

# Autismspektrumtillstånd

## Diagnostik och insatser, vårdens organisation och patientens delaktighet

---

En systematisk litteraturöversikt

*April 2013*

*(preliminär version webbpublicerad 13-03-20)*



---

SBU • Statens beredning för medicinsk utvärdering  
*Swedish Council on Health Technology Assessment*

## SBU utvärderar sjukvårdens metoder

SBU, Statens beredning för medicinsk utvärdering, är en statlig myndighet som utvärderar hälso- och sjukvårdens metoder.

SBU analyserar metodernas nytta, risker och kostnader och jämför vetenskapliga fakta med svensk vårdpraxis. Målet är att ge ett bättre beslutsunderlag för alla som avgör hur vården ska utformas.

SBU ger ut flera rapportserier. I ”SBU Utvärderar” har SBU:s expertgrupper själva gjort den systematiska utvärderingen. Serien omfattar både etablerade metoder (gula rapporter) och nya metoder (Alert). ”SBU Kommenterar” sammanfattar och kommenterar utländska medicinska kunskapsöversikter. SBU svarar också på frågor direkt från beslutsfattare i vården via SBU:s Upplysningstjänst.

Välkommen att läsa mer om SBU:s rapporter och verksamhet på [www.sbu.se](http://www.sbu.se).

*Denna utvärdering publicerades år 2013. Resultat som bygger på ett starkt vetenskapligt underlag fortsätter vanligen att gälla under en lång tid framåt. Andra resultat kan ha hunnit bli inaktuella. Det gäller främst områden där det vetenskapliga underlaget är otillräckligt eller begränsat.*

### Denna rapport (nr 215) kan beställas från:

Strömberg distribution  
Telefon: 08-779 96 85 • Fax: 08-779 96 10 • E-post: [sbu@strd.se](mailto:sbu@strd.se)

Grafisk produktion av Anna Edling, SBU  
Tryckt av Elanders, 2013  
Rapportnr: 215 • ISBN 978-91-85413-54-6 • ISSN 1400-1403

# Autismspektrumtillstånd

## Diagnostik och insatser, vårdens organisation och patientens delaktighet

### En systematisk litteraturöversikt

#### Projektgrupper

##### Autismspektrumtillstånd:

Lars Jacobsson (ordförande), Maria Ahlberg (projektassistent), Margareta Ahlström, Ylva Benderix, Bo Bergman, Eva Billstedt, Thomas Davidson (hälsoekonom), Stephan Ehlers, Jean-Luc af Geijerstam (biträdande projektledare t o m december 2011), Martin Grann, Linda Halldner-Henriksson, Ulf Jonsson, Rurik Löfmark (etiker), Ingegerd Mejäre, Viviann Nordin, Anders Norlund (hälsoekonom), Hanna Olofsson (informationsspecialist), Sally Saad (informationsspecialist), Mikaela Starke, Bo Söderpalm, Margareta Söderström, Sofia Tranæus (biträdande projektledare), Anne-Liis von Knorring, Pernilla Östlund (projektledare)

##### Organisation inom psykiatri med fokus på autismspektrumtillstånd:

Maria Ahlberg (projektassistent), Derya Akcan (informationsspecialist), Thomas Davidson (hälsoekonom), Nasim Farrokhnia (projektledare maj 2010 – november 2010), Agneta Pettersson (projektledare november 2010 – oktober 2012), Ingela Skärsäter, Gunilla Thernlund, Sofia Tranæus (biträdande projektledare), Ing-Marie Wieselgren

##### Patientens delaktighet vid autismspektrumtillstånd:

Bengt Mattsson (ordförande), Elisabeth Gustafsson (projektassistent), Svenny Kopp (t o m 2011-07-23), Jonas Lindblom (informationsspecialist), Lennart Lundin, Rurik Löfmark, Sofia Tranæus (biträdande projektledare), Sophie Werkö (projektledare)

#### Externa granskare

##### Autismspektrumtillstånd:

Anders Anell, Malin Broberg, Sven Bölte, Johan Franck, Bruno Hägglöf

##### Organisation inom psykiatri med fokus på autismspektrumtillstånd:

Mona Eklund, Lena Flyckt, Henrika Jormfeldt, Lars Hansson, Elisabeth Wentz

##### Patientens delaktighet vid autismspektrumtillstånd:

Anne-Charlotte Abrahamsson, Susanna Danielsson, Gunilla Thernlund

SBU • Statens beredning för medicinsk utvärdering

*Swedish Council on Health Technology Assessment*

# Innehåll

---

<b>SBU:s sammanfattning och slutsatser</b>	<b>11</b>
<b>1. Inledning</b>	<b>39</b>
Uppdraget	39
Autismspektrumtillstånd (AST) – ett samlingsnamn för flera olika tillstånd	39
Diagnostiken bygger på information från flera håll	40
Många olika typer av insatser vid AST	51
Organisation inom psykiatrin med fokus på AST	52
Patientens delaktighet vid AST	52
Frågor	56
Målgrupper	57
Referenser	59
<b>2. Metodbeskrivning</b>	<b>61</b>
Litteratursökning	61
Granskningsprocessen	61
Termer och mått för beskrivning av tillförlitlighet hos diagnostiska test	64
<i>Validitet hos diagnostiska test</i>	64
<i>Mått på tillförlitlighet</i>	64
Systematiska översikter	66
Metaanalyser	66
Bedömning av det vetenskapliga underlaget	66
Kvalitativ studiedesign	69
Kvalitetsbedömning vid kvalitativa studier	71
Referenser	77
<b>3. Systematisk litteraturöversikt –     Diagnostik och insatser vid AST</b>	<b>79</b>
3.1 Instrument för utredning av AST	81
Bakgrund	81
Evidensgraderade resultat	88

Sammanfattande resultattabeller	91	<i>Sammanfattande resultattabeller</i>	227
Frågor	95	<i>Fråga</i>	228
Inklusions- och exklusionskriterier	95	<i>Inklusionskriterier</i>	228
Resultat av litteratursökningen	96	<i>Resultat av litteratursökningen och urval av studier</i>	228
Beskrivning av studier och resultat	97	<i>Beskrivning av studier och resultat</i>	229
Diskussion	102	<i>Sammanfattning och diskussion</i>	231
Tabell 3.1.13–3.1.18	108	<i>Tabell 3.2.18–3.2.20</i>	232
Referenser	139	3.2.4 Interventioner inriktade på kost	238
3.2 Insatser vid AST	141	<i>Evidensgraderade resultat</i>	238
Slutsats	141	<i>Sammanfattande resultattabeller</i>	239
Inledning	141	<i>Frågor</i>	241
Inklusionskriterier	145	<i>Beskrivning av studier och resultat inklusive tabeller</i>	243
Resultat av litteratursökningen	146	<i>Övrigt som inte ingår i de evidensgraderade resultaten</i>	244
3.2.1 Tidig intervention	147	<i>Sammanfattning och diskussion</i>	247
<i>Bakgrund</i>	147	<i>Tabell 3.2.25–3.2.27</i>	248
<i>Evidensgraderade resultat</i>	147	3.2.5 Övriga interventioner	254
<i>Sammanfattande resultattabeller</i>	148	<i>Bakgrund</i>	254
<i>Frågor</i>	149	<i>Evidensgraderade resultat</i>	256
<i>Inklusionskriterier</i>	150	<i>Frågor</i>	256
<i>Resultat av litteratursökningen och urval av studier</i>	150	<i>Inklusionskriterier</i>	256
<i>Beskrivning av studier och resultat</i>	150	<i>Resultat av litteratursökningen och urval av studier</i>	256
<i>Sammanfattning och diskussion</i>	161	<i>Beskrivning av studier och resultat inklusive tabeller</i>	256
<i>Tabell 3.2.5–3.2.6</i>	166	<i>Sammanfattning och diskussion</i>	257
3.2.2 Anpassning av miljö och pedagogiska insatser	198	Referenser	258
<i>Evidensgraderade resultat</i>	198	3.3 Läkemedelsbehandling med risperidon vid AST	267
<i>Sammanfattande resultattabeller</i>	200	Slutsats	267
<i>Frågor</i>	203	Bakgrund	267
<i>Inklusionskriterier</i>	203	Evidensgraderade resultat	267
<i>Resultat av litteratursökningen och urval av studier</i>	203	Frågor	270
<i>Beskrivning av studier och resultat</i>	205	Metod för litteratursökning och urval av studier	271
<i>Övriga studier som inte ingår i de evidensbaserade resultaten</i>	207	Resultat av litteratursökningen	272
<i>Sammanfattning och diskussion</i>	209	Diskussion	273
<i>Tabell 3.2.11–3.2.14</i>	212	<i>Tabell 3.3.2</i>	276
3.2.3 Psykologiska och psykoterapeutiska insatser	226	Referenser	280
<i>Bakgrund</i>	226		
<i>Evidensgraderade resultat</i>	226		

<b>4. Systematisk litteraturoversikt – Organisation inom psykiatri med fokus på AST</b>	<b>281</b>		
Slutsats	281		
Evidensgraderade resultat	281		
Bakgrund	282		
Frågor	289		
Inklusionskriterier	290		
Kvalitetskriterier	290		
Urval av studier	290		
Resultat av granskningen	291		
Diskussion	292		
Referenser	294		
<b>5. Systematisk litteraturoversikt – Patientens delaktighet vid AST</b>	<b>295</b>		
Slutsats	295		
Evidensgraderade resultat	296		
Frågor	304		
Inklusionskriterier och avgränsningar	305		
Resultat av litteratursökningen och urval av studier	305		
Kvalitativ analysmetod	306		
Beskrivning av studier och resultat inklusive tabeller	312		
<i>Ämnesområde 1: Patientens perspektiv</i>	312		
<i>Kommentar till analysen</i>	314		
<i>Ämnesområde 2: Relationen mellan patient,         anhöriga och personal/vårdgivare</i>	316		
<i>Kommentar till analysen</i>	321		
<i>Ämnesområde 3: Allas perspektiv         på patientens situation; stigma/diskriminering</i>	326		
<i>Kommentar till analysen</i>	328		
<i>Ämnesområde 4: Anhörigas och vårdgivares         perspektiv på sig själva</i>	329		
<i>Kommentar till analysen</i>	331		
Kvantitativ analysmetod	333		
Beskrivning av studier och resultat inklusive tabeller	333		
Studier med låg kvalitet	334		
		Sammanfattande analys	336
		Tabell 5.21–5.22	340
		Referenser	364
		<b>6. Etiska, sociala och genusrelaterade aspekter</b>	<b>367</b>
		Sammanfattning	367
		Introduktion	368
		Vad menas med etiska aspekter?	369
		Etiska problem	370
		Vad menas med sociala aspekter?	371
		Vad menas med genusaspekter?	371
		Etiska aspekter vid AST	372
		Diagnostik	372
		Insatser	373
		Alternativmedicinska metoder	374
		Autonomi och integritet	374
		Sociala aspekter, samhällsstöd och genusaspekter	375
		Forskning och utveckling	375
		Diskussion	376
		Referenser	379
		<b>7. Hälsoekonomi</b>	<b>381</b>
		Evidensgraderade resultat	381
		Bakgrund	381
		Frågor	382
		Litteratursökning	382
		Diskussion	382
		Referenser	383
		<b>8. Sammanfattande diskussion och konsekvensanalys</b>	<b>385</b>
		Diagnostik	385
		Insatser	386
		Organisation av diagnostik och insatser vid AST	388
		Patientens delaktighet vid AST	389

