implementare il programma di trattamento aggiungendo le terapie di gruppo a quelle *One-to-One* perché garantirebbe maggiore certezza nel raggiungimento dei risultati.

La specializzazione "specialista di fluenza" (*fluency specialist*) ha una collocazione chiara nella Logopedia nei Paesi Bassi come un *follow-up* della formazione iniziale del Logopedista/specialista della fluenza verbale "esperto", perchè contribuisce alla sua educazione.

7.4.4 Costo della Terapia

Non vi sono dati esatti rispetto i costi del trattamento della balbuzie in questa fascia di età, in parte a causa della varietà delle tecniche applicate. Non è stato quindi possibile indicare una cifra esatta in termini di costi e anche quale impatto avranno le seguenti raccomandazioni sui costi dei vari trattamenti, ancor più considerando che non ci sono precise indicazioni di preferenza per un trattamento.

Pertanto, nel redigere le raccomandazioni, il *working group* non è stato in grado di stabilire una cifra esatta in termini di costi. Sono auspicabili ulteriori ricerche sull'efficacia in termini di costi della terapia, data l'evoluzione dell'assistenza sanitaria.

Raccomandazioni

- | |
|------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| <p>13. Il trattamento della balbuzie per adolescenti e adulti dovrebbe essere individualizzato. La terapia può aver luogo in setting individuali e/o di gruppo. Il piano di trattamento è stabilito all'interno di un dialogo tra il Logopedista e la persona che balbetta ("<i>shared decision making</i>"); il piano di trattamento contiene tutti gli elementi ICF. I desideri e le necessità del PWS compongono la base del piano di trattamento.</p> |
| <p>14. A seconda di ciò che è stato concordato tra il la persona che balbetta e il Logopedista/<i>Fluency specialist</i>, il trattamento si focalizzerà su aspetti psicosociali (Emotivi; e reazioni cognitive rispetto al parlato), su aspetti verbali-motori o su entrambi. La terapia cognitivo-comportamentale (<i>Cognitive Behavioural Therapy</i>) è raccomandata per il trattamento degli aspetti psicosociali.</p> |
| <p>15. Gli elementi della terapia per la balbuzie dovrebbero includere: <i>Promoting Transfer</i> – è essenziale che la PWS applichi le competenze apprese e gli <i>insight</i> nella vita quotidiana. <i>Promoting and maintaining self-management</i> - la PWS è in grado di valutare la propria balbuzie e il comportamento ad essa associato e correggerlo, se necessario.</p> |
| <p>16. In generale, non è raccomandato l'utilizzo di strumenti basati sull'<i>Altered Auditory Feedback</i> (AAF). Tuttavia, in circostanze specifiche, questi strumenti possono ridurre la percentuale di balbuzie in alcuni PWS. Bisogna sottolineare che però questo effetto potrebbe non mantenersi.</p> |

Razionale delle raccomandazioni

- Vari trattamenti per la balbuzie hanno effetti positivi direttamente dopo il trattamento modificando la frequenza delle disfluenze; questi, tuttavia, variano in impatto. Alcuni studi riferiscono che gli effetti positivi sono mantenuti sei mesi dopo

la terapia, altri riferiscono la presenza di (alcune) recidive. La certezza rispetto all' *effect-size* è limitata per la misura di *outcome* della frequenza, a causa di alcuni limiti nella progettazione dello studio e della dimensione del campione. Le misure di *outcome* diverse dalla frequenza della balbuzie, come il comportamento di evitamento (situazione e parola evitabile), la naturalezza del parlato, la partecipazione o la qualità della vita non sono state sufficientemente investigate.

- La letteratura scientifica non fornisce alcuna prova forte che una terapia sia (molto) più efficace di un'altra.
- È opportuno cooperare e condividere le motivazioni per la scelta di una terapia specifica con la persona che balbetta, in base ai suoi desideri e alle sue esigenze.
- Il gruppo di lavoro, nella redazione di queste raccomandazioni, non è stato in grado di allegare dati conclusivi sui costi della terapia, a causa della mancanza di informazioni sui costi correnti.
- La raccomandazione per la terapia di gruppo poggia sull'esperienza dei membri del gruppo di lavoro e sulle esperienze delle persone che balbettano, come espresso all'interno di un *focus group* organizzato nell'ambito di questo orientamento. La terapia in gruppo può migliorare la motivazione per la terapia e essere un valore aggiunto per il rapporto con i pari.

Riferimenti

1. Ahn, H., & Wampold, B.E. (2001). Where oh where are the specific ingredients? A meta-analysis of component studies in counseling and psychotherapy. *Journal of Counseling Psychology*, 48, 251-257.
2. American Speech-Language-Hearing Association. (2007). Scope of Practice in Speech-Language Pathology [Scope of Practice]. Available from www.asha.org/policy.
3. Bate, Karina S., John M. Malouff, Einar T. Thorsteinsson, Navjot Bhullar (2011). The efficacy of habit reversal therapy for tics, habit disorders, and stuttering: A meta-analytic review. *Clinical Psychology Review* 31, 865–871.
4. Beilby JM, Byrnes ML, Yaruss JS, Beilby JM, Byrnes ML, Yaruss JS (2012). Acceptance and Commitment Therapy for adults who stutter: psychosocial adjustment and speech fluency. *Journal of Fluency Disorders* 37[4], 289-299.
5. Bezemer, M., Bouwen, J., Winkelman, C. (2006). *Stotteren: Van theorie naar therapie*. Bussum: Coutinho.
6. Bloodstein, O., Bernstein Ratner N. (2008). *A handbook on stuttering*. Clifton Park, NY: Delmar Cengage Learning.
7. Bothe, Anne K., Jason H. Davidow, Robin E. Bramlett, Roger J. Ingham, Stuttering Treatment Research 1970–2005 (2006). I. Systematic Review Incorporating Trial Quality Assessment of Behavioral, Cognitive, and Related Approaches. *American Journal of Speech-Language Pathology*, Vol. 15, 321–341.
8. Boyle, M.P. (2013). Psychological characteristics and perceptions of adults who stutter with and without support group experience. *Journal of Fluency Disorders*, in press.

9. Carey, Brenda, Sue O'Brian, Mark Onslow, Susan Block, Mark Jones & Ann Packman (2010). Randomized controlled non-inferiority trial of a telehealth treatment for chronic stuttering: the Camperdown Program. *International Journal of Language & Communication Disorders.*, vol. 45, no. 1, 108–120.
10. Craig A, Blumgart E, Tran Y. (2009). The impact of stuttering on the quality of life in adults who stutter. *J Fluency Disord*;34(2):61-71.
Clinical Guideline Stuttering in Children, Adolescents and Adults, October 2014 123
11. Cream A, O'Brian S, Jones M, Block S, Harrison E, Lincoln M, Hewat S, Packman A, Menzies R, Onslow M (2010). Randomized Controlled Trial of Video Self-Modeling Following Speech Restructuring Treatment for Stuttering. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, Vol. 53, 887–897 .
12. Fry JP (2009). The effect of an intensive group therapy program for young adults who stutter: A single subject study. [References]. *International Journal of Speech-Language Pathology* 11[1], 12-19.
13. Hearne A, Packman A, Onslow M, Quine S et al (2008). Stuttering and its treatment in adolescence: the perceptions of people who stutter. *Journal of Fluency Disorders* 33[2], 81-98.
14. Guitar, B. (2013). *Stuttering: an integrated approach to its nature and treatment. 4th Edition.* Baltimore, MD; Lippincott Williams & Wilkins.
15. Herder, Carl, Courtney Howard, Chad Nye, Martine Vanryckeghem. Effectiveness of Behavioral Stuttering Treatment: A Systematic Review and Meta-Analysis (2006). *Contemporary issues in communication science and disorders*, Volume 33, 61–73
16. Hewat S, Onslow M, Packman A, O'Brian S. (2006). A phase II clinical trial of self-imposed time-out treatment for stuttering in adults and adolescents. *Disabil Rehabil.* 15;28(1):33-42.
17. Huinck, W.J., H.F.M. Peters (2004). *Efficacy research in stuttering therapy. A longitudinal observation of the effects of three treatment programme.* (Nijmegen: Nijmegen University Press).
18. Huinck, W.J. (2006). *Stuttering: Studies of therapy outcome and speech motor control* (z.p.).
19. Ingham, R. J., & Andrews, G. (1973). An analysis of a token economy in stuttering therapy. *Journal of Applied Behavior Analysis*, 6, 219–229.
20. Iverach L, Jones M, O'Brian S, Block S, Lincoln M, Harrison E, Hewat S, Cream A, Menzies RG, Packman A, Onslow M. (2009). The relationship between mental health disorders and treatment outcomes among adults who stutter. *J Fluency Disord*;34(1):29-43.
21. James, J. E., Ricciardelli, L. A., Rogers, P., & Hunter, C. E. (1989). A preliminary analysis of the ameliorative effects of time-out from speaking on stuttering. *Journal of Speech and Hearing Research*, 32, 604–610.
22. Ladouceur, R., & Saint-Laurent, L. (1986). A multidimensional behavioral treatment and evaluation package. *Journal of Fluency Disorders*, 11(2), 93–103.
23. Lincoln M, Packman A, Onslow M, Jones M. (2010) An experimental investigation of the effect of altered auditory feedback on the conversational speech of adults who stutter. *J Speech Lang Hear Res.* 53(5):1122-31.
24. Manning, W.H. (2010). *Clinical Decision Making in Fluency Disorders*, Third Edition.
25. Menzies RG, O'Brian S, Onslow M, Packman A, St Clare T, Block S. (2008) An experimental clinical trial of a cognitive-behavior therapy package for chronic stuttering. *J Speech Lang Hear Res.*;51(6):1451-64.

26. Miltenberger, R. G., Wagaman, J. R., & Arndorfer, R. E. (1996). Simplified treatment and long term follow-up for stuttering in adults: A study of two cases. *Journal of Behavior Therapy and Experimental Psychiatry*, 27, 181–188.
27. Nippold MA. Stuttering in school-age children: a call for treatment research. *Lang Speech Hear Serv Sch*. 2011 Apr;42(2):99-101.
28. O'Brian S, Onslow M, Cream A, Packman A. The Camperdown Program: outcomes of a new prolonged-speech
29. Öst, L., Gotestam, K. G., & Melin, L. (1976). A controlled study of two behavioral methods in the treatment of stuttering. *Behavior Therapy*, 7, 587–592.
30. Perkins, W. H., Rudas, J., Johnson, L., Michael, W. B., & Curlee, R. F. (1974). Replacement of stuttering with normal speech: III. Clinical effectiveness. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 39, 416–428.
31. Plexico L, Manning WH, Levitt H (2009). Coping responses by adults who stutter: part II. Approaching the problem and achieving agency. *Journal of Fluency Disorders* 34[2], 108-126.
32. Saint-Laurent, L., & Ladouceur, R. (1987). Massed versus distributed application of the regulated-breathing method for stutterers and its long-term effect. *Behavior Therapy*, 18, 38–50.
33. Stewart T (1996). A further application of the Fishbein and Ajzen model to therapy for adult stammerers. *European Journal of Disorders of Communication* 31[4], 445-464.
34. Stewart T, Richardson G (2004). A qualitative study of therapeutic effect from a user's perspective. *Journal of Fluency Disorders* 29[2], 95-108.
35. Turnbull, J. Stewart, T., vertaald door Smitskanp, T., (2005) *Therapieboek Stotteren Volwassenen*, blz 136
36. Yaruss, J. S., Quesal, R. W., & Murphy, W. (2002). National Stuttering Association Members' opinions about stuttering treatment. *Journal of Fluency Disorders*, 27, 227–242.
37. Yaruss JS (2010). Assessing quality of life in stuttering treatment outcomes research. *J Fluency Disord*. 35(3):190-202.
38. Yaruss JS, Coleman CE, Quesal RW. Stuttering in school-age children: a comprehensive approach to treatment. *Lang Speech Hear Serv Sch*. 2012 Oct;43(4):536-48.
39. Weijts, M., van den Eerenbeemt, J., Hartjesveld, G., van Wijngaarden, L. Het Integraal Zorgtraject Stotteren, unieke vorm van zorg. *Logopedie*. Oktober 2012, 30-34.
40. Woodman, J. P., N. R. Moore (2012). Evidence for the effectiveness of Alexander Technique lessons in medical and health-related conditions: a systematic review. *Int J Clin Pract*, January 66 (1), 98–112.

Capitolo 8 - Efficacia della Terapia Farmacologica in Adolescenti e Adulti

8.1 Introduzione

Non sono state stabilite con certezza né la causa della balbuzie né la causa dei singoli episodi di balbuzie (vedi anche l'introduzione di queste linee guida). Ci sono stati numerosi tentativi di identificare farmaci efficaci. Questo capitolo parla dello stato dell'arte. Ci sarà una breve descrizione dello stato dell'arte, dato che tali farmaci non vengono utilizzati nei Paesi Bassi. E' quindi assente qualsiasi valutazione in merito alla certezza rispetto all'*effect size*.

8.2 Metodologia

E' stata effettuata una ricerca di revisioni sistematiche/meta-analisi e singoli RCT in cui i farmaci sono stati valutati in termini di efficacia e sicurezza. Si prega di fare riferimento al paragrafo 2 del testo, che descrive gli interventi non farmacologici, per una descrizione della strategia di ricerca. Sono state trovate due revisioni e due RCT pertinenti.

8.3 Evidenze

In primo luogo discuteremo le revisioni sistematiche di Bothe (2006) e Boyd (2011). In seguito, verranno discussi gli studi singoli che sono stati pubblicati successivamente.

8.3.1 Panoramica delle Revisioni Sistematiche

Bothe et al., 2006

Nel 2006, Bothe e coll. hanno pubblicato una revisione sistematica che prende in considerazione gli studi che indagano efficacia e sicurezza dei farmaci. Tali farmaci comprendono:

- Anticonvulsivi: carbamazepina
- Antidepressivi: fenelzina, paroxetina, sertralina, mianserina, clomipramina e desipramina
- Antipsicotici: aloperidolo, olanzapina, risperidone
- Medicine cardiovascolari: clonidina, oxprenololo, propranololo, verapamil
- Colinergici: betanecolo
- Dopamino agonisti: pimozone, tiapride
- Bloccanti neuromuscolari: Tossina Botulinica
- Ansiolitici+Antidepressivi: benzodiazepina con citalopram

Dei 35 studi:

– Uno studio (risperidone) ha rilevato una riduzione della frequenza della balbuzie sotto il 5%; non è stata però riportata dagli autori la frequenza prima della somministrazione del farmaco;

17. Tre studi (aloperidolo, propranololo, sertralina) hanno evidenziato una riduzione di più del 50% della frequenza della balbuzie;

18. Quattro studi (tossina botulinica, clomipramina, desipramina, carbamazepina) hanno dimostrato un miglioramento nei domini di tipo cognitivo, sociale o emotivo.