<b>9. Kunskapsluckor och framtida forskningsbehov</b>	<b>391</b>
9.1 Kunskapsluckor – Diagnostik och behandling vid AST	391
9.2 Kunskapsluckor – Organisation inom psykiatri med fokus på AST	394
9.3 Kunskapsluckor – Patientens delaktighet vid AST	395
<b>10. Ord- och förkortningslista</b>	<b>397</b>
<b>11. Projektgrupp, externa granskare, bindningar och jäv</b>	<b>407</b>
<b>Bilaga 1. Sökstrategier</b>	
Publicerade på <a href="http://www.sbu.se/215">www.sbu.se/215</a>	
<b>Bilaga 2. Granskningsmallar</b>	
Publicerade på <a href="http://www.sbu.se/215">www.sbu.se/215</a>	
<b>Bilaga 3. Exklusionslistor</b>	
Publicerade på <a href="http://www.sbu.se/215">www.sbu.se/215</a>	

# SBU:s sammanfattning och slutsatser

---



# SBU:s sammanfattning och slutsatser

---

## **Autismspektrumtillstånd (AST) – ett samlingsnamn för flera olika tillstånd**

Autismspektrumtillstånd (AST) är en samlande benämning för tillstånd med begränsning i utvecklingen av socialt samspel och ömsesidig kommunikation samt med repetitiva och stereotypa beteendemönster och begränsade intressen. Ofta finns också avvikelser i hur sinnesintryck upplevs och bearbetas. AST innefattar autistiskt syndrom, Aspergers syndrom och atypisk autism. Autistiskt syndrom kallas ibland enbart autism eller autism i barndomen. Vi använder oss av begreppet autistiskt syndrom. Prevalensstudier i Europa och Nordamerika visar att 0,6–1,0 procent av befolkningen har AST.

AST ger symtom tidigt i livet. Det är vanligt att personer med AST samtidigt har andra avvikelser i utvecklingen som mental retardation (utvecklingsstörning), språkstörning, specifika inlärningssvårigheter, Attention Deficit Hyperactivity Disorder (ADHD) och Tourettes syndrom. För många personer med AST finns också samsjuklighet med depressionstillstånd och ångestproblematik.

I denna litteraturöversikt har vi gjort en genomgång av det vetenskapliga underlaget för de diagnostiska instrument och behandlingsinsatser som används för AST i Sverige. Rapporten är en del i ett regeringsuppdrag om utvärdering av diagnostik och behandling för psykiatriska tillstånd. De diagnostiska instrumenten utgör inte ensamma tillräckligt underlag för diagnos, utan ska alltid vägas ihop med övriga utredningsresultat i en konsensusdiagnos (kan också benämnas LEAD; Longitudinal Observation by Experts using All Data). När det gäller insatser och behandling har det utvecklats ett stort antal metoder. Majoriteten av behandlingsmodellerna handlar om pedagogiska insatser inklusive beteendeterapi

med inriktning på basala färdigheter i socialt samspel och kommunikation, samt anpassning av miljön genom att t ex skapa visuell tydlighet. Idag finns ingen läkemedelsbehandling som är inriktad mot AST. Däremot används ibland risperidon vid allvarliga beteendestörningar som aggressivitet och självdestruktivt beteende hos personer med AST och vi har gjort en systematisk genomgång av litteraturen kring detta. I översikten ingår också avsnitt om den kunskap som finns om hur personer med dessa tillstånd upplever medverkan och delaktighet i utredning och behandling. Vi har även gått igenom litteraturen om organisatoriska, etiska och hälsoekonomiska aspekter på diagnostik och behandling av personer med AST.

#### Faktaruta 1 Diagnostik vid AST.

Kriterier för diagnos inom AST är uppställda genom internationell samverkan. De utgörs av en rad beskrivningar av symtom, som ska stämma in i viss grad för att diagnos ska ställas. Det har skapats en rad hjälpmedel med avsikt att underlätta tolkningen av diagnoskriterierna och göra diagnostiken mer enhetlig. Dels finns frågeformulär och intervjuer som på ett strukturerat sätt samlar information från närstående till barn eller från en vuxen person som utreds, dels finns underlag för att på ett systematiskt sätt göra beteendeobservationer.

En allsidig neuropsykiatrisk utredning brukar innefatta en begåvningsstestning, ofta också bedömning av språkfärdigheter och av andra områden i utvecklingen. I diagnostiken vid AST ingår att också ta ställning till om behov finns av medicinsk utredning med tanke på bakgrundsfaktorer och eventuella andra samtidiga sjukdomar eller funktionsnedsättningar.

Det innebär inga diagnostiska svårigheter att påvisa AST i den mest typiska formen, däremot kan bilden vara mångtydig och det kan vara svårt att hitta rätt benämning vid atypiska tillstånd. Diagnostiken kan vara särskilt svår hos barn och vuxna som också har andra avvikelser i utvecklingen eller andra psykiatriska symtom. Det är inte realistiskt att tro att något diagnosinstrument i 100 procent av alla fall ska ge samma resultat, som det man får vid bedömningar i ett kvalificerat utredningsteam, som har större mängd av information att kombinera.

## SBU:s slutsatser

### Instrument för utredning av autismspektrumtillstånd är dåligt utvärderade

Diagnostiska instrument och skattningsformulär är, tillsammans med övriga utredningsmetoder, en del i processen för att identifiera ett autismspektrumtillstånd. Det finns inga studier som utvärderar hela den diagnostiska processen. Vi har därför utvärderat de diagnostiska instrument och skattningsformulär som används som verktyg i den diagnostiska processen i Sverige för att identifiera AST.

Slutsatserna är:

- ❑ **Autismspektrumtillstånd innebär i många fall stora funktionsnedsättningar, och instrumenten för utredning bör undersökas bättre.** Det finns ett vetenskapligt stöd för 2 av 14 utvärderade instrument. Dessa instrument är Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R) och Social Communication Questionnaire (SCQ) för autismspektrumtillstånd. För detaljer om de två metodernas diagnostiska känslighet och tillförlitlighet, se avsnittet ”Evidensgraderade resultat”. I fråga om övriga diagnostiska instrument och skattningsformulär är det vetenskapliga underlaget otillräckligt för att dra några slutsatser.
- ❑ Eftersom instrumenten inte är tillräckligt utvärderade finns det skäl att låta den diagnostiska processen ligga kvar inom den specialiserade vården. Det är viktigt att man följer upp användningen av de diagnostiska instrumenten och skattningsformulären.
- ❑ **Många olika insatser och behandlingar, förutom läkemedel, används idag, men kunskapen om deras nytta, risker och kostnader måste förbättras.** Vi har identifierat 25 olika insatser och behandlingsmetoder som används vid autismspektrumtillstånd. Det vetenskapliga underlaget för att bedöma effekterna av dessa är otillräckligt. Träning som innefattar kombination av flera metoder är en vanlig form av insats i Sverige, men effekten har inte studerats.



- ❑ **Läkemedelsbehandling med risperidon minskar allvarliga beteendestörningar som aggressivitet och självdestruktivt beteende hos personer med autismspektrumtillstånd.** Hos barn med autistiskt syndrom ger korttidsbehandling (2 månader) med risperidon en begränsat bättre effekt än placebo på svåra beteendestörningar som social tillbakadragenhet, hyperaktivitet och stereotypa beteenden. En vanlig biverkning är viktuppgång.
- ❑ Det behövs studier av hur vården och samhällets insatser bäst bör organiseras och samordnas för personer med autismspektrumtillstånd.
- ❑ **Delaktigheten för personer med autismspektrumtillstånd och deras anhöriga behöver förbättras. Deras egna uppfattningar om vård och skola bör efterfrågas i större utsträckning.** Idag kan personer med autismspektrumtillstånd och deras anhöriga uppleva stigmatisering, social isolering, otillräckliga kunskaper hos vård- och skolpersonal, resursbrist och maktlöshet. Tidig diagnostik kan motverka stigmatisering. Det är viktigt att bristande delaktighet inte hindrar vårdens och skolans strävan att nå god kommunikation och kontakt. Det är också viktigt att rikta särskild uppmärksamhet till syskon, som annars kan få svårigheter med sociala relationer och ibland även utsättas för skrämmande och våldsamt beteende. Den vetenskapliga kunskapen kring betydelsen av delaktighet vid autismspektrumtillstånd kan förbättras avsevärt.

## Bakgrund och syfte

Att utreda och diagnostisera ett autismspektrumtillstånd (AST) är en komplex uppgift. Den diagnostiska bedömningen ska baseras på social samspelsförmåga, verbal och icke-verbal kommunikationsförmåga och förmåga till flexibelt och adaptivt beteende med hänsyn till individens utvecklingsnivå. Standard är en multiprofessionell klinisk bedömning. Inget enskilt diagnostiskt instrument utgör tillräckligt underlag för diagnos utan ska alltid vägas ihop med övriga utredningsresultat. Utredningen brukar innefatta både intervju med förälder eller annan närstående och observation av den person det gäller i vardagsmiljö och

vid testsituationen. Denna typ av konsensusdiagnos brukar även kallas LEAD. Vi har utvärderat två typer av instrument, skattningsformulär för symtom vid misstanke om AST, så kallad riktad screening, och diagnostiska instrument avsedda att användas som del i den diagnostiska utredningen.

Det har under årens lopp funnits olika teorier om uppkomstmekanismerna och detta har fått konsekvenser för de behandlingsmetoder som utvecklats. Även om det numera råder stor enighet om en neurobiologisk bakgrund till AST finns ändå viktiga skillnader i synsättet. Ett synsätt är att man ska använda alla möjligheter till träning för att personer med AST ska kunna fungera optimalt. Ett annat är att man ser det som viktigt att acceptera människor med AST som de är med sitt egna sätt att tänka och förstå omvärlden. En komplicerande faktor är att målgruppen är mycket heterogen. Det finns personer som är högfungerande medan andra har stora kognitiva och beteendemässiga svårigheter. Behandlingsinsatser finns i olika former. Det finns program med inriktning på de yngsta barnen, så kallad tidig intervention. Målsättningen är att hjälpa barnen till så normal utveckling som möjligt genom intensiv träning av kommunikation och socialt samspel. Andra insatser kan beskrivas som färdighetsträning och anpassning av pedagogik och social miljö efter de svårigheter som personen med AST har. Det är vanligt att olika typer av pedagogiska och psykologiska insatser kombineras, men studier är sällan upplagda på det sättet utan studerar en intervention i taget.

De ofta omfattande behoven av pedagogiska insatser, socialt stöd samt psykologiska och medicinska insatser innebär en utmaning för de olika samhällsorganisationer, förskola, skola, socialtjänst och sjukvård som måste samordna sina insatser.

Ytterligare ett syfte är att klarlägga den vetenskapliga kunskap man idag har om hur patienter med AST upplever sin medverkan och delaktighet i behandling och vård. Tillstånden karakteriseras av att patienterna har en skör och ibland svag autonomi och patientens delaktighet kan vara svår att synliggöra. Möjligheten till medbestämmande måste därför granskas noga.