Dati tali risultati l'efficacia della terapia farmacologica appare limitata. Dovrebbe essere sottolineato che la terapia farmacologica è spesso associata ad effetti collaterali. Questi effetti collaterali possono essere lievi, provocando: secchezza delle fauci, costipazione, senso di stanchezza o aumento di peso. Oppure possono anche essere severi, come sintomi simili a quelli del parkinson, causati dall'aloperidolo, o convulsioni, causate dagli antidepressivi triciclici.

Boyd e coll. (2011)

Boyd e coll. (2011) hanno condotto una revisione in cui hanno incluso studi che riguardavano specificatamente il gruppo di età inferiore a 18 anni. Hanno trovato sette studi, di cui due case studies, che sono stati categorizzati con un'evidenza molto bassa. Quattro studi sono stati invece caratterizzati da un'evidenza bassa perché due criteri fondamentali non sono stati soddisfatti: la presenza di un gruppo controllo o placebo, e la presenza di dati riguardanti la disfluenza prima e dopo l'intervento. Uno studio (Althaus et al., 1995) è stato qualificato come avente una forte evidenza in quanto era uno studio cross-over in doppio-cieco con un gruppo di controllo (placebo). L'età dei partecipanti a questo studio (N=25) variava da 6 a 13 anni. Di questi 25: 6 avevano anche ADHD, mentre altri 4 avevano un disturbo dello sviluppo o un disturbo motorio cronico.

Il medicinale valutato è stato la clonidina, assunta per otto settimane in quantità pari a 4µg/kg di peso corporeo al giorno. Le disfluenze sono state misurate in termini di numero di ripetizioni, prolungamenti, blocchi e interiezioni. Ai bambini è stato chiesto di leggere un testo e di ripetere delle frasi a voce alta e di raccontare qualcosa riguardante le proprie esperienze durante le vacanze o il weekend. La misura esatta che è stata utilizzata per effettuare tale valutazione non emerge dallo studio, non è quindi chiaro quali unità siano state utilizzate per gli *outcome*. Per i soggetti che hanno ricevuto la clonidina, la frequenza delle ripetizioni e dei prolungamenti è aumentata: la differenza tra il follow-up e la valutazione di base è stata di 2,33 (IC 95%: -4,7; 9,3) e 0,58 (-0,22; 0,79), rispettivamente. L'ampiezza degli intervalli di confidenza ha dimostrato che i risultati ottenuti non sono stati molto accurati. Tuttavia numerosi altri effetti risultanti dalla somministrazione di clonidina sono stati, secondo gli autori, significativi e di interesse clinico: sulla base di una checklist del comportamento, genitori e insegnanti hanno riportato che i bambini erano meno iperattivi, più concentrati sui compiti e che li si poteva avvicinare più facilmente.

8.3.2 Studi Individuali sull'efficacia e la sicurezza dei farmaci

Maguire e coll. hanno riportato uno studio nel 2010, sull'efficacia e sulla sicurezza del Pagoclone⁴². (NB HdB: per il testo che segue è stata utilizzata la revisione del Dott. Bert Bast, vedi <http://www.stotteren.nl/professionals/wetenschappelijk-onderzoek/algemeen/136-stotterpil.html>).

Questo studio è stato sponsorizzato dall'industria farmaceutica. Le scale di valutazione utilizzate per le misure degli *outcome* primari sono state le "Stuttering Severity Scales", soggettive e oggettive (SSI-3, SSS, SEV e percentuale di sillabe balbettate). Per gli *outcome* secondari sono state utilizzate una scala per la naturalezza del parlato e la *Liebowitz Social Anxiety Scale*. Dopo la valutazione iniziale sono state fatte altre 2 o 3 valutazioni: dopo 2, 4 e 8 settimane dall'inizio del trattamento. In quasi tutti i casi gli *outcome* sono migliorati sia nel gruppo placebo che nel gruppo trattato con il Pagoclone. Solo in pochi casi è stata rilevata una differenza significativa in favore del Pagoclone. L'impatto maggiore è stato riscontrato nella percentuale di sillabe balbettate (*stuttering percentage*); essa sembra essersi ridotta del 21% dopo 4 settimane di Pagoclone (vedi Tabella 1 per l'*effect size*). Lo studio a doppio cieco con il gruppo controllo-placebo è stato seguito da uno studio *open-label*. Il miglioramento rispetto alla percentuale delle sillabe balbettate rilevata è stata del 40% dopo un anno nel gruppo a cui era stato somministrato il Pagoclone. In ogni caso, se queste percentuali relative venissero convertite in percentuali assolute, ci sarebbe una riduzione media delle sillabe balbettate che andrebbe dall' 8.3% al 6.7%. I risultati appaiono scarsamente significativi a livello clinico, in particolar modo se si tengono in considerazione gli effetti collaterali (stanchezza e mal di testa).

Busan e coll. (2009) indagano l'*efficacia* della Paroxetina in termini di riduzione della frequenza di parole balbettate e di movimenti associati alla balbuzie. A cinque PWS sono stati somministrati 20 mg di Paroxetina, una volta al giorno per 12 settimane e ad altre cinque PWS è stato somministrato un placebo. Dopo 12 settimane la frequenza di parole balbettate è scesa in termini assoluti del 5.7% (mediana) e in termini relativi del 45.2%; i dati relativi al gruppo placebo sono stati, rispettivamente, 1.6% e 15.8%. La percentuale delle parole balbettate è stata determinata su un campione di eloquio spontaneo e sulla lettura di un testo. Non sono state rilevate differenze statisticamente significative tra i due gruppi. I movimenti (facciali) associati alla balbuzie - che in senso stretto non rappresentano una rilevante misura di *outcome* - sembrano essere diminuiti significativamente. Chi ha condotto lo studio non si è concentrato sulla presenza di effetti collaterali della paroxetina. Secondo il formulario farmaceutico (consultato il 4 Giugno 2013) possono verificarsi i seguenti effetti collaterali: in più del 10% dei casi: nausea e disordini sessuali; nell'1-10% dei casi: aumento nei livelli di colesterolo, sonnolenza, sudorazione, debolezza muscolare, insonnia, agitazione, sogni anomali, vertigini, disturbi sensoriali, tremori, disturbi visivi, sbadigli, costipazione, diarrea, secchezza delle fauci, astenia, aumento del peso corporeo, ansia, mal di testa, e riduzione d'appetito; nello 0.1-

⁴² Il farmacista fermò ulteriori ricerche sull'efficacia del Pagoclone.
<http://thestutteringbrain.blogspot.nl/2011/12/breaking-news-endo-stops-pagoclone.html>

1% dei casi: sanguinamento anomalo (soprattutto cute e mucose), confusione, allucinazioni, disturbi extrapiramidali, midriasi, tachicardia, aumento transitorio o riduzione della pressione arteriosa, ipotensione posturale, rash cutaneo, prurito, ritenzione urinaria e incontinenza urinaria.

Tabella 1. Efficacia del Pagoclonone confrontata con il placebo

Outcome measures	Large effect size	95% CI
SSI-3 Frequency and Duration Subscore		
Change to wk 4	0.52	0.13-0.90
Change to wk 8	0.21	-0.17-0.58
SSS Severity Subscore		
Change to wk 2	0.40	0.02-0.78
Change to wk 4	0.20	-0.18-0.58
Change to wk 8	0.14	-0.24-0.51
Site clinician-rated SEV		
Change to wk 2	0.20	-0.18-0.58
Change to wk 4	0.36	-0.02-0.74
Change to wk 8	0.13	-0.25-0.50
Percentage of syllables stuttered		
Percent change to wk 4	0.62	0.24-1.01
Percent change to wk 8	0.28	-0.10-0.66
LSAS (Liebowitz Social Anxiety Scale Total)		
Percent change to wk 4	0.22	-0.14-0.58
Percent change to wk 8	0.18	-0.19-0.54
LSAS Fear/Anxiety Subscale		
Percent change to wk 4	0.15	-0.22-0.51
Percent change to wk 8	0.06	-0.31-0.42
LSAS Avoidance Subscale		
Percent change to wk 4	0.26	-0.10-0.62
Percent change to wk 8	0.25	-0.11-0.61
LSAS Stuttering Subscale		
Percent change to wk 4	0.30	-0.07-0.66
Percent change to wk 8	0.23	-0.13-0.60

Fonte: Macquire et al. (2010)

Conclusioni:

Certezza rispetto all'effect size: Non accertata	La maggioranza degli studi sull'efficacia della terapia farmacologica non ha dimostrato nessun effetto clinicamente rilevante sulla frequenza della balbuzie e sugli outcome di natura socio-cognitiva ed emotiva. Dati i potenziali effetti collaterali della farmacoterapia che possono avere un impatto negativo sulla qualità della vita, l'effetto netto sembra essere zero.
-------------------------------------------------------------------	-----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------

8.4 Dalle Evidenze alle Raccomandazioni

8.4.1 Certezza rispetto all'effect size

Sebbene la qualità dell'evidenza non sia stata accertata, sarebbe da sottolineare che molti studi che indagano l'efficacia di vari tipi di farmaci sulla balbuzie sono metodologicamente *deboli*. Inoltre, solitamente non è presente alcun effetto statisticamente significativo.

8.4.2 Bilancio degli effetti Desiderati e Indesiderati

Potenzialmente tutti i farmaci sono associati a effetti collaterali per utilizzo a lungo termine. Vista l'assenza di effetti significativi dei farmaci da una parte e i potenziali effetti collaterali dall'altra, non vi è ragione per raccomandarne una somministrazione a lungo termine.

8.4.3 Valori e Preferenze

a. Persona che balbetta

Non vi è letteratura sugli effetti dell'uso temporaneo del farmaco. Una chiamata tramite *Demosthenes* riguardante gli effetti dell'uso temporaneo di un farmaco non ha ricevuto risposta.

b. Logopedisti - *Fluency Specialist*

Quando i farmaci sono stati utilizzati con casi di balbuzie in assenza di comorbidità, è di importanza clinica che il terapeuta sia consapevole che il comportamento può migliorare mentre aumenta la severità della balbuzie o che la balbuzie può essere scatenata dai farmaci. In questi ultimi casi si parla di balbuzie acquisita o balbuzie farmacogena (Vedi Introduzione).

Raccomandazione

17. L'uso di farmaci nella terapia per la balbuzie non è raccomandato. Nel caso in cui vi sia comorbidità e balbuzie, si raccomanda una scelta e una dose appropriata dei farmaci in consultazione sia con la persona che balbetta (e il suo contesto ambientale) che con colui che li prescrive.

Razionale per la raccomandazione

- Potenzialmente tutti i farmaci sono associati a effetti collaterali per utilizzo a lungo termine. Vista l'assenza di effetti significativi dei farmaci da una parte e i potenziali effetti collaterali dall'altra, non vi è ragione per raccomandarne una somministrazione a lungo termine.

Riferimenti

1. Althaus M, Vink HJ, Minderaa RB, Goorhuis-Brouwer SM, Oosterhoff MD.(1995).Lack of effect of clonidine on stuttering in children. *Am J Psychiatry*.152(7):1087-9.
2. Bothe AK, Davidow JH, Bramlett RE, Franic DM, Ingham RJ. (2006). Stuttering treatment research 1970-2005: II. Systematic review incorporating trial quality assessment of pharmacological approaches. *Am J Speech Lang Pathol*. 15(4):342-52.
3. Boyd A, Dworzynski K, Howell P. (2011). Pharmacological agents for developmental stuttering in children and adolescents: a systematic review. *J Clin Psychopharmacol*. 31(6):740-4.
4. Busan P, Battaglini PP, Borelli M, Evaristo P, Monti F, Pelamatti G. (2009).Investigating the efficacy of paroxetine in developmental stuttering. *Clin Neuropharmacol*. 32(4):183-8.
5. Maguire G, Franklin D, Vatakis NG, Morgenshtern E, Denko T, Yaruss JS, Spotts C, Davis L, Davis A, Fox P, Soni P, Blomgren M, Silverman A, Riley G.(2010). Exploratory randomized clinical study of pagoclone in persistent developmental stuttering: the Examining Pagoclone for Persistent Developmental Stuttering Study. *J Clin Psychopharmacol*. 30(1):48-56.

Capitolo 9: Quando e per quali Ragioni un Paziente che Balbetta dovrebbe essere Rinviato da un Logopedista ad un *Fluency Specialist* o a un altro professionista sanitario?

9.1 Introduzione

Nei Paesi Bassi, in molti casi, la richiesta di trattamento della balbuzie viene accolta in primo luogo dal logopedista. Quest'ultimo/a però, potrebbe sentire di non possedere le competenze necessarie in merito a tutti gli aspetti che concernono il trattamento del disturbo. Conseguentemente, si verificano spesso dei rinvii a un *fluency specialist*. Ogni tanto però ci possono essere dei ritardi eccessivi nel rinvio, forse per una scarsa conoscenza dell'esperienza e delle opzioni di trattamento offerte da un *fluency specialist*.

Gli Specialisti della Fluenza (*fluency specialist*) sono dei Logopedisti specializzati in balbuzie, che dopo il percorso universitario per diventare logopedisti hanno completato un percorso post-laurea approvato dalla NVST (*Dutch Association of Stuttering Therapy*). La differenziazione tra logopedisti e specialisti della fluenza è nata dall'esigenza di migliorare la qualità dell'assistenza della persona che balbetta e migliorare le competenze di base dei logopedisti. Gli effetti della balbuzie sul funzionamento emotivo/sociale e sulla qualità di vita delle PWS fanno sì che il trattamento sia complesso e che le componenti cognitive ed emotive siano parte integrante del trattamento stesso. Il *training* cognitivo ed emotivo fa parte della terapia, così come il *mentoring* della famiglia di un bambino che balbetta. Il percorso di base per diventare logopedista non fornisce sufficienti capacità in questo senso.

Il criterio per rinviare il paziente ad un professionista sanitario competente dovrebbe essere chiaro sia al medico di famiglia che ai pazienti.

Nella PWS può emergere una grave ansia da conversazione oppure un'ansia sociale e talvolta la balbuzie può essere associata anche a sintomi depressivi. L'ansia sociale potrebbe essere (o essere diventata) il problema principale e la balbuzie un problema addizionale. In questi casi l'aiuto di un altro professionista sanitario sarebbe auspicabile. Questo capitolo fornisce maggiore chiarezza rispetto a quando dovrebbe verificarsi un rinvio e verso quale professionista sanitario.

9.2 Metodologia

Non è stata effettuata alcuna revisione sistematica per rispondere al quesito principale di questo capitolo. Per descrivere la prospettiva del paziente è stato utilizzato un *report* di un meeting del focus group (CBO, 2013). Per descrivere la prospettiva dei professionisti sono state utilizzate la conoscenza, l'esperienza e le opinioni dei membri del *working group*, in quanto logopedisti/specialisti della fluenza.

9.3 Evidenze

La balbuzie è un disturbo complesso, specialmente perché sono presenti in modo relativamente frequente problematiche di tipo sociale/emotivo. E' di estrema importanza analizzarle dettagliatamente. Il trattamento della balbuzie non porta sempre a miglioramenti sufficienti nel periodo di trattamento previsto. Un rinvio da parte di un logopedista verso un *fluency specialist*, o un rinvio verso un altro professionista sanitario potrebbe essere quindi utile a causa delle problematiche di tipo sociale/emotivo e dell'inadeguata realizzazione degli obiettivi terapeutici. Questo verrà approfondito in dettaglio sotto.

9.3.1 Problematiche di natura sociale/emotiva

La balbuzie può, in larga misura, avere un impatto sia sulla comunicazione sia sul benessere sociale ed emotivo della PWS. Per i bambini più grandi e per gli adulti, i problemi di comunicazione possono diventare così grandi da avere un impatto sulla vita sociale, sulla educazione e sulle scelte riguardanti la propria carriera. Alcune persone che balbettano sviluppano serie problematiche di tipo emotivo come depressione o ansia sociale (Blumgart, Tran & Craig, 2010; Iverach & Rapee, 2013; Koendoot, Bouwmans, Franken & Stolk, 2011; Tran, Blumgart & Craig, 2011). Durante il processo diagnostico effettuato dal Logopedista verranno poste delle domande alla pws riguardanti i comportamenti di ansia ed evitamento. Verranno compilati dei questionari che hanno lo scopo di indagare in modo dettagliato l'ansia rispetto al parlato e situazioni comunicative; questi includono la Behaviour Assessment Battery (BAB) (vedi quesito di ricerca 2). Se è evidente che l'ansia del paziente non è relativa alla balbuzie o se l'ansia è sproporzionata, allora potrebbe essere ansia sociale, come viene descritta nel sistema di classificazione diagnostica per i disordini psichiatrici (DSM-5) (Iverach & Rapee, 2013).

E' raccomandato porre delle domande riguardanti i sintomi depressivi, sia alla PWS che al CWS, durante la fase di diagnosi e/o durante il trattamento se vi sono delle indicazioni per farlo. Nelle *Multidisciplinary Depression Guideline* (2013) vi è un dibattito sui questionari da utilizzare per rilevare la depressione. E' raccomandato l'uso del questionario *Streght and Difficulties Questionnaire* (SDQ) per identificare i sintomi della depressione in bambini tra i 3 e i 13 anni. E' disponibile gratuitamente (www.sdqinfo.org).

Per adolescenti ed adulti viene raccomandata la *Four Dimensional Symptom List* (4DSL). Un altro protocollo che può essere utilizzato come strumento iniziale di screening per i sintomi depressivi è la *Depression Recognition Scale* (DRS) (Ruiter & Jong, 2010).

Bambini e adolescenti hanno un rischio maggiore di essere vittime di episodi di bullismo e sperimentare quindi reazioni negative verso la propria balbuzie ad opera dei propri pari. Questo ha conseguenze rispetto alla propria autostima e li rende vulnerabili rispetto allo sviluppo di problemi di natura psicologica nell'età adulta (Blood et al., 2010; Langervin, 2009). Logopedisti/specialisti della fluenza, che si relazionano regolarmente con bambini e adolescenti, dovrebbero fare attenzione alla presenza di eventuali atti di bullismo. Si potrebbe venire a conoscenza di tali atti ponendo delle domande rispetto al bullismo. Il seguente questionario proviene dalle *Paediatric HealthCare Guideline* (JGZ Guideline, 2012), può essere d'aiuto come guida:

Domande per individuare il bullismo:

Ti senti bene? Come ti senti a scuola?

Bullismo:

Sei stato recentemente tormentato da qualcuno o qualche volta non ti è permesso partecipare al gruppo?

Hai recentemente bullizzato qualcuno, riso di lui o gli hai detto che non gli era permesso partecipare al gruppo?

Cyberbullismo

Ricevi mai qualcosa di fastidioso sul cellulare, su internet o nei giochi online?

Mandi messaggi negativi agli altri?

Complice:

Qualche volta prendi parte ad atti di bullismo su altri bambini?

Conseguenze del Bullismo:

Sei terrorizzato o triste? Hai avuto mal di testa, mal di pancia poco appetito? Dormi bene?

Quando ci sono segni di potenziali atti di bullismo è indicata una presa in carico aggiuntiva di tipo diagnostico e/o individuale. Le *JGZ Bullying Guideline* (2012) enfatizzano l'importanza del coinvolgimento dei genitori nel determinare i percorsi di cura e nell'incoraggiare questi ultimi a discutere dei problemi di bullismo a scuola.

9.3.2 Corso della Terapia

Il logopedista, durante la terapia, adotta un approccio metodico e graduale. Una parte di esso consiste nella valutazione regolare degli obiettivi raggiunti con il paziente e/o con il suo ambiente, solitamente ogni due o tre mesi.

Un miglioramento significativo della balbuzie, nei bambini che balbettano e con età inferiore ai 6 anni, avviene in media dopo 11-12 sessioni di trattamento (Kingston, Huber, Onslow, Jones & Packman, 2003; Millard, Nicholas & Cook, 2008; Yaruss, Coleman & Hammer, 2006). Questo avviene nei trattamenti che utilizzano il *Lidcombe Program* e il *Demands and Capacities Model*, o altri metodi di questo tipo⁴³. Gli effetti di tali metodi sono forti in confronto all'assenza di trattamento (vedi capitolo 3, quesito di ricerca 3c).

Nei bambini più grandi e negli adulti c'è invece meno chiarezza riguardo il corso previsto della terapia durante un determinato periodo di tempo. Questo è dovuto al fatto che ci sono molte variabili che giocano un ruolo nella terapia stessa, come l'età della persona che balbetta, l'intensità e la frequenza della terapia offerta, il grado di severità dei problemi secondari, come ansia e comportamenti di evitamento e il supporto dell'ambiente che circonda la PWS (Manning, 2010).

E' importante che il paziente possa avere un dialogo aperto con il proprio terapeuta sia durante la valutazione dell'andamento terapia sia durante la valutazione dei risultati intermedi, in cui la pws può sentirsi libera di esprimere i suoi pensieri e i suoi punti di vista senza riserve. Questo consentirà di prendere le decisioni riguardanti gli step da seguire durante la terapia insieme al logopedista/*fluency Specialist*. ("*shared decision making*").

9.4 Dalle Evidenze alle Raccomandazioni

a. Persona che balbetta

Nel *focus group*, pws e genitori di bambini che balbettano affermano di ricevere spesso nei Paesi Bassi informazioni inadeguate rispetto alle opzioni di trattamento. Vogliono essere informati riguardo all'esistenza di specialisti della fluenza e rispetto a organizzazioni come la *Dutch Stutter Federation*, lo *Stutter Information Centre* (SIC) e il sito web *stotteren.nl*. Fornire delle informazioni corrette ai genitori dei CWS e alle PWS è necessario perché possano prendere in considerazione e determinare quale percorso di cura e quali tipi di professionisti siano più appropriati.

Un trattamento vicino a casa è preferibile per i pazienti. Lunghi viaggi possono essere un grande peso per le famiglie dei CWS e per le PWS. Per di più, il lato positivo di avere un aiuto vicino a casa è che l'operatore sanitario è consapevole dell'ambiente sociale, e probabilmente ha contatti con le organizzazioni sanitarie e con le scuole del territorio.

Il *focus group* si aspetta dai Logopedisti che mostrino comprensione rispetto ai problemi che ruotano attorno alla balbuzie in un contesto ampio, includendo fattori sociali ed emotivi. Se quindi un rinvio verso un altro professionista fosse necessario, vorrebbero saperlo per tempo ed essere supportati nella scelta di un professionista sanitario adeguato. A volte le persone sentono di essere state lasciate in attesa troppo a lungo.

⁴³Ad esempio la *Parent-Child Interaction Therapy* e la *Family Focused Treatment Approach*.

Lo stesso discorso vale per il *focus group* a proposito della politica di Medici di Medicina Generale e Pediatri: troppa poca comprensione dei fattori sociali/emotivi della balbuzie e rinvii che sono troppo tardivi e che avvengono in molti casi come ultima possibilità. Uno dei compiti del logopedista/*fluency specialist* è quello di informare i Medici di Medicina Generale e i Pediatri presenti nel proprio network di conoscenze professionali rispetto alla balbuzie, ai criteri di rinvio e alle opzioni di trattamento.

b. Logopedisti-specialisti della fluenza

Le più importanti differenze tra il Logopedista e il *Fluency Specialist* sono descritte nella tabella qui di seguito (Bezemer, Bouwen & Wilkelman, 2008):

Logopedista:

- possiede conoscenze di base sulla balbuzie
- è in grado di fornire molte informazioni “rilevanti” per il cliente
- si accorge dei primi segni, quando c’è ancora un minimo comportamento secondario acquisito
- è spesso vicino al mondo del bambino, probabilmente conosce la scuola o l’asilo nido
- ha molte conoscenze rispetto allo *speech* nel complesso e rispetto allo sviluppo del linguaggio.
- è abituato a impiegare diversi aspetti dello sviluppo nella ricerca/terapia
- ha accesso ad un numero crescente di informazioni recenti sulla balbuzie attraverso, in particolare, corsi post-professionali e revisioni della letteratura

Specialisti della Fluenza:

- possiedono delle conoscenze sugli ultimi dati di ricerca riguardanti la balbuzie
- hanno a disposizione un ampio range di approcci terapeutici per ogni fase evolutiva. Quindi la terapia può essere scelta per ciascun cliente
- è in grado di adattare l’approccio scelto sul cliente, lavorando in modo eclettico per produrre il metodo richiesto su misura
- avere più CWS in terapia vuol dire poter utilizzare altri *format* di terapia, come: sessioni da un’ora (rispetto alle sessioni di mezz’ora dei logopedisti), terapia in gruppo, sessioni di gruppo per guidare genitori e insegnanti. Questo permette il verificarsi di differenti forme di apprendimento
- possiedono un ampio range di strumenti e servizi per la ricerca e il trattamento della balbuzie e sviluppano, se richiesto, nuove strategie e materiali
- sono consapevoli delle relazioni reciproche tra balbuzie ed altri disordini
- offrono l’opzione di una seconda opinione al cliente

In questa pubblicazione le differenze tra logopedisti e specialisti della fluenza sono state, ovviamente, deliberatamente ingrandite e, in alcuni casi, alcuni logopedisti possono possedere le stesse caratteristiche degli specialisti della fluenza.

Quando si fornisce la terapia a una pws, è auspicabile che il logopedista o il *fluency specialist* siano almeno in grado di implementare gli approcci di queste linee guida. Dopotutto queste linee guida contengono raccomandazioni in merito all'assistenza logopedica ottimale per persone che balbettano in termini di diagnostica, trattamento, rinvio e follow-up, tenendo in debita considerazione lo stato attuale della letteratura scientifica e gli *insight* rispetto alla pratica professionale nel 2013. Questo significa che aspetti psicosociali come ansia (rispetto al parlato), comportamenti di evitamento e aspetti motori verbali della balbuzie sono potenziali obiettivi terapeutici. Bisognerebbe aspettarsi da un logopedista che abbia degli *insight* rispetto alle proprie capacità e approcci terapeutici, e che si assuma la responsabilità professionale di prendere dei provvedimenti nel caso in cui noti che la propria esperienza è insufficiente.

I logopedisti potrebbero quindi rinviare i propri pazienti ai *fluency specialist*, e potrebbero anche richiedere una consulenza (telefonica) o incontri di supervisione per pianificare ed implementare la terapia.

Accordo e trasferimento durante il (ri-)rinvio

Quando vi è un rinvio da parte di un logopedista verso un *fluency specialist* o verso un altro operatore sanitario a causa di problematiche di tipo sociale/emotivo e di un inadeguato raggiungimento degli obiettivi del trattamento, è importante che vi sia una richiesta chiara. Colui che rinvia il paziente chiederà il consenso alla pws di informare il Medico di Medicina Generale e il collega (a cui verrà rinvio il paziente) rispetto ai dettagli della *case history*, all'indagine in corso, alla terapia svolta e alle ragioni del rinvio. E' anche raccomandabile che gli operatori sanitari che ruotano attorno al paziente siano concordi sui dati e sui consigli che vengono forniti e che il terapeuta che rinvia rimanga entro le proprie competenze rispetto all'area di competenza del professionista sanitario a cui verrà fatto il rinvio.

Le raccomandazioni per i rinvii e le collaborazioni, come sono formulate nelle linee guida, possono essere convertite in pratica clinica in seguito alla messa in atto di accordi locali o regionali. Il documento *National First Line Collaborative Agreement* (LESA) contiene dei quesiti che potrebbero essere particolarmente rilevanti a tale proposito (Faber et al., 2008). Il *working group* ha deciso di adottarli.

Questi quesiti possono essere utilizzati come spunto di discussione per la stesura di accordi locali o regionali in merito ai rinvii per balbuzie.

- Quando dovrebbe rivolgersi i pazienti a un determinati terapisti?
- 19. La valutazione intermedia dovrebbe avvenire con un rinvio al Medico di Medicina Generale? Quali accordi sono stati messi in atto a tal proposito?
- 20. Com'è il comune accordo raggiunto per la pratica lavorativa e per le responsabilità?

21. Che accordo è stato fatto in merito alle segnalazioni e ai ri-rinvii?
22. Il materiale informativo e i consigli degli operatori sanitari sono concordi tra loro?
23. Quale terapeuta (logopedista, *Fluency Specialist* , altri terapisti) sono disponibili nella regione (Faber et al., 2008)?

Costi

Non è esattamente chiaro quali siano i costi di un tempestivo o ritardato rinvio ad un appropriato operatore sanitario o terapeuta, tuttavia è plausibile che continuare la terapia senza il risultato desiderato aumenterà i costi.

Raccomandazioni

Expertise

18. Il Logopedista deve essere in grado di mettere in pratica le raccomandazioni riportate in queste linee guida rispetto agli approcci diagnostici e terapeutici. Se il logopedista non ha l'esperienza e le conoscenze per farlo, il cliente deve essere orientato a rivolgersi ad un altro logopedista più competente nel campo della balbuzie o ad un *Fluency Specialist*.

Problematiche di tipo sociale/emotivo

19. Dove si sospetta ansia o depressione sociale nel balbuziente, basandosi sui risultati della *Behaviour Assessment Battery* (BAB), il Logopedista o il *Fluency Specialist* deve consolidare questo sospetto attraverso la somministrazione dello *Strength and Difficulties Questionnaire*⁴⁴ o della *Four Dimensional Symptoms List*. A seguito di un'indicazione positiva in tal senso, il logopedista o il *Fluency specialist* dovrebbe consultarsi con la PWS o i genitori per essere rinvio al Medico di Medicina Generale per un rinvio potenziale a uno psicologo o a uno psichiatra.

20. In caso di bambini o di giovani balbuzienti, il Logopedista dovrebbe indagare il problema del bullismo. Ciò potrebbe includere l'utilizzo di un questionario adatto per il bullismo. Se viene identificato bullismo, il Logopedista dovrebbe parlarne con i genitori e concordare un piano di azione.