## Uppdraget

Denna litteraturoversikt avser att granska det vetenskapliga underlaget för diagnostik och behandling av autismspektrumtillstånd (AST) avseende:

- Den diagnostiska tillförlitligheten för instrument som används vid utredning
- Effekter av tidig intervention
- Effekter av psykopedagogiska och psykoterapeutiska metoder
- Effekter av pedagogiska insatser och anpassningar i den sociala miljön
- Effekter av interventioner inriktade på kost
- Effekter av behandling med risperidon
- Biverkningar och oönskade effekter av de olika interventionerna
- Hälsoekonomiska aspekter
- Etiska och sociala aspekter
- Patientens delaktighet
- Organisation av vård och omsorg.

## Metod

Den systematiska översikten genomfördes i enlighet med SBU:s procedur. SBU har en noggrann och systematisk metodik där all relevant litteratur söks i tillgängliga databaser för den fråga som studeras. Varje inkluderad studie har kvalitetsgranskats och tabellerats enligt särskild metodik. Styrkan på det vetenskapliga underlaget bedömdes med hjälp av GRADE. Det innebär att granskningen omfattade en värdering av studiernas ämnesrelevans och metodologiska kvalitet, studiedesign, intern validitet (rimligt skydd mot systematiska fel), analys av resultat, statistisk styrka och generaliserbarhet.

Studier med kvalitativ metodik kvalitetsgranskades enligt ett särskilt protokoll. Resultaten i de utvalda studierna vägdes samman i en sekundär kvalitativ analys. Genom den fortsatta analysen sammanfördes data från studierna till flera teman, som redovisas som syntetiserade resultat.

## Faktaruta 2 Mått på diagnostisk tillförlitlighet.

Relationen mellan testresultat och sjukdomsstatus kan uttryckas med olika mått. Vi uttrycker evidensstyrkan för de diagnostiska formulären i form av sensitivitet och specificitet:

Sensitivitet anger sannolikheten för att sjuka får ett positivt testresultat. Specificitet anger sannolikheten för att friska får ett negativt testresultat.

## Faktaruta 3 Studiekvalitet, evidensstyrka och slutsatser.

### Kvantitativ studiedesign

**Studiekvalitet** avser den vetenskapliga kvaliteten hos en enskild studie och dess förmåga att besvara en viss fråga på ett tillförlitligt sätt.

**Evidensstyrkan** är en bedömning av hur starkt det sammanlagda vetenskapliga underlaget är för att besvara en viss fråga på ett tillförlitligt sätt. SBU tillämpar det internationellt utarbetade evidensgraderingssystemet GRADE. För varje effektmått utgår man i den sammanlagda bedömningen från studiernas design. Därefter kan evidensstyrkan påverkas av förekomsten av försvagande eller förstärkande faktorer som studiekvalitet, relevans, samstämmighet, överförbarhet, effektstorlek, precision i data, risk för publikationsbias och andra aspekter, t ex dos-responssamband.

Evidensstyrkan graderas i fyra nivåer:

**Starkt vetenskapligt underlag (⊕⊕⊕⊕).** Bygger på studier med hög eller medelhög kvalitet utan försvagande faktorer vid en samlad bedömning.

**Måttligt starkt vetenskapligt underlag (⊕⊕⊕○).** Bygger på studier med hög eller medelhög kvalitet med förekomst av enstaka försvagande faktorer vid en samlad bedömning.

**Begränsat vetenskapligt underlag (⊕⊕○○).** Bygger på studier med hög eller medelhög kvalitet med försvagande faktorer vid en samlad bedömning.

Faktarutan fortsätter på nästa sida

### Faktaruta 3 fortsättning

**Otillräckligt vetenskapligt underlag (⊕○○○).** När vetenskapligt underlag saknas, tillgängliga studier har låg kvalitet eller där studier av likartad kvalitet visar motsägande resultat, anges det vetenskapliga underlaget som otillräckligt.

Ju starkare evidens desto mindre sannolikt är det att redovisade resultat kommer att påverkas av nya forskningsrön inom överblickbar framtid.

#### Kvalitativ studiedesign

Evidensstyrkan i resultatet bedöms enligt följande:

**Vetenskapligt stöd föreligger.** Slutsatser kan dras eftersom identifierade studier har tillräcklig kvalitet och relevans.

**Otillräckligt vetenskapligt stöd föreligger.** Inga slutsatser kan dras eftersom identifierade studier saknar tillräcklig kvalitet och relevans.

#### Slutsatser

I SBU:s slutsatser görs en sammanfattande bedömning av nytta, risker och kostnadseffektivitet.

## Evidensgraderade resultat

### Instrument för utredning av AST

Av de fjorton diagnostiska instrument som används är enbart tre utvärderade i mer än i en studie.

Social Communication Questionnaire (SCQ) missar 3 av 10 personer med ett autismspektrumtillstånd och ger falsk indikation i 3 fall av 10.

Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R) förefaller ha acceptabel förmåga att korrekt identifiera barn med diagnosen autistiskt syndrom men är inte lika bra på att utesluta diagnos.

Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS) förefaller bra på att hitta personer med autistiskt syndrom. Men det vetenskapliga underlaget är otillräckligt för att bedöma förmågan att inte ge falska diagnoser. Eftersom förmågan att ställa korrekt diagnos och inte ge falska diagnoser hänger ihop, är den samlade bedömningen att det vetenskapliga underlaget för ADOS är otillräckligt.

För övriga diagnostiska instrument och skattningsformulär är det vetenskapliga underlaget otillräckligt.

### Social Communication Questionnaire (SCQ)

#### Identifiera AST

- Det finns måttligt starkt vetenskapligt underlag för att SCQ har en sensitivitet på 71 procent (95 % KI, 66 till 74; cut-off 15 poäng) för att identifiera AST med DSM-IV eller ADI-R och ADOS i kombination som referensstandard hos barn och ungdomar 2–16 år i specialiserad vård för AST (⊕⊕⊕○).
- Det finns måttligt starkt vetenskapligt underlag för att SCQ har en specificitet på 74 procent (95 % KI, 69 till 79; cut-off 15 poäng) för att utesluta AST med DSM-IV eller ADI-R och ADOS i kombination som referensstandard hos barn och ungdomar 2–16 år i specialiserad vård för AST (⊕⊕⊕○).

### Social Responsiveness Scale (SRS)

#### Identifiera AST

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att bedöma tillförlitligheten för att identifiera AST med SRS (föräldraskattning) hos barn (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att bedöma tillförlitligheten för att identifiera AST med SRS (föräldraskattning och lärarskattning i kombination) hos barn (⊕○○○).

## Ritvo Autism Asperger Diagnostic Scale-Revised (RAADS-R)

### *Identifiera AST*

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att bedöma tillförlitligheten för att identifiera AST med RAADS-R (självskattning) hos vuxna (⊕○○○).

## Autism Spectrum Screening Questionnaire (ASSQ)

### *Identifiera AST*

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att bedöma tillförlitligheten för att identifiera AST med ASSQ (föräldras-kattning och lärarskattning) hos barn (⊕○○○).

## Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R)

### *Ställa diagnosen autistiskt syndrom*

- Det finns begränsat vetenskapligt underlag för att ADI-R har en sensitivitet på 79 procent (95 % KI, 73 till 84) för att ställa diagnosen autistiskt syndrom med DSM-IV som referensstandard hos individer i åldern 1,5–22 år i specialiserad vård för AST (⊕⊕○○).
- Det finns begränsat vetenskapligt underlag för att ADI-R har en specificitet på 66 procent (95 % KI, 60 till 72) för att utesluta diagnosen autistiskt syndrom med DSM-IV som referensstandard hos individer 1,5–22 år i specialiserad vård för AST (⊕⊕○○).

## Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS)

### *Ställa diagnosen autistiskt syndrom*

- Det finns begränsat vetenskapligt underlag för att ADOS har en sensitivitet på 88 procent (95 % KI, 88–92 procent) för att ställa diagnosen autistiskt syndrom med DSM-IV som referensstandard hos individer 1,5–22 år i specialiserad vård för AST (⊕⊕○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (heterogenitet) för att bedöma den diagnostiska tillförlitligheten mätt som specificitet för att utesluta diagnosen autistiskt syndrom med ADOS hos barn och ungdomar (⊕○○○).

## Childhood Autism Rating Scale (CARS)

### *Ställa diagnosen autistiskt syndrom*

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att bedöma den diagnostiska tillförlitligheten för att ställa diagnosen autistiskt syndrom med CARS hos barn (⊕○○○).

## Övriga diagnostiska instrument

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma tillförlitligheten för att identifiera AST hos följande instrument (⊕○○○):
  - Asperger Syndrome Diagnostic Interview (ASDI)
  - Autism Diagnostic Observation Schedule-Toddler Module (ADOS-TM)
  - Autism Spectrum Disorder Adult Screening Questionnaire (ASDASQ)
  - Autism spectrum Quotient (AQ)
  - Childhood Autism Spectrum Test (CAST)
  - Development and Well-Being Assessment (DAWBA)
  - Diagnostic Interview for Social and Communication disorders (DISCO)
  - Scheudle for Affective Disorders and Schizophrenia for school-aged children (Kiddie-SADS)

## Insatser vid AST

Här presenteras alla utvärderade behandlingsinsatser utom läkemedels-behandling.

### **Effekt av tidig intervention**

Det vetenskapliga underlaget är otillräckligt för att bedöma effekten av tidig (före 3,5 års ålder) intensiv träning inriktad på socialt samspel och kommunikation pga heterogena studier. Studier saknas för att bedöma effekten av Floortime och Son-Rise Program hos barn med AST.

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (sex randomiserade kontrollerade studier med brister i samstämmighet och studiekvalitet)

för att bedöma effekten av tidig intensiv träning inriktad på socialt samspel och kommunikation hos barn med AST (⊕○○○).

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en randomiserad kontrollerad studie och nio kohortstudier med brister i studiekvalitet och samstämmighet) för att bedöma effekten av tidig intensiv träning med beteendeterapeutiskt inriktad metodik hos barn med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma effekten av Floortime hos barn med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma effekten av Son-Rise hos barn med AST (⊕○○○).

### **Biverkningar och oönskade effekter**

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) avseende biverkningar vid tidig intensiv träning inriktad på socialt samspel och kommunikation och tidig intensiv träning med beteendeterapeutiskt inriktad metodik (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) avseende biverkningar vid Floortime och Son-Rise hos barn med AST (⊕○○○).

### **Psykologiska och psykoterapeutiska insatser**

Det vetenskapliga underlaget för olika psykologiska och psykoterapeutiska insatser vid AST är otillräckligt.

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (två studier med brister i studiekvalitet och samstämmighet) för att avgöra om kognitiv beteendeterapi ger symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om kognitiv beteendeterapi i kombination med risperidon ger bättre effekt än risperidon, mätt i form av irritabilitet, hyperaktivitet och

stereotypa beteenden med Aberrant Behavior Checklist (ABC) (⊕○○○).

### **Pedagogiska insatser och anpassning av miljö**

Det vetenskapliga underlaget för olika pedagogiska insatser och social träning vid AST är otillräckligt.