⁴⁴Scaricabile gratuitamente nella versione italiana (Andrea De Giacomo, Paola Dazzan, Loreta Bernardi) al seguente link: <http://www.sdqinfo.org/py/sdqinfo/b3.py?language=Italian>

21. Durante la valutazione, il Logopedista fornirà le informazioni alla PWS sulle opzioni del trattamento al fine di permettere una scelta informata relativa a quest'ultimo. Il Logopedista dovrebbe fornire informazioni relative ad altre fonti rilevanti e siti internet importanti.

Corso della terapia

22. Se un bambino che balbetta fino all'età di 6 anni non ha fatto progressi con 11 -12 sedute di terapia o nell'arco di 3 mesi, bisognerebbe consultare un *Fluency Specialist*.

23. Se durante le valutazioni del processo terapeutico, effettuate ogni 2 o 3 mesi, gli obiettivi di trattamento realistici e realizzabili non sono stati raggiunti a sufficienza (secondo la PWS o il Logopedista), il Logopedista dovrebbe discutere della possibilità di rinviare il paziente ad un altro professionista.

Trasferimento e accordo sul rinvio

24. Il Logopedista e le altre figure professionali coinvolte con la PWS in una regione specifica instaurano un accordo di lavoro relativo alla collaborazione, al rinvio e al trasferimento di informazioni. Quando il paziente viene rinvio ad un altro logopedista o ad un *Fluency Specialist*, il Logopedista formula domande specifiche che includono tutti gli elementi ICF importanti.

Razionale per le Raccomandazioni

- La complessità della balbuzie e le problematiche di tipo sociale/emotivo associate richiedono capacità particolari da parte del terapeuta.
- Non è desiderabile continuare con una terapia che sta avendo un effetto insufficiente.
- Un miglioramento significativo della balbuzie, nei bambini che balbettano e con età inferiore ai 6 anni, avviene in media dopo 11-12 sessioni di trattamento (Kingston, Huber, Onslow, Jones & Packman, 2003; Millard, Nicholas & Cook, 2008; Yaruss, Coleman & Hammer, 2006).
- Alcune persone che balbettano sviluppano serie problematiche di tipo emotivo come depressione o ansia sociale (Blumgart, Tran & Craig, 2010; Iverach & Rapee, 2013; Koendoot, Bouwmans, Franken & Stolk, 2011; Tran, Blumgart & Craig, 2011).
- Bambini e adolescenti hanno un rischio maggiore di essere vittime di episodi di bullismo e sperimentare quindi reazioni negative verso la propria balbuzie ad opera dei propri pari (Blood et al., 2010; Langevin, 2009).
- Il *fluency specialist* possiede competenze aggiuntive nel trattamento della balbuzie

- Il logopedista o il *fluency specialist* non sono in grado di affrontare problematiche di tipo sociale/emotivo gravi o complesse, indipendentemente dal fatto che queste siano causate dalla balbuzie.
- E' raccomandato l'uso del questionario *Streght and Difficulties Questionnaire* (SDQ) per effettuare uno screening delle problematiche di tipo sociale/emotivo in bambini tra i 3 e i 13 anni. Questo è uno strumento semplice da utilizzare ed è disponibile gratuitamente (www.sdqinfo.org).
- La *Four Dimensional Symptom List* (4DSL) o la *Depression Recognition Scale* (DRS) sono raccomandate per effettuare uno screening delle problematiche di tipo sociale/emotivo in adolescenti ed adulti (Ruiter & Jong, 2010).

Riferimenti

1. Landelijke Stuurgroep Multidisciplinaire Richtlijnontwikkeling in de GGZ en Trimbos Instituut. (2014). Opgeroepen op februari 20, 2014, van [www.ggzrichtlijnen.nl](http://www.ggzrichtlijnen.nl/index.php?pagina=/richtlijn/pagina.php&fSelectTG_3=4&fSelectedSub=3&fSelectedParent=4)
2. Bezemer, M., Bouwen, J., & Winkelman, C. (2008). Achtergronden en ontwikkeling van stottertherapie: logopedische therapie of vrije markt? *Logopedie*, 12, 380-386.
3. Blood, G. W., Boyle, M. P., Blood, I. M., & Nalesnik, G. R. (2010). Bullying in children who stutter: Speech-language pathologists' perceptions and intervention strategies. *Journal of Fluency Disorders*, 35, , 92-109.
4. Blumgart, E., Tran, Y., & Craig, A. (2010). Social anxiety disorder in adults who stutter. *Depression and Anxiety*, 27, , 687-692.
5. CBO. (2013). Verslag focusgroepbijeenkomst personen die stotteren.
6. Faber, E., Custers, J., Van Ederen, C., Bout, J., Cinjee, G., Kolnaar, B., et al. (2008). Landelijke Eerstelijns Samenwerkings Afspraak Aspecifieke lage rugpijn. *Huisarts Wet*, 51 (9), 5-9.
7. Iverach, L., & Rapee, R. M. (2013). Social anxiety disorder and stuttering: Current status and future directions. *Journal of Fluency Disorders*, <http://dx.doi.org/10.1016/j.jfludis.2013.08.003>.
8. Kingston, M., Huber, A., Onslow, M., Jones, M., & Packman, A. (2003). Predicting treatment time with the Lidcombe Program: replication and meta-analysis. *Int J Lang Commun Disord*, 38(2),, 165-177.
9. Koedoot, C., Bouwmans, C., Franken, M., & Stolk, E. (2011). Quality of life in adults who stutter. *Journal of Communication Disorders*, 44 , 429-443.
10. Langevin, M. (2009). The Peer Attitudes Toward Children who Stutter scale: Reliability, known groups validity, and negativity of elementary school-age children's attitudes. *Journal of Fluency Disorders*, 34 , 72-86.
11. Manning, W. (2010). *Clinical Decision Making in Fluency Disorders*. Delmar: Cengage Learning.
12. Millard, S. K., Nicholas, A., & Cook, F. M. (2008). Is Parent-Child Interaction Therapy Effective in Reducing Stuttering? *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 51,, 636-650.
13. Tran, Y., Blumgart, E., & Craig, A. (2011). Subjective distress associated with chronic

- stuttering. *Journal of Fluency Disorders*, 36, 17-26.
14. Yaruss, J. S., Coleman, C., & Hammer, D. (2006). Treating Preschool Children Who Stutter: Description and Preliminary Evaluation of a Family-Focused Treatment Approach. *Language, Speech, and Hearing Services in Schools*, 118-136.

Capitolo 10 - Come dovrebbe essere organizzato e realizzato l'aftercare?

10.1 Introduzione

La balbuzie è un disturbo complesso. I miglioramenti dello *speech*, conquistati attraverso le varie tecniche e/o i cambi di attitudine descritti precedentemente, sono forse più facilmente raggiungibili nel setting clinico, ma applicarli e mantenerli nella vita quotidiana è spesso complesso. Infatti frequentemente si hanno delle recidive e si riscontrano dei benefici significativi solo nelle PWS che riescono a interiorizzare e trasferire nel quotidiano la terapia (ad esempio nelle situazioni sociali); la PWS deve diventare il terapeuta di se stesso/a.

L'Aftercare, ovvero il periodo post-terapia, è quindi di cruciale importanza in questo processo. Il *Focus Group* ha sollevato il problema che tale periodo non sia stato adeguatamente definito. Sia la *Dutch Stutter Association Demosthenes* che la *Dutch Association for Stutter Therapy (NVST)* sostengono che l'aftercare richieda un approccio programmatico. I concetti di *aftercare* e di auto-aiuto devono essere chiaramente distinti l'uno dall'altro in tale processo.

10.2 Metodologia

Non è stata effettuata una revisione della letteratura per rispondere al quesito principale. È stato utilizzato un report di un incontro del Focus Group (CBO, 2013) per descrivere la prospettiva del paziente. Per descrivere la prospettiva del professionista sono state utilizzate l'esperienza, la conoscenza e le opinioni dei membri del *working group*, logopedisti/specialisti della fluenza.

Definizioni di *aftercare* e auto-aiuto

I concetti di *aftercare* e auto-aiuto (*self-help*), non sono sempre stati distinti chiaramente tra loro nella letteratura riguardante la balbuzie. In queste linee guida la concezione di *aftercare* utilizzata dal *working group* è stata tratta dal Van Dale, dizionario Olandese, che la definisce come "*il percorso che segue la fine della terapia perseguita*". La sua messa in atto operativa dipende dalle circostanze individuali della pws o dal bambino che balbetta. L'iniziativa per intraprendere tale percorso può provenire sia dalla persona che balbetta che dal logopedista o dal *fluency specialist*. Il *Dutch Council for Healthcare Quality* definisce l'aftercare come "*L'insieme di misure volte al restituire al paziente una situazione più normale possibile, con la massima indipendenza possibile. L'aftercare può comprendere misure fisiche, psicologiche e sociali*". Il *working group*, in queste linee guida, concepisce l'aftercare come: il percorso che segue la fine della terapia con la assistenza sanitaria associata e gli appuntamenti post-terapia. La definizione sopra

riportata fornisce un'indicazione su come dovrebbe essere organizzato un programma post-terapia da parte di un logopedista o di un *fluency specialist*.

Per chiarire la distinzione tra *aftercare* e auto-aiuto, il *working group* seguirà la seguente definizione di “*self-help*” utilizzata dal *Dutch Council*: “*Un modo di fornire aiuto basato sul principio che le persone sono capaci di aiutare loro stesse e aiutarsi tra loro attraverso la consapevolezza, lo scambio di esperienze simili, così come attraverso la partecipazione ad attività*” (*Dutch Council for Healthcare Quality*, 2013). Parlando di *self-help*, anche i termini “auto-aiuto/gruppo di mutuo aiuto” e “gruppo di supporto” non sono sempre distinti nella letteratura internazionale. Nei Paesi Bassi, i gruppi di autoaiuto esistenti e, per esempio, gli “*stutter cafes*”, sono patrocinati dalla *Dutch Stutter Association Demosthenes* e sono molto importanti per l'auto-aiuto all'interno del paese.

Approccio Programmatico: definizioni e concetti

Nel suo “*Advice regarding Aftercare in Oncology*”, il *Dutch Health Council* ha discusso della “*stesura di una relazione al termine del trattamento e durante la programmazione dell'aftercare, che possa essere messa a disposizione del paziente, del Medico di Medicina Generale e delle altre parti interessate. Un piano di aftercare come questo contiene più che la mera progettazione dell'aftercare. Esso contiene almeno informazioni rispetto le conseguenze fisiche e psicosociali della malattia e del trattamento, alla desiderabilità e al design dell'aftercare e della sua revisione, e riflessioni e considerazioni su eventuali punti rimanenti di particolare rilevanza*”.

Aftercare di buona qualità

Gli obiettivi di un *aftercare* di buona qualità sono stati definiti con uno schema (*Institute Of Medicine*, 2001), nelle *Oncology Care Guideline* (www.oncoline.nl/dimensies, datate 2 Novembre 2013). Il *working group* ha adottato tale schema per descrivere la buona qualità di un *aftercare* rispetto alla balbuzie. I principi di tale schema possono essere utilizzati da logopedisti o specialisti della fluenza nel tracciare un piano di assistenza post-trattamento per la balbuzie.

Dimensione della Qualità	Qualità focalizzata sul paziente	Qualità professionale	Qualità organizzativa
Buona assistenza post-trattamento per la balbuzie	Promuove qualità della vita, funzionamento quotidiano e auto-sufficienza del paziente	E' basata sulle conoscenze più aggiornate dalla scienza (evidenze) e dalla professione (opinione degli esperti)	E' integrata con la terapia logopedica per la balbuzie come componente strutturale del continuum di assistenza

	E' un'assistenza differenziata che si collega ai bisogni (fisici, psicologici, sociali) e alle preferenze del paziente (assistenza su misura)	E' offerta con il miglior livello di competenza	E' accessibile ad ogni paziente
	E' basata sull'autonomia e l'auto-determinazione del paziente e sulla sua partecipazione attiva	E' offerta in/con comunicazione aperta	E' un'assistenza coordinata con un contatto permanente per il paziente
	E' rispettosa	E' mirata ed efficace	E' sicura

10.3 Evidenze

Viene riportata regolarmente la presenza di recidive in ex balbuzienti. Questo dato emerge, in particolare, in un sondaggio condotto sui membri (adulti) della *National Stuttering Association* (NSA), con lo scopo di esplorare le esperienze con gruppi di supporto o con gruppi di supporto e trattamento logopedico (Yaruss et al., 2002).

Le recidive sono presenti in tutte le fasce d'età e questo sottolinea ulteriormente l'importanza di concentrarsi sull'inclusione dell'*aftercare* nel processo terapeutico. Un'adeguata *aftercare* soddisfa i bisogni della pws - anche se questo non è stato sperimentato esplicitamente in prima istanza (Bezemer, Bouwen & Winkelman, 2010; Manning, 2010).

L'ambiente della persona che balbetta dovrebbe essere coinvolto negli stadi iniziali del trattamento; questo dovrebbe avvenire preferibilmente all'inizio della terapia, ma dovrebbe certamente essere indicato nelle fasi di trasferimento, mantenimento e nel piano di assistenza post-trattamento.

Un piano di *aftercare* organizzato sotto forma di terapia "open end" può essere piacevole durante le fasi finali della terapia "the door is ajar" (*Focus Group*, incontro del 17 Aprile 2013).

L'incontro tra gruppi di pari (inclusi, in particolare, l'associazione *Demosthenes, Dutch Stutter Association*) è un'esperienza che ha particolare valore, soprattutto per adolescenti ed adulti; la realizzazione del fatto che vi siano altre persone con problemi comparabili ai propri può avere infatti un significativo effetto chiarificatore (Boyle, 2013). Tali incontri potrebbero andare a formare una componente della terapia (terapia di gruppo), o potrebbero essere molto utili alla fine della terapia stessa (per esempio, come gruppi di auto-aiuto o *stutter cafes*). La partecipazione a questi gruppi è incoraggiata, sostanzialmente è considerabile come una risorsa illimitata, e inoltre potrebbe essere utile, per i partecipanti, disegnare un piano d'azione o degli obiettivi da raggiungere insieme. In questo caso potrebbero essere rilevanti i fattori secondari (ad esempio, la distanza).

L'*aftercare*, rifinita su misura, organizzata e modellata direttamente dopo la terapia, preparata in modo tempestivo e disponibile per due anni dopo la terapia stessa, soddisfa le esigenze delle PWS ed è di grande importanza nella gestione di balbuzie.

10.4 Dalle Evidenze alle Raccomandazioni

10.4.1 Effetti desiderati e indesiderati dell'*Aftercare* comparato all'Auto-aiuto

I Logopedisti e i *Fluency Specialist* vedono l'*aftercare* come una parte molto importante della terapia. Ciò nonostante, è difficile metterla in pratica nel setting clinico. Questa difficoltà sembra associata con un ridotto grado di *ill-health*, *cost-savings* nella sanità, e con l'assenza di un chiaro piano di *aftercare* per tutti (Klink, 2013).

La partecipazione ai gruppi di supporto può essere correlata al piano di assistenza sanitaria (gruppi guidati da professionisti sanitari) o può anche essere una forma di auto-aiuto. Un potenziale effetto indesiderato per la pws potrebbe essere che tale distinzione non sia sempre chiara. Nei Paesi Bassi le compagnie di assicurazione contribuiscono a questa mancanza di chiarezza rimborsando alcune forme di sessioni di gruppo, senza che però vi sia all'interno l'intervento di un operatore sanitario addestrato e competente. Quando una persona cerca un aiuto sotto forma di sessioni di gruppo è consigliabile che abbia sufficienti informazioni a riguardo in anticipo; viene consigliata la lettura e l'utilizzo dei consigli pubblicati dalla *International Stuttering Association (ISA)* rispetto alle domande che devono essere poste al proprio terapeuta.

<http://www.isastutter.org/resources/declaration-for-stuttering-treatment>

10.4.2 Prospettive del Professionista e del Paziente

Il logopedista/*fluency specialist* adotta un approccio metodologico e graduale per la terapia; una parte di essa è l'assistenza post-trattamento. Un approccio programmatico verso l'*aftercare* cade sotto l'ombrello della qualità di cura per la balbuzie. Il logopedista/*fluency specialist* dovrebbe stabilire un supporto personalizzato e mirato come base per l'assistenza post-trattamento durante la terapia. Esso può essere

multidisciplinare: a volte è necessario un supporto (temporaneo) per collegare i bisogni (fisici, psicologici, sociali) e le preferenze della pws. L'attenzione sull'autogestione del paziente è molto importante come parte della assistenza (post-trattamento) dei pazienti ed è di crescente interesse per l'assistenza sanitaria (Engels & Kistenmaker, 2009). Oltre a questo l'*aftercare* può essere organizzata nel contesto dell'auto-aiuto o attraverso la telemedicina (es. <http://www.stotters.nl/>) - la pws ha il suo/la sua personale terapeuta virtuale, che a volte può essere un'estensione del proprio/della propria terapeuta.

Secondo le *Oncology Care Guideline* (www.oncoline.nl) nei Paesi Bassi o in Europa c'è stata poca ricerca specifica sul modo in cui l'assistenza post-trattamento debba essere organizzata in modo ottimale; comunque, l'individualizzazione è certamente un suo aspetto importante. I pazienti richiedono un *follow up* che sia adeguato alla loro situazione vogliono essere in grado di contribuire alle decisioni prese (Cardella et al., 2017). Le scelte di tipo medico dovrebbero essere effettuate dallo specialista in consultazione con il paziente (Milliat-Guittard et al., 2007).

10.4.3 Costi e Aftercare

I costi esatti dell'*aftercare* rispetto alla balbuzie non sono conosciuti. I contatti fra gruppi di pari sono spesso di natura volontaria e hanno un costo minimo.

E' plausibile che un'inadeguata pianificazione della *aftercare* aumenti il rischio di recidiva. Questo sta a significare che, solitamente, la PWS tornerebbe un'altra volta in trattamento nel corso del tempo, e quindi che ne conseguirebbe un ulteriore costo. Pur non essendo chiaro il costo della *aftercare* sembra logico che sia comunque inferiore al costo di un nuovo trattamento.

Raccomandazione

25. Qualsiasi approccio alla balbuzie deve includere metodi che promuovano effetti a lungo termine e che affrontino possibili ostacoli. Il modo in cui il *follow-up*, parte integrante del processo terapeutico, viene organizzato è definito dal logopedista e dalla PWS, in collaborazione con il suo ambiente. Alla fine del trattamento clinico, il logopedista propone un *follow up* individualizzato che dura 2 anni. Al fine di impedire ricadute e per promuovere gli effetti a lungo termine, il logopedista suggerisce alla PWS e al suo ambiente di mettersi in contatto con altre persone che balbettano, ad esempio attraverso attività organizzate da associazioni di pazienti.

Razionale per le raccomandazioni

- La recidiva si verifica frequentemente, e solo se la PWS ha interiorizzato il trasferimento della terapia in situazioni non cliniche (cioè durante la partecipazione

alla società) e ha un piano di *aftercare* a portata di mano, possono essere raggiunti benefici significativi.

- I concetti *aftercare* e auto-aiuto non sono sempre chiaramente distinti gli uni dagli altri nella letteratura sulla balbuzie.
- È necessario definire gli obiettivi di una *aftercare* di buona qualità.
- Nella letteratura sulla balbuzie e nella pratica clinica la durata usuale e auspicabile dell'assistenza post-trattamento è di due anni.
- Il *working group* non è stato in grado di stabilire stime accurate sui costi dell'*aftercare* nella stesura di queste raccomandazioni, principalmente a causa della mancanza di informazioni sui costi correnti.

Riferimenti

1. Bezemer, M., Bouwen J., Winkelman, C, (2010), *Stotteren Van theorie naar therapie* (tweede herziene druk) ,blz 115-120
2. Boyle, Michael P. (2013). Psychological characteristics and perceptions of stuttering of adults who stutter with and without support group experience, *Journal of Fluency Disorders* in press
3. Cardella J, Coburn N, et al. (2008). Compliance, attitudes and barriers to post-operative colorectal cancer follow-up. *J Eval Clin Pract.* 14: 407-15
4. Cox K, Wilson E, Heath L, Collier J, Jones L, Johnston I. (2006). Preferences for follow-up after treatment for lung cancer - assessing the nurse-led option. *Cancer Nurs.* 29(3): 176-86.
5. Engels, J., Kistemaker, W., Zelfmanagement helpt zieke vooruit. Medisch Contact | 10 December 2009 | 64 nr. 50J.Klink, A. in *Coöperatie VGZ Magazine, Vijf visies op zorg*, okt 2013, pag. 10-11.
6. Institute of Medicine (IOM). *Crossing the Quality Chasm: A new Health System for the 21st Century.* Washington Dc; National Academies press, 2001.
7. Klink, A. (2013). Vijf visies op zorg. *Coöperatie VGZ Magazine*, pag. 10-11
8. Manning W.H. (2010). *Clinical Decision Making in Fluency Disorders*, third edition, page 475-476, 577- 600.
9. Milliat-Guittard L, Charlois AL, Letriliart L, Favrel V, Galand-Desme S, Schott AM, Berthoux N, Chapet O, Mere P, Colin C. (2007). Shared medical information: expectations of breast cancer patients. *Gynecol Oncol.* 107(3):474-81.
10. Regieraad Kwaliteit van Zorg. <http://glossarium.regieraad.nl/Zelfhulp> d.d. 2 November 2013. <http://glossarium.zorginstituutnederland.nl/Zelfhulp.html>
11. Yaruss, Scott, Robert W. Quesal, Lee Reeves, Lawrence F. Molt (2002). Speech treatment and support group experiences of people who participate in the National Stuttering Association, *Journal of Fluency Disorders* 27 115–134.
12. Verslag focusgroepbijeenkomst 17 april 2013.
13. Williams, Dean E. Ph.D. Working with children in the school environment (excerpt) from *Stuttering Therapy: Transfer and Maintenance*. Copyright (c) 2010 Stuttering Foundation of America. Versie 22 november 2013.

APPENDICE 1: Valutazione dello studio

Nome del revisore: Hans de Beer. Data: 11-02-2013

Titolo: Stuttering Treatment Research 1970-2005 (I + II). Autori: Bothe et al. Fonte: Am J of Speech-language Patology 15 (2006).

Quesito di ricerca: redigere una revisione sistematica, incorporando una valutazione della qualità dei *trials*, delle ricerche pubblicate sui trattamenti farmacologici, comportamentali, cognitivi (e correlati) per la balbuzie. Gli obiettivi includevano l'identificazione delle raccomandazioni di trattamento e delle esigenze di ricerca sulla base delle evidenze di alta qualità disponibili.

Giudizio sulla validità:

METODI

1. La domanda di ricerca è stata formulata correttamente?

Sì

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

2. La ricerca è stata condotta correttamente?

Sì (commento: nessuna ricerca in *Cinahl*, mancano alcune parole chiave come *stammering* o *dysfluency*)

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

3. La procedura di selezione degli articoli è stata eseguita correttamente?

Sì

No (descrivere come la procedura di selezione non è stata eseguita correttamente? Da 1 o 2 persone?)

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

4. La valutazione della qualità è stata eseguita correttamente?

Sì (anche se non interamente; ad esempio non era molto trasparente)

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

5. Esiste una descrizione adeguata di come è stata eseguita l'estrazione dei dati?

Sì

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

6. Sono state descritte le caratteristiche più importanti degli studi originali?

Sì (ma solo moderatamente, poiché gli interventi e i gruppi di pazienti non sono stati descritti in dettaglio)

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

7. L'eterogeneità clinica e statistica negli studi è stata gestita correttamente?

Sì

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

8. Il raggruppamento (pooling) statistico è stato condotto nel modo corretto?

Sì / non applicabile (non è stato effettuato il raggruppamento, che è corretto a causa dell'eterogeneità)

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

Conclusione: revisione sistematica ragionevolmente buona

Categorizzazione della qualità metodologica delle revisioni sistematiche:

Punteggio di 7-8 (7-8 x risposte sì): buono

Punteggio di 6: ragionevolmente buono

Punteggio ≤ 5 : moderato

Nome del revisore/valutatore: Hans de Beer. Data: 19-03-2013

Titolo: Effectiveness of Behavioral Stuttering Treatment: A Systematic Review and Meta-Analysis

Autori: Herder et al. Fonte: CONTEMPORARY ISSUES IN COMMUNICATION SCIENCE AND DISORDERS • Volume 33 • 61-73 • Primavera 2006

Quesito di ricerca: lo scopo del presente studio era condurre una revisione sistematica e una meta-analisi dell'efficacia dei trattamenti di balbuzie comportamentali per le persone che balbettano.

Valutazione della validità:

Breve descrizione delle categorie di pazienti: quelli che sono stati diagnosticati come persone che balbettano utilizzando etichette quali *stuttering* o *stammering*.

Breve descrizione dell'/degli intervento/i valutato/i: tutti gli studi inclusi hanno utilizzato un intervento basato sul trattamento comportamentale come metodo per migliorare gli *speech behaviours*.

Breve descrizione del/dei trattamento/i di controllo: tutti gli studi inclusi hanno identificato sia gruppi sperimentali che di controllo (o di confronto) a cui i partecipanti sono stati assegnati prima dell'intervento. Un gruppo di controllo è definito come una condizione di non trattamento; un gruppo di confronto è definito come una condizione di trattamento alternativo.

METODI

1. La domanda di ricerca è stata formulata correttamente?

Sì

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

2. La ricerca è stata condotta correttamente?

Sì

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

3. La procedura di selezione degli articoli è stata eseguita correttamente?

Sì

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

4. La valutazione della qualità è stata eseguita correttamente?

Sì

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

5. Esiste una descrizione adeguata di come è stata eseguita l'estrazione dei dati?

Sì

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

6. Sono state descritte le caratteristiche più importanti degli studi originali?

Sì

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

7. L'eterogeneità clinica e statistica negli studi è stata gestita correttamente?

Sì

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

8. Il raggruppamento (pooling) statistico è stato condotto nel modo corretto?

Sì / non applicabile

No

Troppe poche informazioni nell'articolo per rispondere

Conclusioni: Revisione sistematica di qualità moderata

Categorizzazione della qualità metodologica delle revisioni sistematiche:

Punteggio di 7-8 (7-8 x risposte sì): buono

Punteggio di 6: ragionevolmente buono

Punteggio ≤ 5 : moderato

APPENDICE 2: Tabella sulle Evidenze di Efficacia degli Interventi Comportamentali

Study (1 st author, year of publication)	Randomisation adequate?	Allocation concealed?	Groups similar at baseline?	Patient blinded?	Care provider blinded?	Outcome assessor blinded?	Co-interventions avoided/similar?	Compliance acceptable?	Drop-out rate described/acceptable?	Timing outcome assessment similar?	Intention to treat analysis?	No selective reporting of outcome?	Risk of bias per study per outcome measure
Perkins 1974 (N=44;	-	-	-	NA	NA	-	?	?	-	+	+	+	Speech tempo: <i>high</i> Stutter frequency: <i>high</i> SEC-variables: <i>high</i>
James 1989 (N=24; 4 drop-outs)	-	-	-	NA	NA	-	?	?	±	+	+	+	Speech tempo: <i>high</i> Stutter frequency: <i>high</i>
Ladouceur 1986 (N=16)	-	-	?	NA	NA	-	?	?	?	+	+	+	Speech tempo: <i>high</i> Stutter frequency: <i>high</i>
Miltenberger 1996 (N=2)	-	-	-	NA	NA	-	?	?	+	+	+	+	Speech tempo: <i>high</i> Stutter frequency: <i>high</i>
Saint-Laurant 1987 (N=40)	+	-	?	NA	NA	+	+	?	+	-	+	+	Speech tempo: <i>moderate</i> Stutter frequency: <i>moderate</i>
Ost 1976 (N=15)	±	-	?	NA	NA	+	+	?	+	+	+	+	Speech tempo: <i>moderate</i> Stutter frequency: <i>moderate</i>
Carey et al (2010)	+	+	+	NA	NA	+	+	+	+	+	+	?	(speech tempo not evaluated) Stutter percentage: <i>low</i>
Cream et al (2010)	+	+	+	NA	+	+	+	-	+	+	+	+	All outcomes (see text): <i>low to moderate (due to limited compliance)</i>

Study (1 st author, year of publication)	Randomisation adequate?	Allocation concealed?	Groups similar at baseline?	Patient blinded?	Care provider blinded?	Outcome assessor blinded?	Cointerventions avoided/similar?	Compliance acceptable?	Drop-out rate described/acceptable?		Timing outcome assessment similar?	Intention to treat analysis?	No selective reporting of outcome?	Risk of bias per study per outcome measure
Menzies et al (2008)	+	?	-	NA	NA	+	+	?	-	(>20%)	+	-	+	Stutter frequency: moderate Social anxiety: moderate
Huinck et al (2004)	-	-	-	NA	NA	?	+	+	-		+	-	+	For all outcome measures: moderate/high

APPENDICE 3 – Tabella sulle Evidenze di Efficacia degli Interventi di Cognitivo – Comportamentali

¹ Not all studies were randomised trials, but there were no observational studies either.

² Most studies were not randomised. The outcomes were not ascertained blind in the majority of studies. There is uncertainty about the comparability of groups.

³ There was considerable variance in outcomes for the individual studies.

⁴ This is difficult to determine as the data are lacking to produce a combined estimate.

⁵ This relates to the total number of evaluated trial participants.

Author(s): Hans de Beer. Date: 2013-03-06

Question: Should behavioural and cognitive approaches be used for stuttering?

Bibliography: Bothe et al. Stuttering Treatment Research 1970-2005: I. Systematic Review Incorporating Trial Quality Assessment of Behavioral, Cognitive, and Related Approaches, American Journal of Speech-Language Therapy, 15, 321-341.