#### ***Effekter på kärnsymtom***

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att avgöra om Treatment and Education of Autistic and Communication handicapped Children (TEACCH) ger symtomlindring med avseende på kärnsymtom hos personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om Picture Exchange Communication System (PECS) ger symtomlindring med avseende på kärnsymtom hos personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om träning av social förmåga ger symtomlindring med avseende på kärnsymtom hos personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att avgöra om datorbaserad träning ger symtomlindring med avseende på kärnsymtom hos personer med AST (⊕○○○).

#### ***Effekter på associerade problem***

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (två kohortstudier) för att avgöra om Treatment and Education of Autistic and Communication handicapped Children (TEACCH) ger förbättrad adaptiv förmåga hos personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en kohortstudie) för att avgöra om Treatment and Education of Autistic and Communication handicapped Children (TEACCH) ger bättre kognition hos personer med AST (⊕○○○).

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (tre studier med brister i studiekvalitet och samstämmighet) för att avgöra om datorbaserad träning ger förbättrad social förmåga hos personer med AST (⊕○○○).

### Övriga metoder

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att avgöra effekten av följande metoder (⊕○○○):
  - Sociala berättelser/Social stories
  - Seriesamtal
  - KAT-kit
  - Autism preschool program
  - Early bird program
  - Specialpedagogik, tydliggörande pedagogik (structured teaching) förutom som ett led i TEACCH-programmet ovan.

### Interventioner inriktade på kost

Det vetenskapliga underlaget för att bedöma nytta och risk med kost vid AST är otillräckligt.

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om gluten- och kaseinfri diet ger bättre effekt än kostråd hos barn med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om tillskott av omega-3 ger bättre effekt än placebo hos barn med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om tillskott av omega-3 ger bättre effekt än hälsosam diet hos barn med autistiskt syndrom (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om tillskott av vitamin B<sub>12</sub> ger bättre effekt än placebo hos barn med autistiskt syndrom (⊕○○○).

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för nedanstående behandlingsmetoder för patienter med AST (⊕○○○):
  - Vitamin B<sub>6</sub> och magnesium
  - Vitamin D
  - Probiotika.

### Övriga insatser

Det vetenskapliga underlaget för interventioner inriktade på hjärnans funktion vid AST är otillräckligt.

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för nedanstående behandlingsmetoder för personer med AST. (⊕○○○):
  - Sensoriskt-motoriska interventioner som sensorisk integrations-terapi (sensory integration therapy)
  - Musikterapi
  - Transkraniell magnetstimulering (TMS)
  - Deep brain stimulation (DBS), vagus nerve stimulation (VNS)

### Oönskade effekter/biverkningar

Inga studier har hittats som behandlar oönskade effekter eller biverkningar av de beskrivna insatserna.

### Läkemedelsbehandling med risperidon vid AST

Det finns idag inga läkemedel för att behandla AST. Men risperidon används för behandling av allvarliga beteendestörningar som aggressivitet och självdestruktivt beteende hos personer med AST.

- Hos barn med autistiskt syndrom ger korttidsbehandling (2 månader) med risperidon en begränsat bättre effekt än placebo på svåra beteendestörningar såsom social tillbakadragenhet, hyperaktivitet och stereotypa beteenden. Biverkningar är viktuppgång och nedsatt vakenhet. För vuxna är det vetenskapliga underlaget otillräckligt. Risperidonbehandling leder till viktuppgång och nedsatt vakenhetsgrad hos barn och ungdomar. För biverkningar hos vuxna med AST

saknas vetenskapligt underlag. Det är dock visat på andra patientgrupper att denna typ av läkemedel ger biverkningar. Långtidsuppföljningar saknas helt.

## Effekt

### *Barn och ungdomar*

- Det finns måttligt starkt vetenskapligt underlag för att korttidsbehandling (2 månader) med risperidon, i jämförelse med placebo, ger begränsat bättre effekt i form av förbättringar avseende social tillbakadragenhet, hyperaktivitet och stereotypa beteenden mätt med Aberrant Behavior Checklist (ABC) hos barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom (⊕⊕⊕○).
- Det finns begränsat vetenskapligt underlag för att korttidsbehandling (2 månader) med risperidon, i jämförelse placebo, ger begränsat bättre effekt i form av förbättringar avseende irritabilitet och olämpligt språk mätt med Aberrant Behavior Checklist (ABC) hos barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom (⊕⊕○○).
- Det finns begränsat vetenskapligt underlag för att risperidon, i jämförelse med placebo, ger bättre effekt i form av förbättringar avseende globalt kliniskt intryck (CGI) hos barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom (⊕⊕○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för bedöma om behandling med risperidon av barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom ger bättre effekt än placebo avseende kärnsymtom mätt med Childhood Autism Rating Scale (CARS) (⊕○○○).

### *Vuxna*

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om behandling med risperidon, i jämförelse med placebo, ger bättre effekt i form av förbättringar avseende globalt kliniskt intryck (CGI) av vuxna med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom (⊕○○○).

## Biverkningar

### *Barn och ungdomar*

- Det finns måttligt starkt vetenskapligt underlag för att risperidon, i jämförelse med placebo, leder till viktuppgång (cirka 2 kg) hos barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom (⊕⊕⊕○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att risperidon, i jämförelse med placebo leder till ökad somnolens (nedsatt vakenhetsgrad) hos barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom<sup>1</sup> (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om risperidon, i jämförelse med placebo, inte ger ökad risk för extrapyramidala biverkningar hos barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom (⊕○○○).

### *Vuxna*

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att bedöma biverkningar vid behandling med risperidon av vuxna med allvarliga beteendestörningar vid AST<sup>1</sup> (⊕○○○).

## Organisation inom psykiatrin med fokus på AST

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma om primärvården/första linjens vård är likvärdigt med vård inom den specialiserade psykiatrin för personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma om specialiserade rehabiliterings/habiliteringsverksamheter är bättre än rehabilitering/habilitering inom befintliga organisationsstrukturer för personer med AST (⊕○○○).

<sup>1</sup> Det är visat på andra patientgrupper att denna typ av läkemedel ger biverkningar.

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma om stödinsatser till personalen eller strukturella hjälpmedel till organisationen förbättrar diagnostik och behandling av personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma om organisationsformer som aktivt använder kommunikation med modern teknik (datorer, mobiltelefon etc) är bättre än organisationsformer som inte bygger på sådan kommunikation för personer med AST (⊕○○○).

### Patientens delaktighet vid AST

I avsnittet om patientens delaktighet är nästan alla studier utförda med kvalitativ metodik. Evidensstyrkan bedöms då på annat sätt (Faktaruta 3).

- Det finns vetenskapligt stöd för att personer med AST upplever osäker identitet och ensamhet. Många saknar materiellt och emotionellt stöd och resurser, samhörighet och acceptans efterlyses.
- Det vetenskapliga stödet är otillräckligt för att bedöma hur personer med AST uppfattar sina möjligheter till delaktighet i utredning och behandling.
- Det finns vetenskapligt stöd för att personer med AST och deras föräldrar upplever otillräckliga kunskaper hos personal inom vård och skola samt att resurser och stöd är alltför begränsade. Föräldrar och syskon involveras ibland på ett sätt som kan leda till oenigheter i familjen.
- Det finns vetenskapligt stöd för att personer med AST, deras syskon och föräldrar upplever att det finns stigmatiseringsproblem och att dessa motverkas av en tidig diagnos.

- Det finns vetenskapligt stöd för att anhöriga och professionella vårdare till personer med AST upplever resursbrist, stress, sorg och maktlöshet, men också en ökad medkänsla och ansvarsmedvetenhet.

### Hälsoekonomi

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att avgöra om risperidon är kostnadseffektivt vid behandling av personer med AST (⊕○○○).

Eftersom det vetenskapliga underlaget för effekt av icke farmakologiska insatser är otillräckligt betyder det även att:

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att avgöra om icke-farmakologiska insatser är kostnadseffektiva vid behandling av personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att avgöra kostnadseffektivitet av olika organisatoriska aspekter vid behandling av personer med AST (⊕○○○).

### Kunskapsluckor

Inom ramen för denna genomgång har ett stort antal kunskapsluckor identifierats. För en fullständig förteckning, se [www.sbu.se/kunskapsluckor](http://www.sbu.se/kunskapsluckor). Här följer några av de viktigaste kunskapsluckorna:

- Många av de diagnostiska formulär som används i Sverige idag är otillräckligt studerade.
- Evidensläget för effekt och biverkningar av insatser vid AST är bristfälligt. Därför är det viktigt att luckorna fylls i första hand för de typer av insatser som används mest idag, som tidig intervention, social träning (t ex sociala berättelser och seriesamtal) och miljöanpassning.



- Kunskapen om effekter av risperidonbehandling är bristfällig med avseende på effekter och biverkningar hos vuxna.
- Studier om kostnadseffektivitet saknas för alla typer av interventioner vid AST.
- Organisation i betydelsen hur vården och samhällets insatser är organiserade för personer med AST är i hög grad ett outforskat fält.
- Det saknas vetenskapligt underlag för hur personer med AST upplever utredning och behandling. Detta gäller för barn, vuxna och äldre.
- Det saknas vetenskapligt underlag för att bedöma delaktighetens effekter på behandlingen samt för att visa vad som kan främja patientens delaktighet.
- Det saknas vetenskapligt underlag om hur personer med AST önskar kommunicera. Vetenskapligt underlag saknas också om hur man bör kommunicera för att vara säker på att de förstår informationen.
- Det saknas i stor utsträckning studier om genusaspekter hos personer med AST. Mäns och kvinnors olika upplevelser behöver belysas. Det behövs också fler svenska studier.

## Sammanfattande diskussion och konsekvensanalys

### Diagnostik

Denna systematiska översikt stödjer indirekt den praxis som redan finns när det gäller diagnostik av AST, nämligen att det är en specialistuppgift som kräver en specialutbildad läkare (barnpsykiater, barnneurolog eller barnläkare med särskild kompetens inom området) och en psykolog med särskild utbildning inom området. Det pågår fortfarande en utveckling

vad gäller definition och avgränsningar av tillståndet, liksom tekniken för att ställa diagnos.

Risken för över- respektive underdiagnostik finns men upplevs inte så stor som för en del andra neuropsykiatriska tillstånd, särskilt ADHD. Denna risk minimeras av att diagnostiken sköts av en professionell enhet.

Vår utvärdering har visat att ingen enskild undersökningsmetod, vare sig frågeformulär eller observationsscheman av olika slag ensamt kan fastställa diagnosen. Det krävs en samlad bild av information från föräldrar, närstående och andra i personens närhet som förskollärare och lärare, samt en klinisk bedömning. Det finns ett behov av forskning som ser på ett samlat batteri av undersökningsmetoder och hur väl ett sådant batteri tillfredsställer krav på tillförlitligheten vad gäller diagnostiken. Det finns också anledning att upprätta nationella riktlinjer för hur diagnostiken ska bedrivas för att få en så enhetlig diagnostik som möjligt över hela landet.

Diagnostiskt finns ett brett spektrum inom AST-tillstånden, de som har mycket stora funktionsnedsättningar och de som är högfungerande. Personer med AST och låg utvecklingsnivå (svår utvecklingsstörning) behöver mycket tillsyn och praktisk hjälp. Den som har AST vid normal eller hög begåvning har ändå nedsatt förmåga att klara situationer i vardagen (bristande adaptiv förmåga). På alla begåvningsnivåer är det vanligt med avvikelser i beteendet som påverkar både personen själv och närstående på negativt sätt, t ex svårighet att hitta konstruktiva aktiviteter med jämnåriga, läsning i enahanda beteende, svårighet att tåla förändringar m m.