Quality assessment							No of patients		Effect		Quality	Importance
No of studies	Design	Risk of bias	Inconsistency	Indirectness	Imprecision	Other considerations	Behavioural and cognitive approaches	Control	Relative (95% CI)	Absolute		
Stuttered syllables (follow-up >=6 months; Better indicated by higher values)												
6	randomised trials ¹	serious ²	serious ³	no serious indirectness	no serious imprecision ⁴	None	141 ⁵	-	-	not pooled	LOW	CRITICAL
Number of syllables per minute (follow-up >=6 months; Better indicated by lower values)												
6	randomised trials ¹	serious ²	serious ³	no serious indirectness	no serious imprecision ⁴	None	141 ⁵	-	-	not pooled	LOW	CRITICAL

APPENDICE 4: Overview della ricerca bibliografica sulla balbuzie

File Name	Number
med 20120730 speech and language therapy guidelines na 1995	13*
med 20120731 aanvulling speech and language therapy guidelines na 1995	13*
psy 20120731 speech and language therapy guidelines na 1995	33*
cl systrev 20120808 speech and language systrev	13
med 20120730 speech and language therapy systrev na 1995	111
psy 20120808 speech and language developmental systrev na 1995	29
emb 20120808 speech and language therapy guidelines vanaf 1995	64
emb 20120808 speech and language therapy systrev vanaf 1995	11
cin 20120809 speech guidelines	10*
cin 20120809 speech systematic reviews	37
Update van 12 feb 2013	
med 20130212 stotteren systrev na 1995	2
med 20130212 stotteren rct na 1995	99
psy 20130212 stotteren systrev trials na 1995	107
emb 20130212 P stotteren trials systrev	94
cin 20130212 P stotteren systrev	6
cin 20130212 P stotteren trials	10

* These were not easily usable in this guideline.

Search action of 20120730

Database: Ovid MEDLINE(R) In-Process & Other Non-Indexed Citations and Ovid MEDLINE(R) <1946 to Present>

Search Strategy:

-
- 1 "stotteren richtlijnen".ti. (0)
 - 2 exp "rehabilitation of speech and language disorders"/ (7997)
 - 3 guideline/ or practice guideline/ (22758)
 - 4 (speech adj therap*).ti. (549)
 - 5 Speech Therapy/ (4799)
 - 6 Language Therapy/ (1105)
 - 7 4 or 5 or 6 (5602)
 - 8 guidelin*.ti. (42983)
 - 9 3 or 8 (56465)
 - 10 7 and 9 (22)
 - 11 10 (22)
 - 12 limit 11 to yr="1995 -Current" (14)
 - 13 2 and 9 (22)
 - 14 13 (22)

15 limit 14 to yr="1995 -Current" (13)
16 exp Stuttering/ (2891)
17 stutter*.tw. (3251)
18 stammer*.tw. (265)
19 fluency disorders.mp. (41)
20 dysfluen*.tw. (213)
21 non-fluen*.tw. (285)
22 (language adj3 thera*).tw. (1201)
23 (speech adj therap*).tw. (1926)
24 2 or 5 or 6 or 16 or 17 or 18 or 19 or 20 or 21 or 22 or 23 (13404)
25 9 and 24 (39)
26 25 not 10 (17)
27 26 (17)
28 limit 27 to yr="1995 -Current" (14)
29 from 15 keep 1-13 (13)
30 from 28 keep 1-14 (14)
31 (dutch or english or french or german).la. (18765055)
32 24 and 31 (12119)
33 32 (12119)
34 limit 33 to yr="1995 -Current" (6136)
35 "med091027 CBO filter sysrev & meta Medline START".ti. (0)
36 meta analysis.pt. (35060)
37 (meta-anal\$ or metaanal\$).af. (62641)
38 (quantitativ\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (3692)
39 (systematic\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (43338)
40 (methodologic\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (5233)
41 medline.tw. and review.pt. (33113)
42 (pooled adj3 analy*).tw. (6029)
43 or/36-42 (117710)
44 "med091027 CBO filter sysrev & meta Medline EINDE".ti. (0)
45 34 and 43 (142)
46 (language adj3 thera*).tw. (975)
47 (speech adj3 therap*).tw. (1926)
48 4 or 5 or 6 or 16 or 17 or 18 or 19 or 20 or 21 or 46 or 47 (10784)
49 31 and 48 (9846)
50 49 (9846)
51 limit 50 to yr="1995 -Current" (4941)
52 43 and 51 (115)

Search of 20130212

Database: Ovid MEDLINE(R) In-Process & Other Non-Indexed Citations and Ovid MEDLINE(R) <1946 to Present>

Search Strategy:

1 "ontwikkelings stotteren opbouw zoekactie".ti. (0)
 2 (speech adj therap*).ti. (561)
 3 Speech Therapy/ (4871)
 4 Language Therapy/ (1134)
 5 exp Stuttering/ (2918)
 6 stutter*.tw. (3282)
 7 stammer*.tw. (267)
 8 fluency disorders.mp. (41)
 9 dysfluen*.tw. (214)
 10 non-fluen*.tw. (290)
 11 (language adj3 ther*).tw. (1257)
 12 (speech adj therap*).tw. (1985)
 13 or/2-12 (11147)
 14 "P voor stotteren".ti. (0)
 15 guidelin*.ti. (44111)
 16 guideline/ or practice guideline/ (23179)
 17 (dutch or english or french or german).la. (18999648)
 18 13 and (15 or 16) and 17 (38)
 19 limit 18 to yr="1995 -Current" (28)
 35 "med091027 CBO filter sysrev & meta Medline START".ti. (0)
 21 meta analysis.pt. (36967)
 22 (meta-anal\$ or metaanal\$).af. (66218)
 23 (quantitativ\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (3867)
 24 (systematic\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (47091)
 25 (methodologic\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (5405)
 26 medline.tw. and review.pt. (34357)
 27 (pooled adj3 analy*).tw. (6385)
 28 or/21-27 (124498)
 29 "med091027 CBO filter sysrev & meta Medline EINDE".ti. (0)
 30 13 and 17 and 28 (151)
 31 limit 30 to yr="1995 -Current" (143)
 32 developmental.ti. (40859)
 33 developmental.tw. (166702)
 34 Developmental Disabilities/ (13319)
 35 speech disorders/ or stuttering/ (12206)
 36 35 and (33 or 34) (660)
 37 ((stutter* or fluency* or stammer* or clutter*) adj3 developmental).tw. (159)
 38 (dysfluen* adj3 developmental).tw. (6)
 <t score="N/A"> (435)
 40 (d?sfluen* adj3 developmental).tw. (13)
 41 (early adj stutter*).tw. (47)
 42 or/36-41 (1091)
 43 13 and (33 or 34) (604)
 44 42 or 43 (1408)
 45 (child??? or childhood or infant* or p?ediatr* or perinat* or neonat* or newborn* or

infan* or boy? or girl? or kid? or schoolage* or juvenil* or adolescen* or toddler?).tw.
(1558274)
46 exp Child/ (1456397)
47 exp infant/ (886722)
48 "Adolescent"/ (1501278)
49 45 or 46 or 47 or 48 (3084391)
50 "filter child cbo medline".tw. (0)
51 44 and 49 (1287)
52 51 and 17 (1192)
53 limit 52 to yr="1980 -Current" (1050)
54 "P voor stotteren bij kinderen".ti. (0)
55 language therapy/ or speech therapy/ (5562)
56 (th or rh).fs. (1471365)
57 (intervent* or therap*).ti. (593790)
58 treat*.ti. (960849)
59 or/55-58 (2561520)
60 53 and 59 (442)
61 "med101005 Cochrane Highly Sensitive Search Strategy for Randomized Trials in
Medline START".ti. (0)
62 randomized controlled trial.pt. (339011)
63 controlled clinical trial.pt. (85097)
64 (randomized or randomised).ab. (306310)
65 placebo.ab. (140242)
66 drug therapy.fs. (1573096)
67 randomly.ab. (187872)
68 trial.ab. (264547)
69 groups.ab. (1216413)
70 or/62-69 (3045624)
71 70 not (exp animals/ not humans/) (2604016)
72 "med101005 Cochrane Highly Sensitive Search Strategy for Randomized Trials in
Medline EINDE".ti. (0)
73 60 and 71 (99)
74 from 19 keep 1-28 (28)
75 from 31 keep 1-140 (140)
76 from 60 keep 1-3 (3)
77 from 73 keep 1-96 (96)
78 "bothe\$.fc_auts. and "2006".fc_pubyr. and "321".fc_pg. (1)
79 exp *Stuttering/ (2646)
80 stutter*.ti. (2694)
81 79 or 78 or 7 or 8 or 9 or 10 (3204)
82 2 or 3 or 4 or exp Stuttering/th or 11 or 12 (7942)
83 81 and 82 and 17 (914)
84 83 and (15 or 16) (3)
85 (81 or 82) and 17 (9301)
86 85 (9301)

87 limit 86 to yr="1995 -Current" (4839)
 88 87 and (15 or 16) (26)
 89 87 and 28 (134)
 90 5 or 6 or 7 or 8 or 9 or 10 (4286)
91 89 and 90 (21) med 20130212 stotteren systrev na 1995
 92 87 and 71 and 90 (387)
 93 "med091027 CBO filter rct Medline START".ti. (0)
 94 randomized-controlled-trial.pt. (339011)
 95 controlled-clinical-trial.pt. (85097)
 96 randomized controlled trial/ (339011)
 97 randomi?ed controlled trial?.tw. (64762)
 98 random-allocation.af. (77042)
 99 double-blind-method.af. (117486)
 100 single-blind-method.af. (16981)
 101 (random adj8 (selection? or sample?)).tw. (30915)
 102 random\$.tw. (625670)
 103 or/94-102 (846073)
 104 "med091027 CBO filter rct Medline EINDE".ti. (0)
 105 controlled clinical trial/ or randomized controlled trial/ (419357)
 106 from 91 keep 1-21 (21)
 107 Clinical Trials as Topic/ (162088)
 108 103 or 105 or 107 (958898)
109 87 and 90 and 108 (101) med 20130212 stotteren rct na 1995

APPENDICE 5: Definizioni e Concetti

Intervallo di Confidenza

Nella ricerca, c'è sempre un grado di incertezza. Questo perché un ristretto gruppo di pazienti viene studiato per prevedere gli effetti del trattamento in una popolazione più ampia. L'intervallo di confidenza è un modo per esprimere quanto siamo certi dei risultati di uno studio. L'intervallo di confidenza viene solitamente descritto come "IC 95%", che significa che il range di valori considerati ha 95 possibilità su 100 di contenere il valore "vero". Ad esempio, uno studio potrebbe riportare che "sulla base delle nostre scoperte siamo sicuri al 95% che la "vera" pressione sanguigna della popolazione non sia superiore a 150 e inferiore a 110". In questo caso l'IC 95% sarebbe 110-150. Un ampio intervallo di confidenza indica una mancanza di certezza circa l'effetto reale del test o del trattamento - spesso perché è stato studiato un piccolo gruppo di pazienti. Un intervallo di confidenza stretto fornisce una stima più accurata (ad esempio quando è stato considerato un numero elevato di pazienti).

Studi in Cieco (Blinding)

Questo è un modo per impedire a ricercatori, medici, personale sanitario e pazienti coinvolti in un trial clinico, di sapere a quale gruppo di studio appartiene un paziente, in modo tale che non possano influenzare i risultati. Il modo migliore per farlo è assegnare i pazienti ai gruppi di studio in modo casuale (random). Lo scopo del "cieco" è di prevenire o limitare gli errori (*bias*). Uno studio in cieco è uno studio in cui i pazienti non sanno a quale gruppo di studio appartengono (per esempio se stanno prendendo un farmaco sperimentale o un placebo). Uno studio in doppio cieco è uno studio in cui né i pazienti né i ricercatori / medici sanno a quale gruppo di studio appartengono i pazienti. Uno studio a triplo cieco è uno studio in cui né i pazienti, né i clinici né le persone che effettuano l'analisi statistica sanno quali trattamenti hanno subito i pazienti.

Case Report

Ricerca osservativa non controllata che coinvolge solo 1 paziente o un gruppo di pazienti molto ristretto.

CINAHL

Cumulative Index of Nursing and Allied Health Literature. Questo database, pubblicato da *Cinahl Information Systems*, California (Stati Uniti), include riferimenti a pubblicazioni dal 1982 ad oggi nel campo dell'assistenza infermieristica e delle professioni sanitarie. Il database può essere solo consultato tramite abbonamento. Il CBO⁴⁵ ha un abbonamento. Informazioni su *Cinahl* possono essere trovate su: <http://www.cinahl.com>.

Cochrane Collaboration

⁴⁵Nota dei traduttori: Il CBO, con sede a Utrecht (1979-2015), ha come *mission* supportare le associazioni professionali e le organizzazioni sanitarie dei singoli professionisti nel miglioramento dell'assistenza ai pazienti. Il CBO ha offerto questo attraverso programmi e progetti che hanno supportato il sistematico e strutturato miglioramento e il mantenimento di un'assistenza di qualità ai pazienti.

Organizzazione internazionale che ha lo scopo di offrire supporto a processi decisionali informati in ambito sanitario. Questo viene ottenuto attraverso la pubblicazione di revisioni sistematiche e meta-analisi sugli effetti degli interventi sanitari.

Biblioteca Cochrane/Cochrane Library

Una raccolta di database effettuata dalla *Cochrane Collaboration*, inclusi i database più importanti: a) Database *Cochrane* di revisioni sistematiche, i più recenti dei quali sono anche in PubMed e b) Database degli abstract delle Revisioni di Efficacia (DARE), ovvero Revisioni Sistematiche, che non sono revisioni Cochrane, che sono state valutate rispetto alla loro qualità.

Effect Size⁴⁶

Una misura che rappresenta la dimensione del risultato in un gruppo, in comparazione con un gruppo di controllo. Ad esempio, se la riduzione del rischio assoluto è del 5% e questo è un risultato a cui i ricercatori sono interessati, l'*effect size* è del 5%. L'*effect size* viene solitamente testato utilizzando un test statistico in modo da valutare quale sia la probabilità che l'effetto derivi dal trattamento e non sia dovuto al caso (cioè determinare se sia o meno statisticamente significativo).

Occultamento del gruppo di assegnazione

In un RCT le persone nella popolazione dello studio vengono assegnate casualmente (ad esempio utilizzando buste sigillate) a gruppo/i di intervento e gruppo/i di controllo. Il termine "Occultamento di assegnazione" (*Concealment of Allocation*) si riferisce al processo che consiste nel mantenere segreto o "in cieco" tale assegnazione dei pazienti nei vari gruppi di studio. Ciò significa che l'individuo che assegna i gruppi (ad esempio distribuendo le buste) non è a conoscenza del contenuto della busta e che non può essere scoperta neanche la loro codifica.

Eterogeneità

Questo termine è utilizzato nelle meta-analisi e nelle revisioni sistematiche per indicare che i risultati di un test o di un trattamento (in altre parole i loro *effect size*) differiscono significativamente tra i vari studi. Queste differenze possono verificarsi a causa di differenze nella popolazione indagata, negli *outcome* misurati o possono essere dovuti a differenze nelle definizioni delle variabili in questione.

Incoerenza (sinonimo: sostanziale eterogeneità)

L'incoerenza riflette un'eterogeneità inspiegabile nei risultati, in altre parole risultati altamente variabili per l'effetto del trattamento.

Indirectness

Si verifica quando la letteratura biomedica non è in grado di rispondere alla domanda principale a causa di differenze nei pazienti, negli interventi, nei gruppi di controllo o nelle misure di *outcome*. Anche i confronti indiretti sono un esempio di *indirectness*, ad esempio

⁴⁶Nota dei traduttori: in statistica l'**effect size** è una misura della forza della relazione tra due variabili.

confrontare i risultati dell'intervento A con quelli dell'intervento B, sulla base dell'intervento A rispetto al placebo e dell'intervento B rispetto al placebo.

Analisi Intention-to-Treat⁴⁷

Una valutazione dei risultati dei partecipanti ad un *trial* clinico basata sul gruppo a cui sono stati assegnati casualmente in prima istanza. Questo indipendentemente dal fatto che abbiano abbandonato, completato il trattamento per intero o passato ad un gruppo di trattamento diverso. Le analisi *Intention-To-Treat* sono utilizzate per determinare l'efficacia clinica, perché riflettono la pratica corrente: cioè, non tutti aderiscono al trattamento e il trattamento è adattato in base al modo in cui le persone reagiscono ad esso.

Core Stutters o Core Stuttering Behavior

Queste sono le ripetizioni con tensione muscolare, i prolungamenti ed i blocchi di sillabe e suoni, che sono caratteristici della balbuzie. Le interruzioni della fluenza verbale sono involontarie e la persona che balbetta non le ha sotto controllo.

Significatività Clinica

Un effetto benefico di un trattamento che venga correlato ad un *outcome* importante, come la sopravvivenza, e che sia abbastanza grande da essere importante per i pazienti e gli operatori sanitari. Gli effetti statisticamente significativi non sono sempre clinicamente significativi, quando l'effetto è minimo o le misure di *outcome* non sono importanti. Ad esempio, se un trattamento aumenta il flusso sanguigno, ma non ci sono prove che ciò porti a un risultato clinico importante, come il rischio minore di infarto, allora non c'è evidenza di significatività clinica.

Quality of Evidence (descritta anche come certezza rispetto all'effect size; in linea con la definizione GRADE)

La *quality of evidence* riflette il grado di certezza rispetto ad un effetto.

Quality of evidence elevata: ulteriori ricerche scientifiche non cambieranno la fiducia rispetto all'effetto stimato;

Quality of evidence moderata: ulteriori ricerche scientifiche avranno probabilmente un impatto importante sulla nostra fiducia rispetto all'effetto stimato e potrebbero cambiarne la stima;

Quality of evidence scarsa: è molto probabile che ulteriori ricerche scientifiche avranno un impatto importante sulla nostra fiducia rispetto all'effetto stimato e probabilmente ne cambieranno la stima;

⁴⁷L'analisi *Intention-to-Treat* è un'analisi statistica che, nella valutazione di un esperimento, si basa sugli intenti iniziali di trattamento e non sui trattamenti effettivamente somministrati.

Quality of evidence molto scarsa:

tutti gli effetti stimati sono incerti.

Qualità della vita

Il funzionamento degli individui nei domini fisici, psicologici e sociali e la loro valutazione soggettiva sono associati ad essa? La qualità della vita consiste in aspetti sia relativamente oggettivi che soggettivi. Le condizioni oggettive riguardano il fatto che qualcuno abbia dei limiti a causa della sua salute. Gli aspetti soggettivi ci dicono qualcosa rispetto al giudizio della persona su diversi aspetti della sua salute (Sprangers MAG (AMC)). Cos'è la qualità della vita e come viene misurata? In: Volksgezondheid Toekomst Verkenning, Nationaal Kompas Volksgezondheid (Esplorando il Futuro della Salute Pubblica, il Monitoraggio Nazionale della Salute Pubblica). Bilthoven: RIVM, <<http://www.nationaalkompas.nl>> Nationaal Kompas 2009).

Medline

Un database con riferimenti di articoli provenienti da circa 5000 riviste, pubblicato in oltre 70 paesi. La maggior parte degli articoli pubblicati provengono da riviste in lingua inglese. La lingua di ricerca è l'Inglese. Il database risale circa all'anno 1950 e contiene oltre 14 milioni di riferimenti. Medline può essere consultato gratuitamente tramite PubMed: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/sites/entrez>. Il CBO ha un abbonamento per un'interfaccia di ricerca avanzata per Medline.

Meta-analisi⁴⁸

Un'analisi statistica dei risultati di studi indipendenti con l'obiettivo di fornire una stima complessiva dell'effetto (di un trattamento). Una meta-analisi è spesso parte di una revisione sistematica in cui i risultati di una serie di studi clinici comparabili sono stati raggruppati insieme. Ciò consente di formulare un giudizio sull'effetto di un intervento o trattamento con un maggior grado di sicurezza.

Ricerca non comparativa

Ricerca che non comporta un confronto di gruppi; questo include studi di tipo descrittivo e i *case report*.

Naturalezza del Parlato

È il grado in cui il parlato di una persona che balbetta viene percepito dall'ascoltatore come quello di una persona che non balbetta. (Guitar 2014)

Odds Ratio⁴⁹

⁴⁸ Nota dei traduttori: Termine statistico che individua uno strumento di ricerca secondario, il cui scopo è quello di riassumere i dati provenienti da diversi strumenti di ricerca primaria, in tutte le discipline scientifiche e mediche.

⁴⁹ Nota dei Traduttori: In epidemiologia l'odds ratio (OR) è la misura dell'associazione tra due fattori, per esempio tra un fattore di rischio e una malattia. Il calcolo dell'odds ratio prevede il confronto tra le frequenze di comparsa dell'evento (ad esempio, malattia) rispettivamente nei soggetti esposti e in quelli non esposti al fattore di rischio in studio. Esso è utilizzato negli studi retrospettivi (caso-controllo), dove non è necessaria la

Gli *Odds* sono un modo per mostrare quanto è probabile che accada qualcosa (*likelihood*). Un *Odds Ratio* confronta la probabilità che si verifichi qualcosa in un gruppo con la probabilità che si verifichi della stessa cosa in un gruppo diverso. Un *odds ratio* di 1 tra due gruppi indica che la probabilità dell'evento (ad esempio se la terapia è efficace) è la stessa in entrambi i gruppi. Un *Odds Ratio* maggiore di 1 significa che l'evento è più probabile nel primo gruppo. Un *Odds Ratio* minore di 1 significa che l'evento è meno probabile nel primo gruppo. A volte la probabilità di un evento può essere confrontata tra più di due gruppi - in questo caso uno dei gruppi viene scelto come "categoria di riferimento" e il rapporto di probabilità viene calcolato per ciascun gruppo rispetto alla categoria di riferimento. Ad esempio, per calcolare il rischio di mortalità per carcinoma polmonare nei non fumatori, nei fumatori occasionali e nei fumatori abituali, i non fumatori possono essere utilizzati come categoria di riferimento. Gli *Odds Ratio* potrebbero essere calcolati per i fumatori occasionali rispetto ai non fumatori e per i fumatori abituali rispetto ai non fumatori.

Inaccuratezza

Inaccuratezza significa incertezza rispetto all'*effect size*, come quando viene rilevato un ampio intervallo di confidenza, ed è causata da un numero limitato di persone indagate in uno studio.

Balbuzie evolutiva

La forma più comune di balbuzie che si sviluppa durante l'infanzia (al contrario della balbuzie che si sviluppa a causa di una condizione neurologica, un trauma o attraverso stress emotivo) (Guitar, 2014).

Metodo-PICO

Questo acronimo descrive i quattro elementi (*Patient, Intervention, Control, Outcome*) di uno specifico quesito clinico, che può essere utilizzato per una ricerca nella letteratura scientifica.

PsycINFO

Database con riferimenti ad articoli di Psicologia, creato dall'*American Psychological Association* e contenente descrizioni e abstract di articoli, capitoli di libri, libri e tesi nel campo della psicologia e degli aspetti psicologici di tutte le discipline correlate. I dati provengono da 1500 riviste dall'anno 1872. Il nome precedente del database era *PsycLit*. Il database può essere consultato solo con un abbonamento.

PubMed

PubMed è un database con descrizioni (riferimenti) di articoli di riviste biomediche, infermieristiche e odontoiatriche. Contiene più della sola *Medline*. Contiene *PubMed*, indicizzato per *Medline*, *PubMed* come fornito dall'editore e *PubMed in Process*; questi

raccolta dei dati nel tempo, infatti esso non calcola un andamento ed è, anzi, indipendente dal fattore durata. Negli studi prospettici si utilizza invece, allo stesso scopo, il calcolo del rischio relativo.

sono riferimenti inclusi in *Medline*, ma a cui non sono stati ancora forniti termini *MeSH* (parole chiave di *Medline*). *Pubmed* è liberamente accessibile tramite: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/sites/entrez>. Vedi anche *Medline*.

P-value⁵⁰

Il *p-value* o valore di soglia (di un determinato *outcome* del campione) è la probabilità di raggiungere o superare (a sinistra, a destra o ai due lati) il risultato del test osservato, dato che l'ipotesi nulla è vera. Ad esempio, se uno studio sta confrontando due trattamenti, e uno sembra essere più efficace dell'altro, il *p-value* è la probabilità che questi risultati derivino solo dal caso. La convenzione è che un *p-value* inferiore a 0,05 (o una probabilità inferiore al 5% che questi risultati derivino dal caso) è considerato come un valore al di sotto del quale è probabile che vi sia una differenza effettiva tra entrambi i trattamenti. L'intervallo di confidenza descrive quanto potrebbe essere grande questa differenza rispetto all'effetto.

Randomized Controlled/Clinical Trial (RCT)

Questa è un tipo di ricerca in cui l'effetto di un determinato intervento viene confrontato con quello di un intervento di controllo e viene messa in atto una assegnazione non-selettiva (Randomizzazione) di pazienti all'interno del gruppo indice e del gruppo di riferimento. Gli RCT vengono considerati i migliori metodi di ricerca per testare un'ipotesi riguardante gli interventi medici. In un *placebo-controlled* RCT, al gruppo di controllo verrà somministrato un placebo.

Rischio di Bias

Sinonimo: errore sistematico.

Quando si verifica un *bias*, i risultati saranno diversi dal vero effetto a causa di un errore sistematico. Il *bias* può verificarsi a causa di difetti nel *design* dello studio, nella raccolta dati, nell'analisi e nell'interpretazione dei risultati e nella pubblicazione. Il *bias*, tuttavia, non può sempre essere evitato. Il *Selection Bias* si verifica quando la distorsione dei risultati è causata da una differenza essenziale negli individui inclusi ed esclusi dallo studio. Ad esempio, durante il processo di inclusione, selezionando sistematicamente quegli individui per i quali l'intervento studiato avrà l'effetto maggiore. L'*Allocation Bias* (una forma di *selection bias*) si verifica quando i partecipanti a uno studio non sono assegnati in modo non-selettivo ai gruppi dello studio, ad esempio a causa di procedure di randomizzazione scorrette. L'*Information Bias* si riferisce ad un errore che si verifica nella misurazione dei parametri studiati (anche noto anche come *information bias*, *measurement bias*, o *assessment bias*). La responsabilità può essere del ricercatore, ad esempio quando non sono state stabilite delle chiare definizioni dei parametri di ricerca (*interviewer bias*, *observer bias*, o *interpretation bias*). Il paziente può anche contribuire al *bias* non essendo in grado di ricordare un fatto importante (*recall bias*).

⁵⁰ In statistica inferenziale il valore *p* (o *p-value*, in inglese) di un test di verifica d'ipotesi indica la probabilità di ottenere un risultato uguale o "più estremo" di quello osservato, supposta vera l'ipotesi nulla

Il *Response bias* è quando alcune persone concordano con certe affermazioni, indipendentemente dai contenuti o quando gli intervistati forniscono solo risposte socialmente desiderabili.

Il *Confounding Bias* è un errore che deriva dal fatto che sono stati presi dati insufficienti sull'effetto dirompente dei fattori che creano confusione (*confounders*) sulla relazione tra il determinante centrale e la malattia. Un *confounder* è una variabile dirompente responsabile di una rappresentazione errata della relazione che intercorre tra il determinante centrale e la malattia. Un'altra forma di *bias* è il *Publication Bias*. Se gli *outcome* negativi portano uno studio a determinati risultati e questi non vengono resi pubblici, c'è un *Publication Bias*. Questa forma di *bias* è importante nella valutazione di revisioni sistematiche e meta-analisi.

Secondary Stuttering Behaviour

È il risultato di un processo di apprendimento (in parte inconsapevole) da parte della persona che balbetta, come reazione ai comportamenti primari della balbuzie (*Core Stuttering Behaviours*). Gli esempi includono i comportamenti di lotta e fuga (*Fight e Flight Behaviours*), come sbattere le palpebre, mancanza di contatto oculare, movimenti di alcune parti del corpo, della lingua, l'uso di interiezioni ("ehm..ehm..come si chiama ..."), ecc. Altre reazioni includono sentimenti di ansia, frustrazione e vergogna e comportamenti di evitamento (in parole e/o suoni usate dalla persona che balbetta e in situazioni).

Stuttering Severity

È una misura basata sulla misurazione oggettiva degli *stuttering behaviour*, come la frequenza della balbuzie, la durata dei momenti di balbuzie, il tipo di disfluenze e i comportamenti secondari (Shapiro, 1999).

Disfluenze tipiche della balbuzie (SLDs - Stuttering-Like Disfluencies)

Tipi di disfluenze, presente nei bambini piccoli, che aiutano a distinguere la "normale disfluenza" dalla "balbuzie" (Yairi e Ambrose, 2005). Queste disfluenze si verificano molto più frequentemente nei bambini che balbettano:

- Ripetizione di parti di parole
- Ripetizioni di suoni
- Fonazioni disritmiche, come pause tese

%Sillabe Balbettate (%SS - %Stuttering Syllables)

La percentuale di sillabe balbettate è una misura della frequenza di balbuzie.

Revisione sistematica

Una revisione sistematica della letteratura sullo stato di avanzamento della ricerca medico/scientifica su uno specifico quesito clinico. Una revisione sistematica è trasparente e riproducibile, si basa su un quesito clinico esplicito, un'ampia strategia di ricerca, una procedura trasparente per la selezione degli studi, una valutazione sistematica della qualità di essi e una presentazione completa dei risultati. Una meta-analisi può far parte di una revisione sistematica. Vedi anche la voce meta-analisi.

Revisione sistematica della letteratura

Vedi la voce Revisione sistematica

Quesito principale

Questo è un quesito specifico (clinico), per il quale verrà fornita una risposta nelle Linee Guida sotto forma di raccomandazione. I quesiti principali costituiscono la base per lo sviluppo delle Linee Guida e il punto di partenza per la revisione della letteratura.