Sammantaget innebär det att diagnostiken måste vara anpassad för att fånga upp dessa personer, med mycket stora skillnader i funktionsnivå på en mängd olika områden. Detta gör den diagnostiska processen komplicerad. Vid de svåraste formerna av AST är det dock betydligt enklare att ställa en diagnos än vid mildare former, samt när det finns en betydande samsjuklighet. Diagnosen kan ställas redan i småbarnsåldern, men även under hela barnets och ungdomens utvecklingsperiod. Det

är därför viktigt med ingående kunskaper i barns och ungdomars olika utvecklingsfaser. Det är t ex inte lämpligt att börja tala om personlighetsstörningar hos barn och ungdomar förrän de har genomgått hela sin utvecklingsperiod upp i vuxenåldern. På samma sätt skiljer sig psykiatriska sjukdomstillstånd som depressioner och psykoser åt beroende på ett barns och ungdoms utvecklingsnivå.

Diagnostiken sker bäst i en miljö där utredning, behandling och uppföljning sker i ett nära samarbete. De som utreder lär sig också av att delta i behandlingsarbetet liksom behandlingspersonal också lär sig av att delta i den diagnostiska processen. Därför finns det anledning för huvudmannen att överväga det kloka i att dessa verksamheter är separata, vilket förekommer i en del fall.

## Insatser

Samhället ger idag insatser via habilitering och sjukvård och via kommunala och statliga instanser (som försäkringskassan). Det är en allmän beprövad erfarenhet att dessa insatser är absolut nödvändiga och att de ofta är till stor hjälp. Insatser är dels av praktisk natur för att underlätta situationen för den enskilde och närstående, dels som träning eller behandling med inriktning mot att påverka symtombilden. Denna rapport behandlar i huvudsak den senare typen av riktade insatser.

Vår genomgång har visat att det finns många behandlingsmetoder som används i större eller mindre utsträckning med bristande vetenskapligt underlag. Det finns alltså ett stort behov av forskning inom behandlingsområdet. Den forskning som finns gäller framför allt små barn, medan det finns mycket lite forskning om behandling av tonåringar och vuxna. Inom habilitering och sjukvård i Sverige erbjuds ofta personer med AST så kallad eklektisk behandling. Det innebär ofta en blandning av olika metoder mer eller mindre systematiskt. Det finns inga studier om effekten av dessa samlade insatser – mer än beprövad erfarenhet. I studier jämförs i allmänhet olika behandlingsalternativ med denna typ av insats. Över huvud taget finns väldigt lite rapporterat om möjliga biverkningar och problem med alla de olika behandlingsmodeller som prövas.

Tidig intervention till små barn är mycket resurskrävande och oftast ligger uppgiften på föräldrarna. Det är vanligt att insatser på förskolan kombineras med insatser i hemmet. För föräldrarna kan det vara en mycket tung uppgift. De ska samtidigt också ansvara för syskon och få tid för sig själva. Detta kan bli mycket påfrestande och också få stora ekonomiska konsekvenser för familjen.

Studier av tidig intervention kräver stora resurser eftersom det handlar om resurskrävande insatser under lång tid, kanske en hel uppväxttid, med upprepade uppföljningar.

Det finns påtagliga metodproblem för den här typen av studier. Det saknas t ex en enkel och allmänt använd metod att mäta effekten av insatserna. Av etiska skäl är det idag inte möjligt att jämföra effekten av ett program med förloppet utan någon insats alls. Jämförelsegruppen är ofta oklart beskriven. Trots dessa svårigheter finns det idag en stor mängd seriöst upplagd forskning kring insatserna vid AST. Detta är att jämföra med många rapporter (i media och via nätet) om olika behandlingar som rapporterar framsteg utan att det finns en jämförelsegrupp och utan kritisk granskning av metodiken.

Det finns inget läkemedel som utvecklats för att behandla kärnsymtomen<sup>2</sup> vid AST. Eftersom orsakerna till dessa tillstånd är ofullständigt kända finns det anledning att uppmuntra grundforskning inom detta område. I vår genomgång har vi inte utvärderat andra läkemedel än risperidon eftersom det är det enda läkemedlet som är godkänt för behandling av allvarliga beteendestörningar som aggressivitet och självdestruktivt beteende vid AST. Det finns anledning att göra en genomgång av vilka andra läkemedel som prövats vid AST utan att ha indikationen för tillståndet.

---

<sup>2</sup> Kärnsymtom är de symtom som är utmärkande för en sjukdom eller ett tillstånd. För AST är kärnsymtomen brister i social interaktion och kommunikation samt stereotypa beteenden.

Det finns få studier om hälsoekonomin vid dessa tillstånd trots att det handlar om en grupp med stora behov och ofta ett livslångt behov av stödinsatser från samhällets sida. Det behövs alltså studier av kostnadseffektiviteten för olika typer av behandlingsinsatser.

## Organisationen av diagnostik och insatser vid AST

Det finns ett behov av att ytterligare förtydliga ansvaret för såväl utredning som behandling för olika huvudmän, landstingen och hälso- och sjukvården och kommunerna vad gäller förskola, skola och socialtjänst eftersom behovet av insatser är stort inom de olika ansvarsområdena. Hälso- och sjukvårdens roll är mer begränsad till den diagnostiska processen och vissa behandlingsinsatser medan förskola och skola har ett stort ansvar för de pedagogiska insatserna. Det är därför viktigt att alla dessa olika aktörer samarbetar nära med varandra. Alla har rätt till en individuell plan, men i praktiken upprättas inte alltid en sådan.

Diagnostik, vård och behandling av dessa tillstånd måste ske i nära samarbete mellan de olika organisationer som är berörda. Detta ställer krav på samarbetsrutiner och en gemensam grundsyn vad gäller dessa barn och ungdomar, tillståndets natur och de behov som uppstår pga detta. Privatiseringen av vården kan tänkas ha konsekvenser för hur diagnostik och behandling kommer till stånd. Det finns anledning att huvudmän och tillsynsmyndigheter bevakar denna problematik.

## Patientens delaktighet vid AST

I studierna kan man urskilja två grupper av personer med AST. Den första är barn och ungdomar som har så omfattande och/eller vårdkrävande funktionsnedsättningar att de inte kan vårdas i hemmet. Den andra gruppen utgörs av barn och ungdomar som kan klara sig i hem och skola med olika typer av stöd. Till den andra gruppen hör också personer med Aspergers syndrom som kan ha starka åsikter om sin identitet och om samhällets syn på dem själva. Gemensamt för alla grupper är att de har svårigheter med det sociala umgänget och de sociala spelreglerna, kommunikationssvårigheter i varierande grad, begränsade intressen och

rutinbeteenden. Syskon och föräldrar är i hög grad påverkade av situationen samtidigt som de också blir talesmän. När ett barn har AST är det inte endast ett isolerat problem för barnet, utan för hela familjen, släkt och vänner, liksom lärare och stödpersoner.

Studierna visar att syskon till personer med AST kan komma i kläm, de känner stort ansvar och medkänsla, men kan också känna rädsla, osäkerhet och drabbas av svårigheter med egna sociala relationer. Hela familjen behöver stöd. Det framkommer även att föräldrar till barn med AST anser att stigmatiseringen motverkas av att få en tidig och tydlig diagnos.

Föräldrar till barn med AST uttrycker i studierna att de har en arbetsam och besvärlig situation både på det ekonomiska, sociala och existentiella planet, med uttalad oro för både aktuell situation och framtiden. De inser att de är de enda som kan ta tillvara sitt barns intressen på sikt och måste därför börja kämpa redan i förskolan. De saknar ett pålitligt stöd från samhället, men om de får det dämpas oron. Specialskolor och ökad tillgänglighet efterfrågas. De anser sig behöva ta ledarskapet, förhandla om utbildningsstruktur och fungera som förespråkare även för lärare. Förflyttningar från en plats till en annan eller från en årskurs till en annan, bör vara väl förberedda och behovsprövade.

## Etiska, sociala och genusrelaterade aspekter

De viktigaste aspekterna som framkommit är att personer med AST är en sårbar grupp, i många fall med en begränsad autonomi samt att kunskapsluckorna är många, både när det gäller diagnostiska instrument och insatser. Denna kunskapsbrist kan skapa vanmakt för vården, men här kan den beprövade erfarenheten ha ett värde. Flera olika huvudmän är involverade när det gäller personer med AST. Detta kan leda till att de hamnar ”mellan stolarna”. Här har huvudmännen ett ansvar för ett bättre samarbete. Vuxna med AST kan ha svårt att ta sig in på arbetsmarknaden och det kan leda till ett socialt utanförskap.

# 1. Inledning

---

## Uppdraget

Denna rapport är en del i ett uppdrag från Socialdepartementet (2009) att utvärdera metoder inom psykiatrin och ta fram kunskapsöversikter inom området psykiatrisk vård, behandling och rehabilitering. SBU fick i uppdrag att utvärdera områden där behovet av kunskapsutveckling och kunskapsstöd i den psykiatriska vården bedömdes vara särskilt stort, eller områden som var angelägna för den kliniska verksamheten att få belysta.

## Autismspektrumtillstånd (AST) – ett samlingsnamn för flera olika tillstånd

Autismspektrumtillstånd (AST) är en samlande benämning för tillstånd med begränsning i utvecklingen av socialt samspel och ömsesidig kommunikation samt med repetitiva och stereotypa beteendemönster och begränsade intressen. Ofta finns också avvikelser i hur sinnesintryck upplevs och bearbetas. AST innefattar autistiskt syndrom, Aspergers syndrom och atypisk autism. Autistiskt syndrom kallas ibland enbart autism eller autism i barndomen. I den här rapporten kommer vi att använda oss av begreppet autistiskt syndrom.

AST ger symtom tidigt i livet. Det är vanligt att personer med AST samtidigt har andra avvikelser i utvecklingen som mental retardation (utvecklingsstörning), språkstörning, specifika inlärningssvårigheter, Attention Deficit Hyperactivity Disorder (ADHD) och Tourettes syndrom. För många personer med AST finns också samsjuklighet med depressionstillstånd och ångestproblematik.

När det gäller behandling har det utvecklats ett stort antal metoder för att reducera de olika typer av funktionsnedsättningar som karakteriserar tillstånden. Majoriteten av de behandlingsmodeller som utvecklats handlar om olika typer av färdighetsträning, psykopedagogiska insatser,

beteendemodifikationer och socialt stöd av olika slag samt anpassning av miljön. Idag finns ingen läkemedelsbehandling som är inriktad mot kärnsymtomen<sup>1</sup>. För behandling av utagerande beteenden av olika slag och för att dämpa stereotypa beteenden kan neuroleptika (i första hand andra generationens) användas. I denna läkemedelsgrupp finns för närvarande bara risperidon registrerat hos Läkemedelsverket för behandling av allvarliga beteendestörningar vid autism.