Misura dell' *Outcome*⁵¹

E' quello che viene utilizzato per misurare il risultato di un evento o di un intervento. Viene fatta una distinzione tra *hard endpoint*, come la morte o la morbidità evidente, e gli *intermediary o surrogate endpoints*, che di solito sono solo indirettamente associati agli *hard endpoint*. Esempi: livelli sierici di lipidi e pressione sanguigna, dove l'insorgenza di malattie cardiovascolari è un *hard endpoint*. Gli effetti degli interventi sugli *intermediary endpoint* non possono essere facilmente estrapolati dagli effetti sugli *hard endpoint*. Il valore degli studi che forniscono solo *intermediary endpoint* è quindi limitato.

Note dei Traduttori:

Tutte le note a fondo pagina di questa appendice, con le definizioni dei termini/concetti di Statistica Medica sono tratti dalle seguenti fonti bibliografiche:

- Fowler J, Jarvis P, Chevannes M *Statistica per le professioni sanitarie* EdiSES, 2005
- Swinscow TDV, Campbell MJ *Le basi della statistica per scienze bio-mediche* Ed. Minerva Medica, 2004

⁵¹L'endpoint di uno studio clinico è un evento predefinito: ad esempio, l'occorrenza di una malattia, di un sintomo oppure un particolare risultato di laboratorio. Gli endpoint possono essere hard (oggettivi) o soft (soggettivi). In alcuni casi, possono essere sostituiti da endpoint intermedi o surrogati, che di solito sono solo indirettamente associati agli endpoint duri. Gli *endpoint* utilizzati in una sperimentazione devono essere definiti e documentati come parte del protocollo di studio.

APPENDICE 6: ANALISI DEI VINCOLI

La CBO, in collaborazione con l'Associazione olandese di Logopedia e Foniatria (NVLF), l'Associazione Olandese per la Terapia della Balbuzie (NVST) e l'Associazione dei pazienti "Demostene", ha sviluppato delle Linee Guida evidence-based sulla balbuzie per bambini ed adulti. Le Linee Guida hanno lo scopo di descrivere come dovrebbero essere la diagnosi, il trattamento e il follow-up dei clienti che balbettano. Inoltre, sono state consultate organizzazioni professionali indirettamente coinvolte nella diagnosi e nel trattamento di clienti con balbuzie, in modo tale da farle partecipare al focus group. Le associazioni che partecipano al focus group sono:

- NHG *Netherlands Society of General Practitioners*
- AJN *Netherlands Association of Paediatricians*
- NIP *Netherlands Institute of Psychologists*
- NVK *Netherlands Paediatric Society*
- KH *Netherlands Society of Otolaryngology and Head and Neck Surgery*
- NVAB *Netherlands Society of Occupational Medicine*
- LBBO *National Occupational Group of Special Needs Education Professionals*

Metodo

È stato creato un sondaggio per definire i limiti rispetto alla diagnosi, al trattamento e all'*aftercare della* balbuzie nei bambini e negli adulti. Questo sondaggio è stato inviato alle associazioni rappresentate nel *working group*, che comprendeva logopedisti e specialisti della fluenza, pazienti, e alle associazioni rappresentate nel *focus group*. Sono stati completati e restituiti un totale di 40 questionari. Durante la riunione monodisciplinare sono stati completati otto sondaggi, sei dei quali compilati da specialisti della fluenza della NVST, uno dalla *Paediatric Physicians Association* e uno dalla *Dutch Association for Work and Business Studies*. Uno è stato completato dal consiglio dell'associazione dei pazienti, *Demosthenes*. Al fine di ottenere un diverso insieme dei punti di vista, dieci sondaggi sono stati completati dai membri del NVLF, dieci dai membri del NVST, otto dai membri dell'associazione dei pazienti di *Demosthenes*, uno da un Medico di Medicina Generale in rappresentanza della *Dutch Family Practicioners*, uno da uno psicologo clinico e uno da un pediatra della *Dutch Association for Pediatric Medicine*.

Una panoramica delle risposte inviate si può trovare nel file "*results stutter survey*". Una revisione dei risultati verrà descritta in tale *report*.

Verranno formulati un massimo di 8 quesiti di ricerca seguendo l'analisi dei limiti.

Revisione dei sondaggi

Dai sondaggi è particolarmente evidente che vi sia una necessità di maggiore chiarezza rispetto all'individuazione, al rinvio, al trattamento e all'*aftercare* della balbuzie. È importante creare maggiore chiarezza sul momento in cui deve avvenire la diagnosi, sui contenuti di tale diagnosi, sul contenuto e sui tempi dei trattamenti e su quando e a chi dovrebbe essere rinviato il paziente che balbetta.

È importante creare maggiore chiarezza sul timing relativo alla diagnosi, sui contenuti della diagnosi, il contenuto e i tempi dei trattamenti e quando e a chi deve fare riferimento il paziente che balbetta.

Di seguito i punti che sono stati evidenziati nel sondaggio verranno discussi per argomento.

Limiti Interni

L'indagine ha evidenziato i limiti principali relativi a diagnosi, trattamento e follow-up che si verificano nella pratica quotidiana rispetto all'assistenza di bambini e adulti che balbettano. Tali limiti possono essere una fonte importante per formulare i quesiti di ricerca. Dato che il rinvio è spesso vissuto come un limite, i rinvii sono stati inclusi come componente separata in questa analisi dei limiti.

Analisi dei Limiti

Il momento in cui un'organizzazione agisce ed effettua un rinvio quando si sospetta che la balbuzie, viene spesso vissuta come un limite. La *Paediatric Physicians Association* ha indicato di non essere sufficientemente consapevole dei segni che indicano la necessità del rinvio. Pazienti e logopedisti/specialisti della fluenza hanno anche indicato che il momento in cui viene fatto un rinvio a un logopedista/*fluency specialist*, ad uno psicologo o ad altre organizzazioni dopo il trattamento ha avuto scarso successo ed avviene solitamente troppo tardi.

Diagnosi

I limiti riguardano quale tipo di indagine diagnostica effettuare e il tempo necessario richiesto per quest'ultima; c'è anche un dibattito relativo a chi dovrebbe effettuare la diagnosi. Pazienti, logopedisti e specialisti della fluenza hanno indicato che la balbuzie è un problema multifattoriale che richiede molto più della semplice diagnosi e trattamento dello *speech*. Questi hanno dei dubbi nel definire se debba essere un unico professionista ad affrontare in modo appropriato le problematiche relative alla balbuzie, a stabilire le giuste priorità in termini di aspetti su cui l'intervento dovrebbe concentrarsi e decidere il punto nel quale dovrebbe iniziare l'intervento..

Trattamento

La balbuzie è descritta in letteratura come un disturbo multifattoriale della comunicazione, spesso associato a comorbidità in termini di linguaggio, articolazione, abilità senso-motorie,

aspetti cognitivi, emotivi e comportamentali; questi disturbi emergono nel contesto sociale/comunicativo. L'influenza ed il peso dei vari fattori è difficile da definire.

Ci sono diverse opzioni disponibili per trattare la balbuzie. Non è noto quale intervento sia il più efficace per i singoli pazienti che balbettano. I logopedisti e gli specialisti della fluenza hanno indicato che i protocolli e le linee guida basati sull'efficacia dimostrata non sono disponibili per determinare i passi da compiere e quali obiettivi fissare. Questo è vissuto come un problema ancora maggiore se c'è comorbidità. Un'enfasi selettiva sullo *speech* e, soprattutto, sulla fluidità del parlato è stata descritta da specialisti della fluenza, pediatri e membri dell'associazione dei pazienti come troppo limitata e potenzialmente dannosa. Esistono punti interrogativi su chi sia maggiormente in grado di attuare un trattamento o alcuni aspetti del trattamento. La variabilità e la multi-causalità della balbuzie richiedono molta più ricerca e accordo con le parti interessate rispetto ad altri problemi di tipo logopedico. I logopedisti e gli specialisti della fluenza hanno indicato che il finanziamento non è adeguatamente regolato per fornire al cliente il livello ottimale di assistenza richiesto.

Aftercare

Le recidive dopo terapia per balbuzie sono state descritte in letteratura in numerose occasioni. Dai sondaggi emerge chiaramente che i logopedisti, gli specialisti della fluenza e i pazienti considerano tale assistenza post-terapia come parte integrante del trattamento. Non è noto o scritto in dettaglio come dovrebbero essere organizzati il contenuto, i tempi e la durata dell'*aftercare*.

Organizzazione del processo di cura

Le linee guida per la balbuzie nei bambini e negli adulti offrono l'opportunità di ottimizzare la collaborazione tra le varie specialità coinvolte nell'assistenza delle persone che balbettano, attraverso accordi comuni sull'organizzazione dell'assistenza, collaborazione e comunicazione.

Organizzazione dell'Assistenza

I bambini e gli adulti con la balbuzie evolutiva vengono spesso segnalati troppo tardi per una diagnosi completa. Da un lato c'è spesso un rinvio ritardato da parte di Medici di Medicina Generale, pediatri e altre organizzazioni di riferimento. D'altra parte genitori e insegnanti riconoscono che sono necessarie ulteriori ricerche. Ciò è probabilmente dovuto all'insufficiente conoscenza dell'incidenza, al decorso della balbuzie e all'insufficiente consapevolezza dell'opportunità di rinvio, ma è anche dovuto al fatto che la balbuzie a volte viene minimizzata: "Andrà via". Le linee guida per la balbuzie nei bambini e negli adulti possono generare miglioramenti nell'iter di identificazione e segnalazione da parte di genitori, insegnanti, medici di medicina generale, pediatri a logopedisti, specialisti della fluenza, psicologi o a un'equipe multidisciplinare.

L'accordo tra le varie discipline durante le fasi diagnostiche e di intervento sembra essere

limitato. Questo accordo potrebbe essere migliorato attraverso una chiara divisione del lavoro e promuovendo la collaborazione reciproca. Sono stati sperimentati i limiti in termini di identificazione e rinvio, divisione del lavoro nell'assistenza, individualizzazione dell'assistenza e finanziamento dei trattamenti.

Collaborazione e comunicazione

Le linee guida per la balbuzie nei bambini e negli adulti possono generare buone iniziative per un'adeguata identificazione della balbuzie potenziale da parte dei genitori e degli professionisti sanitari e un riferimento più rapido per i medici. È importante che la comunicazione sulla balbuzie e il trattamento dello sviluppo della balbuzie sia migliorata tra tutte le parti interessate. E' essenziale che vi sia un corretto accordo relativo a criteri per identificazione, rinvio, diagnosi, trattamento, guida e *follow-up* tra il cliente e i genitori del cliente, logopedista, *fluency specialist*, medici di medicina generale, pediatri, medici otorinolaringoiatri, psicologi, Terapisti della Neuro e Psicomotricità dell'Età evolutiva, insegnanti ed educatori. Una collaborazione chiara basata su protocolli dovrebbe portare a una comunicazione migliore.

Definizione delle priorità

Una serie di temi sono stati evidenziati nella definizione delle priorità dei quesiti principali che possono essere affrontati nella linea guida della balbuzie:

- Sottolineare l'importanza della identificazione precoce e della corretta diagnosi della balbuzie.
- L'importanza di una diagnosi approfondita da parte di esperti che non solo valutano l'aspetto motorio della parola, ma anche il problema della balbuzie nella sua interezza.
- Determinare il trattamento ottimale, inclusa l'*aftercare*, per il singolo cliente sulla base delle migliori evidenze scientifiche disponibili, con un focus sulla globalità della persona, nel suo contesto sociale / emotivo.
- Progettare un chiaro percorso di assistenza dall' identificazione al post-trattamento con una chiara panoramica delle opzioni di consultazione e di rinvio con altre discipline quando vengono rilevati problemi associati che ostacolano il trattamento.
- Comunicare informazioni sulla balbuzie e sulle possibilità di trattamento fornite a chi non appartiene ad una figura professionale e ai professionisti sanitari.
- Garantire copertura economica per finanziare adeguatamente l'assistenza che deve essere fornita.

APPENDICE 7: ABBREVIAZIONI

AAF

Altered Auditory Feedback

BAB

Behaviour Assessment Battery

CWS

Child Who Stutters

DCM

Demands and Capacities Model

ICF

International Classification of Functioning, Disabilities and Health

LP

Lidcombe Program

%SS

Percentage stuttered syllables

OASES

Overall Assessment of Speaker's Experience of Stuttering

PWS

Person who stutters

TfS-R/NR

Test for stuttering severity readers/non-readers (TvS: Test voor Stotterernst)

RCT

Randomised Controlled Trial

SSI

Stuttering Severity Instrument

SSL

Stuttering Screening List (SLS: Screenings Lijst Stotteren)

SLT

Speech and Language Therapist

APPENDICE 8

PROCEDURA DI SCREENING PER BAMBINI CHE POTREBBERO BALBETTARE⁵²

Nome del Bambino _____
Data di Nascita _____
Età _____

File _____
Data dell'Esame _____

	NORMALE	BORDERLINE	ANOMALO	MOLTO ANOMALO
AREA A Tipi di disfluenze	1. Ripete frasi o parole intere. 2. Usa interiezioni come "uh" mentre pensa.	3. Ripete il primo suono di una parola 2 o 3 volte senza tensione.	4. Ripete il suono quattro o più volte prima di tirare fuori le parole.	5. Il bambino ha una voce tesa durante le ripetizioni.
AREA B Altri comportamenti durante le disfluenze anomale				6. Il bambino ha dei blocchi "duri". Si blocca sulle parole. 1. Tenta di cambiare le parole per paura di balbettare. 2. Il bambino fatica a tirare fuori le parole, come si nota dalle smorfie facciali e/o dai movimenti di mani, braccia o piedi.
AREA C Frequenza delle disfluenze anomale (Tipi 4, 5 e 6)		1. Non frequente (meno del 2%).	2. Frequente (una ogni 2-3 frasi).	3. Molto frequente (una o più per frase).
AREA D Reazioni del bambino alle disfluenze anomale	1. Nessuna. Sembra essere inconsapevole.		2. Il bambino continua a provare.	3. Il bambino smette di provare a dire la frase o chiede: "Perché non riesco a parlare bene?"
AREA E Le reazioni delle altre persone alle disfluenze anomale	1. Nessuno si preoccupa delle disfluenze.		2. I genitori temono che lui/lei non supererà la balbuzie.	3. Il bambino è molto turbato dalle prese in giro o dalle reazioni degli altri ascoltatori.
AREA F Quanto tempo è passato da quando sono state notate le prime disfluenze anomale?		1. Sono iniziate meno di quattro mesi fa.	2. Sono iniziate da 4 a 12 mesi fa.	3. Sono iniziate più di 12 mesi fa.

Commenti dell'Esaminatore:

Annotare il numero dei sintomi "Anomali" e "Molto anomali" sulla metà di destra della pagina.

1 o 2 sintomi? _____ (Monitorare) 3 o più sintomi _____ (Rinviare)
Esaminatore: _____

⁵² *Physician's Screening Procedure for Children Who May Stutter, Riley e Riley, 1989; traduzione italiana di Dario Strangis, 2016*