## Diagnostiken bygger på information från flera håll

Autismbegreppet som vi nu använder det beskrevs av psykiatern Leo Kanner år 1943 i en artikel med titeln ”Autistic disturbances of affective contact” [1]. År 1944 beskrev den österrikiske pediatrikern Hans Asperger [2], barn med problem liknande de som beskrevs av Kanner, men dessa barn var mera högfungerande än Kanners och flera av dem hade en hög intelligens kopplad till begränsade intressen. Båda författarna beskrev en överrepresentation av män, social isolering, kommunikationsproblem, frånvaro av uttrycksfullhet, dålig ögonkontakt, ingen fantasifull lek, beteendestörningar, framför allt utagerande beteende samt särpräglade förmågor inom vissa snäva områden.

Inom psykiatri finns två diagnossystem. WHO:s internationella klassifikationssystem, International Classification of Diseases and Related Health Problems, version 10 (ICD-10) är det som används officiellt internationellt och även i den svenska nationella statistiken (Faktaruta 1.1). Det andra internationella diagnossystemet är utvecklat av Amerikanska Psykiatriska Föreningen (APA), och heter Diagnostic and Statistical Manual, version IV, text revision (DSM-IV-TR). DSM-IV-TR har fått spridning framför allt i vetenskapliga sammanhang, men används numera även i klinisk praxis. ICD-10 och DSM-IV-TR överensstämmer i stort sett med varandra och för närvarande pågår en revision av båda systemen. DSM-5 planeras komma ut år 2013 och ICD-11 år 2015.

<sup>1</sup> Kärnsymtom är de symtom som är utmärkande för en sjukdom eller ett tillstånd. För AST är kärnsymtomen brister i social interaktion och kommunikation samt stereotypa beteenden.

Autistiskt syndrom var länge kopplat till schizofrenibegreppet och redan år 1911 använde den schweiziske psykiatern Eugen Bleuler termen autism för att beskriva patienter med schizofreni, som isolerade sig socialt och tycktes försjunkna i sig själv [3]. I de två första upplagorna av DSM-systemet sågs autism som ingående i barndomsschizofrenitillståndet. Begreppet autism etableras i slutet av 1970-talet och i DSM-III finns autism baserad på 16 olika kriterier, ungefär som vi nu känner till dem. I DSM-IV (1994) ingår nu autistiskt syndrom, Aspergers syndrom och genomgripande störning i utvecklingen UNS (utan närmare specifikation). Kriterierna enligt DSM-IV-TR finns i Faktaruta 1.2.

Diagnostiken bygger på information från föräldrar och närstående som känner till barnen och ungdomarna väl samt en klinisk bedömning av patienten. Den diagnostiska utredningen är omfattande när det gäller AST pga den sammansatta problematiken. En komplicerande faktor är den stora förekomsten av samsjuklighet. Majoriteten identifieras tidigt i barndomen och under uppväxten och en mindre andel får sin diagnos som vuxna. Detta innebär att AST huvudsakligen diagnostiseras och behandlas inom barn- och ungdomspsykiatri, barnsjukvården och habiliteringen. Diagnostiken kräver resurser i form av läkare och psykolog. Ofta har man på klinikerna organiserat särskilda team för utredning och behandling av dessa tillstånd, som förutom läkare och psykolog ofta består av andra professioner beroende på svårighetsgrad. Samarbetet med förskola och skola och sociala myndigheter är viktigt med tanke på de ofta mycket sammansatta funktionsnedsättningarna.

## Faktaruta 1.1 Diagnoskriterier för AST enligt ICD-10.

### Autism i barndomen

Kod: F84.0

En genomgripande utvecklingsstörning som manifesterar sig före tre års ålder och karakteriseras av försämrad utveckling av socialt samspel, kommunikationsförmåga och av ett begränsat, stereotypt och repetitivt beteende. Härtill kommer en rad mindre specifika fenomen som fobier, sömn- och ätstörningar, raserianfall och självdestruktivt beteende.

*Innefattar:*

Autistisk störning

Infantil:

- autism
- psykos

Kanners syndrom

*Utesluter:*

Autistisk psykopati (F84.5)

### **Diagnostiska kriterier för autism i barndomen**

A. Avvikande eller bristande utveckling är tydlig före tre års ålder inom åtminstone ett av följande områden:

1. receptivt eller expressivt språk som används i social kommunikation
2. utvecklingen av specifik (selektiv) social anknytning eller av ömsesidigt socialt samspel
3. funktionell lek eller symbollek.

B. Sammanlagt måste åtminstone sex symtom från (1), (2) och (3) föreligga, med åtminstone två från (1) och åtminstone ett vardera från (2) och (3).

1. Kvalitativa avvikelser i ömsesidigt socialt samspel tar sig åtminstone två av följande uttryck:
  - a. oförmåga att adekvat använda blickkontakt, ansiktsuttryck, kroppshållning och gester för att reglera det sociala samspelet
  - b. oförmåga att etablera kamratrelationer med jämnåriga (på ett åldersadekvat sätt och trots rikliga möjligheter därtill) som innefattar ett ömsesidigt utbyte av intressen, aktiviteter och känslor

*Faktarutan fortsätter på nästa sida*

## Faktaruta 1.1 fortsättning

- c. bristande modulering av socioemotionell ömsesidighet som visar sig genom nedsatt eller avvikande gensvar på andra människors känslor, eller bristande anpassning av beteendet till det sociala sammanhanget, eller en dålig integration av sociala, emotionella och kommunikativa beteenden
  - d. brist på spontan vilja att dela glädje, intressen eller aktiviteter med andra människor (t ex visar inte för andra, lämnar inte fram eller pekar på sådant som är av intresse).
2. Kvalitativ avvikelse i kommunikativ förmåga tar sig åtminstone ett av följande uttryck:
    - a. försenad talutveckling eller total avsaknad av talat språk utan försök att kompensera för detta genom att använda andra sätt att kommunicera, t ex gester och pantomim (kommunikativt "joller" har ofta saknats)
    - b. relativ oförmåga att inleda och upprätthålla samtal (i förhållande till den aktuella språkliga utvecklingsnivån), med ett ömsesidigt kommunikativt utbyte med den andra personen
    - c. stereotypt och repetitivt språkbruk eller idiosynkratisk användning av ord eller meningar
    - d. brist på varierade låtsaslekar eller (i lägre ålder) socialt härmande lek.
  3. Begränsade, repetitiva och stereotypa beteendemönster, intressen och aktiviteter tar sig åtminstone ett av följande uttryck:
    - a. omfattande fixering vid ett eller flera stereotypa och begränsade intressen som är överdrivna eller onormala i intensitet och fokusering; eller ett eller flera stereotypa och begränsade intressen som är överdrivna i intensitet och snäva i sin natur men inte till innehåll eller fokusering
    - b. till synes tvångsmässig fixering vid specifika, oändamålsenliga rutiner eller ritualer
    - c. stereotypa och repetitiva motoriska manér som inbegriper endera att vifta eller vrida med händerna eller fingrarna, eller komplicerade rörelser med hela kroppen
    - d. fascination inför delar av föremål eller icke-funktionella delar av leksaker (såsom deras lukt, hur materialet de är gjorda av känns, eller ljudet eller vibrationer som de avger).

*Faktarutan fortsätter på nästa sida*

## Faktaruta 1.1 fortsättning

- C. Den kliniska bilden går inte att hänföra till andra former av genomgripande utvecklingsstörningar; impressiv språkstörning (F80.2) med sekundära socioemotionella problem; reaktiv störning i känslomässig bindning under barndomen (F94.1) eller distanslöshet hos barn (F94.2); psykisk utvecklingsstörning (F70–F72) med någon därmed förknippad känslomässig eller beteendemässig störning; schizofreni (F20.-) med ovanligt tidig debut; och Retts syndrom (F84.2).

### Aspergers syndrom

Kod: F84.5

Autistisk psykopati

Schizoid störning i barndomen

### **Diagnostiska kriterier för Aspergers syndrom**

- A. Ingen kliniskt signifikant allmän försening av språklig eller kognitiv utveckling. För diagnos krävs att enstaka ord ska ha uttalats vid två års ålder eller tidigare och att kommunikativa fraser har använts vid tre års ålder eller tidigare. Förmåga att klara sig själv, adaptivt beteende och nyfikenhet på omgivningen under de första tre åren ska ligga på en nivå som överensstämmer med normal intellektuell utveckling. Den motoriska utvecklingen kan emellertid vara något försenad och motorisk klumpighet är vanlig (dock inget nödvändigt diagnostiskt kriterium). Isolerade specialförmågor, ofta relaterade till onormala intressen och sysselsättningar, är vanliga, men krävs inte för diagnos.
- B. Kvalitativa avvikelser i ömsesidig social interaktion (samma kriterier som för autism).
1. Kvalitativa avvikelser i ömsesidigt socialt samspel tar sig åtminstone två av följande uttryck:
    - a. oförmåga att adekvat använda blickkontakt, ansiktsuttryck, kroppshållning och gester för att reglera det sociala samspelet
    - b. oförmåga att etablera kamratrelationer med jämnåriga (på ett åldersadekvat sätt och trots rikliga möjligheter därtill) som innefattar ett ömsesidigt utbyte av intressen, aktiviteter och känslor

*Faktarutan fortsätter på nästa sida*

## Faktaruta 1.1 fortsättning

- c. bristande modulering av socioemotionell ömsesidighet som visar sig genom nedsatt eller avvikande gensvar på andra människors känslor, eller bristande anpassning av beteendet till det sociala sammanhanget, eller en dålig integration av sociala, emotionella och kommunikativa beteenden
  - d. brist på spontan vilja att dela glädje, intressen eller aktiviteter med andra människor (t ex visar inte för andra, lämnar inte fram eller pekar på sådant som är av intresse).
- C. Individens uppvisar ett ovanligt intensivt, avgränsat intresse för något område eller begränsade, repetitiva och stereotypa mönster i beteende, intressen och aktiviteter (samma kriterium som för autism). Det är emellertid antagligen mindre vanligt att dessa varken innefattar motoriska manér eller att man sysselsätter sig med delar av objekt eller leksakers icke-funktionella delar).
- Åtminstone ett av följande uttryck:
- a. omfattande fixering vid ett eller flera stereotypa och begränsade intressen som är abnorma (överdrivna) i intensitet och fokusering; eller ett eller flera stereotypa och begränsade intressen som är överdrivna i intensitet och snäv natur men inte till innehåll eller fokusering
  - b. uppenbarligen tvångsmässig fixering vid specifika, oändamålsenliga rutiner eller ritualer
  - c. stereotypa och repetitiva motoriska manér som inbegriper endera att vifta eller vrida med händerna eller fingrarna, eller komplicerade rörelser med hela kroppen
  - d. fascination inför delar av föremål eller icke-funktionella delar av leksaker (såsom deras lukt, hur materialet de är gjorda av känns, eller ljudet eller vibrationer som de avger).
- D. Störningen går inte att hänföra till andra varianter av genomgripande utvecklingsstörningar: vanlig schizofreni (F20.6), schizotyp störning (F21), tvångssyndrom (F42.-), anankastisk personlighetsstörning (F60.5), reaktiv störning i känslomässig bindning under barndomen (F94.1) eller distanslöshet hos barn (F94.2).

*Faktarutan fortsätter på nästa sida*

## Faktaruta 1.1 fortsättning

### Atypisk autism

Kod: F84.1

En genomgripande utvecklingsrubbnings som skiljer sig från autism i barndomen genom senare debut eller genom att inte uppfylla kriterierna på alla de tre områden som karakteriserar autism i barndomen. Denna subkategori används då utvecklingen först efter tre års ålder blir avvikande och försenad och när det saknas påvisbara störningar inom ett eller två av de psykopatologiska områden som kännetecknar autism i barndomen (störning i samspel, kommunikationssvårigheter samt begränsat, stereotypiskt och repetitivt beteende), trots samtidig närvaro av karakteristiska störningar inom resterande områden. Atypisk autism ses oftast vid grav psykisk utvecklingsstörning eller vid svår impressiv språkstörning.

#### *Innefattar:*

Atypisk barndomspsykos

Psykisk utvecklingsstörning med autistiska drag

Tilläggs kod kan användas för att ange psykisk utvecklingsstörning

### **Diagnostiska kriterier för atypisk autism**

- A. Avvikande eller bristande utveckling är tydlig vid tre års ålder eller senare (samma kriterier som vid autism utom åldern då symtomen framträder).
- B. Det föreligger kvalitativa avvikelser i ömsesidig social interaktion eller i kommunikativ förmåga eller begränsade, repetitiva och stereotypa mönster i beteende, intressen och aktiviteter. (Samma kriterier som vid autism men det är inte nödvändigt att kriterierna för antalet områden med avvikande utveckling uppfylls.)
- C. Tillståndet uppfyller inte de diagnostiska kriterierna för autism i barndomen (F84.0).

Autism kan vara atypisk avseende antingen debutålder (F84.10) eller symptomatologi (F84.11). De två typerna skiljs med en femte siffra av forskningsskäl. Syndrom som är atypiska i båda avseendena ska kodas F84.12.

*Faktarutan fortsätter på nästa sida*

## Faktaruta 1.1 fortsättning

### Autism med atypisk debutålder

Kod: F84.10

- A. Störningen uppfyller inte kriterium A för autism i barndomen (F84.0), vilket innebär att avvikande eller bristande utveckling är tydlig först vid eller efter tre års ålder.
- B. Störningen uppfyller kriterierna B och C för autism i barndomen (F84.0).

### Autism med atypisk symptomatologi

Kod: F84.11

- A. Störningen uppfyller kriterium A för autism i barndomen (F84.0), vilket innebär att avvikande eller bristande utveckling är tydlig före tre års ålder.
- B. Det föreligger kvalitativa avvikelser i ömsesidig social interaktion eller i kommunikativ förmåga eller begränsade, repetitiva och stereotypa mönster i beteende, intressen och aktiviteter. (Samma kriterier som vid autism i barndomen, men det är inte nödvändigt att kriterierna för antalet områden med avvikande utveckling uppfylls.)
- C. Störningen uppfyller kriterium C för autism i barndomen (F84.0).
- D. Störningen uppfyller inte till fullo kriterium B för autism i barndomen (F84.0).

*Faktarutan fortsätter på nästa sida*



## Faktaruta 1.1 fortsättning

### Autism, atypisk både i debutålder och symtomatologi

Kod: F84.12

- A. Störningen uppfyller inte kriterium A för autism i barndomen (F84.0), vilket innebär att avvikande eller bristande utveckling är tydlig först vid eller efter tre års ålder.
- B. Det föreligger kvalitativa avvikelser i ömsesidig social interaktion eller i kommunikativ förmåga eller begränsade, repetitiva och stereotypa mönster i beteende, intressen och aktiviteter. (Samma kriterier som vid autism i barndomen (F84.0), men det är inte nödvändigt att kriterierna för antalet områden med avvikande utveckling uppfylls.)
- C. Störningen uppfyller kriterium C för autism i barndomen (F84.0).
- D. Störningen uppfyller inte till fullo kriterium B för autism i barndomen (F84.0).

Vad gäller förekomsten visar epidemiologiska studier under 2000-talet att prevalensen i Europa och Nordamerika är cirka 6–10 per 1 000 barn [4]. Förekomsten av AST hos vuxna är 9,8 per 1 000 vuxna enligt en engelsk studie [5]. De första epidemiologiska studierna av autistiskt syndrom rapporterade en förekomst av 4,5 per 10 000 [6]. Detta avsåg en grupp med mycket svåra funktionsnedsättningar. Mera aktuella studier rapporterar en förekomst runt 1 procent. Denna ökning har troligtvis att göra med ett ökande intresse för autistiskt syndrom och förändringarna i de diagnostiska kriterierna samt tolkningen av dessa.

Studier visar att fler män än kvinnor får diagnosen (man:kvinnor kvot omkring 4:1) [7]. Det är oklart vad denna könsskillnad beror på.

## Faktaruta 1.2 Diagnoskriterier för AST enligt DSM-IV-TR.

### Autistiskt syndrom

- A. Sammanlagt minst sex kriterier från (1), (2) och (3), varav minst två från (1), och ett från vardera (2) och (3):
  - 1. Kvalitativt nedsatt förmåga att interagera socialt, vilket tar sig minst två av följande uttryck:
    - a. påtagligt bristande förmåga att använda varierande icke-verbala uttryck såsom ögonkontakt, ansiktsuttryck, kroppshållning och gester som ett led i den sociala interaktionen
    - b. oförmåga att etablera kamratrelationer som är adekvata för utvecklingsnivån
    - c. brist på spontan vilja att dela glädje, intressen eller aktiviteter med andra (t ex visar inte, tar inte med sig eller uppmärksammar inte andra på sådant som är av intresse)
    - d. brist på social eller emotionell ömsesidighet
  - 2. Kvalitativt nedsatt förmåga att kommunicera, vilket tar sig minst ett av följande uttryck:
    - a. försenad talutveckling eller talar inte alls (gör inga försök att kompensera för detta via andra kommunikationssätt, t ex gester eller pantomim)
    - b. hos personer med adekvat utvecklad talförmåga en påtagligt nedsatt förmåga att inleda eller upprätthålla samtal med andra
    - c. stereotypt tal med många upprepningar eller idiosynkratiskt språk
    - d. brist på varierad, spontan låtsaslek eller socialt imitativt lek-beteende som är adekvat för utvecklingsnivån
  - 3. Begränsade, repetitiva och stereotypa mönster i beteende, intressen och aktiviteter vilket tar sig minst ett av följande uttryck:
    - a. omfattande fixering vid ett eller flera stereotypa och begränsade intressen som är abnorma i intensitet eller fokusering
    - b. oflexibel fixering vid specifika, oändamålsenliga rutiner eller ritualer
    - c. stereotypa och upprepade motoriska manér (t ex vifta eller vrida händerna eller fingrarna, komplicerade rörelser med hela kroppen)
    - d. enträgen fascination inför delar av saker

*Faktarutan fortsätter på nästa sida*

## Faktaruta 1.2 fortsättning

B. Försening eller abnorm funktion inom minst ett av följande områden med debut före tre års ålder: (1) social interaktion, (2) språk som syftar till social kommunikation, (3) symboliska lekar eller fantasilekar.

C. Störningen förklaras inte bättre med Retts syndrom eller desintegrativ störning hos barn.

### Aspergers syndrom

A. Kvalitativt nedsatt förmåga att interagera socialt, vilket tar sig minst två av följande uttryck:

1. påtagligt bristande förmåga att använda varierade icke-verbala uttryck såsom ögonkontakt, ansiktsuttryck, kroppshållning och gester som ett led i den sociala interaktionen
2. oförmåga att etablera kamratrelationer som är adekvata för utvecklingsnivån
3. brist på spontan vilja att dela glädje, intressen eller aktiviteter med andra (t ex visar inte, tar inte med sig eller uppmärksammar inte andra på sådant som är av intresse)
4. brist på social eller emotionell ömsesidighet.

B. Begränsade, repetitiva och stereotypa mönster i beteende, intressen och aktiviteter vilket tar sig minst ett av följande uttryck:

1. omfattande fixering vid ett eller flera stereotypa och begränsade intressen som är abnorma i intensitet eller fokusering
2. oflexibel fixering vid specifika, oändamålsenliga rutiner eller ritualer
3. stereotypa och upprepade motoriska manér (t ex vifta eller vrida händerna eller fingrarna, komplicerade rörelser med hela kroppen)
4. enträgen fascination inför delar av saker

C. Störningen orsakar kliniskt signifikant nedsättning av funktionsförmågan i arbete, socialt eller i andra viktiga avseenden.

*Faktarutan fortsätter på nästa sida*

## Faktaruta 1.2 fortsättning

D. Ingen kliniskt signifikant försening av den allmänna språkutvecklingen (t ex enstaka ord vid två års ålder, kommunikativa fraser vid tre års ålder).

E. Ingen kliniskt signifikant försening av den kognitiva utvecklingen eller i utvecklingen av åldersadekvata vardagliga färdigheter, adaptivt beteende (utöver social interaktion) och nyfikenhet på omgivningen i barndomen.

F. Kriterierna för någon annan specifik genomgripande störning i utvecklingen eller för schizofreni är inte uppfyllda.

## Många olika typer av insatser vid AST

Det har under årens lopp funnits olika teorier om uppkomstmekanismerna, och dessa har fått konsekvenser för de behandlingsmetoder som har utvecklats. En komplicerande faktor är att målgruppen är mycket heterogen. Det finns personer som är högfungerande medan andra har stora kognitiva och beteendemässiga svårigheter. Ett synsätt är att man ska använda alla möjligheter till träning för att personer med AST ska kunna fungera optimalt. Ett annat synsätt är att man ska acceptera människor med AST som de är med sitt egna sätt att tänka och förstå omvärlden. Habiliteringen skulle då innebära att kompensera för de brister och problem som finns på olika sätt och att försöka anpassa omgivningen så mycket som möjligt. Behandlingsinsatserna kan beskrivas i termer av färdighetsträning som har en gemensam grund i inlärningsteori och vår kunskap om barns utveckling när det gäller kommunikation, samspel och lek, pedagogiska insatser samt psykologiska och psykoterapeutiska insatser. Andra interventioner riktar sig mot kost och biokemi och ytterligare andra interventioner är inriktade på neurofysiologi/hjärnans funktion. För många, och särskilt de som har betydande funktionshinder, krävs också en anpassning av miljön till barnens och ungdomarnas funktionsnedsättningar och behov. Ofta kombineras olika typer av insatser. Eftersom dessa funktionsnedsätt-

ningar ofta identifieras mycket tidigt i barndomen har det utvecklats flera olika metoder för tidig intervention. I de flesta fall bygger dessa program på att föräldrarna engageras i att träna sina barn i kommunikation och social interaktion. Barnen placeras ofta i specialklasser där man utvecklat särskild metodik för att få till stånd en optimal utveckling utifrån barnens förutsättningar.

Idag finns det inte finns något specifikt läkemedel utvecklat för AST. För behandling av utagerande beteenden av olika slag och för att dämpa stereotypa beteenden används i första hand andra generationens neuroleptika. I denna läkemedelsgrupp finns för närvarande bara risperidon registrerat hos Läkemedelsverket för behandling av allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom.

## Organisation inom psykiatri med fokus på AST

Vi har valt att se på frågan om organisation i betydelsen ”hur vården och samhällets insatser är organiserade” för personer med AST. Det handlar då om både yttre förhållanden och det sammanhang i vilket samhället tillhandahåller utredning, behandling, rehabilitering och stöd. I detta kan inkluderas allt från vem som är huvudman, hur vården finansieras, ledning och styrning, vilken vårdgren eller specialitet som har uppdraget, vilken typ av lagstiftning reglerar verksamheterna, vilka kompetenser och yrkeskategorier som finns, var insatserna sker och i vilken form (i öppen- eller slutenvård, på institution, i frivilliga former eller med tvång, grad av specialisering och om insatserna sker i ett större eller mindre sammanhang, om de sker direkt med patienten, individuellt eller i grupp, via internet och med eller utan tekniska hjälpmedel).

## Patientens delaktighet vid AST

Historiskt sett har det funnits brister i involverandet av patienter i vården. Vårdgivare har tvekat inför patienters grundläggande förmåga att bidra med genomtänkta och relevanta synpunkter. Vikten av ökad patientmedverkan i vården har uppmärksammats internationellt på senare år. Under rubriken ”Welcome to the century of the patient” skriver BMJ i en översiktsartikel den 9 april 2011 att det behövs nya

kunskaper och nya attityder hos både patienter och vårdgivare för att patientmedverkan ska optimeras [8]. Vid ett seminarium i Salzburg – The Salzburg statement on Shared Decision Making – [9] förtydligades dessa idéer och uttrycket ”*Nothing about me, without me*” speglar den betydelse man vill ge åt att patientens medverkan i vård och behandling. Patientens eget deltagande kan sägas öka den demokratiska kraften i ett samhälle men det är också känt att kvaliteten på vården blir bättre med större patientmedverkan. Det möjliggör en bättre anpassning av den enskildes förutsättningar och medför en individualisering av terapiinsatser [10–12]. Termerna person- och patientcentrerad vård används omväxlande i litteraturen [13,14]. Personcentrerad vård definieras som en inriktning där ”vårdgivaren försöker att kliva in i patientens värld och se sjukdomen genom patientens ögon” [12,13]. Begreppet omfattar också en inriktning mot att ge ökad information och att involvera patienten i beslutsfattande vad gäller behandling [14].

Möjligheten till patientcentrering och patientdeltagande varierar beroende på sjukdomens karaktär och omfattning samt av läkarens, och vårdpersonalens välvilja. Är patientens självbestämmande påverkat av sjukdomen eller av dess behandling kan förutsättningen och möjligheten att delta i planering och behandling vara nedsatt. Likaså får barn och ungdomar som inte har egen självbestämmanderätt en ställning som gör att deras vårdnadshavare får fatta beslut och ta ansvar.

Hur en patient värderar sin egen medverkan och sitt inflytande är mycket beroende på de förväntningar och erfarenheter han eller hon har. Det finns ett brett spektrum av föreställningar och önskemål om vad patientdeltagande innebär, allt ifrån att få enkel information till att ha kontinuerligt och aktivt inflytande i diagnostik och behandling. Både förväntan på patientens egen hälsoutveckling och vad vården kan och/eller ska kunna göra påverkar graden av medverkan och delaktighet. Det är viktigt för all vårdpersonal att i varje enskilt möte se vilka förutsättningar för medverkan som finns och inte utgå ifrån att sjukdomen med automatik hindrar patientmedverkan.

Olika intresseorganisationer och patientföreningar uttrycker idag patienters samlade uppfattningar och önskemål. Det är genom dessa, ofta

ideellt sammansatta grupper, som vi hör patienternas röster. De som är medlemmar i föreningarna är, förutom patienterna själva, ofta föräldrar och närstående. Kunskapsvinster kan göras om deras erfarenheter tas tillvara.

Hur man som patient blir lyssnad på, och hur åsikter och önskningar tas hänsyn till, kan ske på olika sätt. En modell för hur vårdpersonal kan förhålla sig till patientens uppfattningar och åsikter har skissats av Hermerén [15].

- A. Vårdpersonalen lyssnar inte på patientens åsikter, bedömningar och värderingar – vägrar lyssna på patienten.
- B. Vårdpersonalen lyssnar men vägrar diskutera patientens åsikter; något samråd och informationsutbyte förekommer inte.
- C. Vårdpersonalen diskuterar med patienten men bryr sig inte om vad patienten säger; patientens åsikter, bedömningar och värderingar påverkar inte vårdpersonalens handlande.
- D. Vårdpersonalen bryr sig om vad patienten säger, men handlar bara delvis efter patientens åsikter, bedömningar och värderingar.
- E. Vårdpersonalen handlar helt i enlighet med patientens åsikter, önskningar och värderingar.

Personalen måste ta med i beräkningen vem som berörs av de åsikter, bedömningar och värderingar som förs fram av patienten. Om dessa uppfattningar påverkar andra personers välbefinnande förutom patientens så blir det en annan bedömning än om frågorna gäller enbart patienten [15].

Det kan finnas anledning att påpeka att personer med AST i olika situationer och tidpunkter kan betraktas som ”personer” eller ”patienter”. Benämningen kommer därför att varieras och förhoppningen är att därigenom undvika stigmatisering eller diskriminering.

När vi i denna rapport skriver om patientens delaktighet/medverkan, patientens röst, anhörig, närstående, patient och brukare har vi valt att definiera dessa enligt Faktaruta 1.3.

### Faktaruta 1.3 Centrala definitioner.

**Patient** är en person som erhåller eller är registrerad för att erhålla hälso- och sjukvård. Personen har eller utreds för en sjukdomsdiagnos, funktionsnedsättning eller beteendeproblem.

**Patientens delaktighet/medverkan** innebär medverkan/delaktighet i beslutsprocesser som rör patientens hälsa. Termen är dock beroende av sitt sammanhang och innebär olika grader av aktivitet; från lyssnande och accepterande utan eget tillägg till att ha verksamt inflytande i skeendet. Omfattningen och karaktären av deltagandet framgår inte alltid av beskrivningarna i texterna.

**Patientens röst** beskriver framför allt ett perspektiv; att patientens egna åsikter och uppfattningar om vård och behandling får komma till uttryck. Uttrycket innebär inte enbart verbala synpunkter utan även inställningar och attityder ur patientens perspektiv.

**Anhörig** är en person inom familjen eller bland de närmaste släktingarna.

**Närstående** är en person som den enskilde anser sig ha en nära relation till. Behöver inte vara en anhörig.

**Brukare** är en samhällsmedborgare som använder offentliga tjänster; inte en benämning på en person utan på en roll i förhållande till en verksamhet – verksamheten brukas. Begreppet betonar en starkare rätt till inflytande jämfört med begrepp som patient.

**Stigmatisering** innebär att bli föremål för nedvärderande och nedsättande attityder. En stigmatiserad person föraktas eller fruktas för någon egenskap som han eller hon felaktigt utpekats ha. Ett exempel är att psykiskt sjuka personer utpekats som farliga.

**Diskriminering** innebär att orättvist och orättfärdigt bli förvägrad sina rättigheter t ex pga stigmatisering.

Avsnitten om patientens delaktighet syftar till att visa hur personer med AST kan uppleva sin medverkan och sitt deltagande i behandling och vård. Med tanke på det nära förhållande och det beroende som personerna har till såväl anhöriga som vård- och skolpersonal, omfattar avsnitten också dessa gruppers perspektiv på patientens och sin egen medverkan i vården. När ett barn har AST så är det inte ett isolerat problem för endast barnet, utan hela familjen, släkt och vänner, liksom lärare och stödpersoner påverkas.

AST har idag en stor aktualitet och under senare år har ökade kunskaper och nya behandlingsalternativ kommit fram. AST är av skiftande svårighetsgrad. För en diagnos krävs dock en märkbar funktionsnedsättning avseende social kommunikation. I lindrigare fall har personen svårt att inleda samtal och kan tyckas ha begränsat intresse av socialt samspel. Specialintressen, ritualer och/eller repetitiva beteenden styr då hur individen fungerar i alla miljöer. Personen är mycket svår att avleda och uppvisar uttalad frustration och oro om ritualer eller rutiner rubbas. Det är troligt att såväl verbal som icke-verbal kommunikation kan öka patienternas förståelse, men inte nödvändigtvis. Kompletterande kommunikation kan användas för att säkerställa att patientens röst verkligen uttrycker patientens åsikt och inte är något som bara sägs för att vara till lags. Effekter av neuropsykologiska funktionsnedsättningar som t ex förmågan att förstå vad andra tänker och känner, förmågan att se sammanhang och att planera föreligger i varierande grad. Ibland finns också intellektuella svårigheter att ta hänsyn till. I vissa fall föreligger allvarliga svårigheter med verbal och icke-verbal kommunikation som orsakar allvarlig funktionsnedsättning; mycket begränsat samspel och mycket begränsat gensvar.

## Frågor

Övergripande frågor har varit:

- Vad är den diagnostiska tillförlitligheten för instrument som används vid utredning av AST hos barn, ungdomar och vuxna?
- Ger psykopedagogiska, psykoterapeutiska eller neurofysiologiska behandlingsmetoder symtomlindring med avseende på kärnsymtom hos barn, ungdomar och vuxna med AST?
- Vilka biverkningar eller oönskade effekter ger psykopedagogiska, psykoterapeutiska eller neurofysiologiska behandlingsmetoder symtomlindring hos barn, ungdomar och vuxna med AST?
- Ger behandling med risperidon symtomlindring med avseende på allvarlig beteendestörning hos personer med autistiskt syndrom?
- Vilka biverkningar får personer med autistiskt syndrom vid behandling med risperidon?
- Finns det vetenskapligt stöd för att vård inom primärvården/första linjens vård ger likvärdiga resultat med vård inom den specialiserade psykiatri med eller utan subspecialisering för personer med AST?
- Finns det vetenskapligt stöd för att specialiserade rehabiliterings-/habiliteringsverksamheter ger bättre resultat än rehabilitering/habilitering inom befintliga organisationsstrukturer för personer AST med eller utan utvecklingsstörning?
- Finns det vetenskapligt stöd för att strukturerade insatser som utbildning och kompletterande stöd till en befintlig vårdorganisation förbättrar diagnostik och behandling?
- Finns det vetenskapligt stöd för att organisationsformer som bygger på kommunikation med modern teknik (datorer, mobiltelefon etc) ger bättre resultat än med organisationsformer som inte bygger på sådan kommunikation?

- Hur uppfattar patienter med AST den vård och behandling de får och deras möjlighet till delaktighet?
- Hur ser patienter, anhöriga och vårdpersonal på sina respektive relationer under behandlingen?
- Hur upplever patienter, anhöriga och vårdpersonal att omgivningen ser på patienterna?
- Hur ser anhöriga och vårdpersonal på sig själva?

## Målgrupper

Den här rapporten riktar sig till ansvariga inom skol- och elevhälsa, barnhälsovården, barn- och ungdomspsykiatri, primärvården, barn- och vuxenhabiliteringen, vuxenpsykiatri, socialtjänsten samt kriminalvården. Den riktar sig även till andra myndigheter med ansvar för barns, ungdomars och vuxnas psykiska och somatiska hälsa.

Sammanfattning och slutsatser kan utgöra underlag för beslutsfattare på olika nivåer och kommer även att rikta sig till politiker inom sjukvårdsområdet.

## Referenser

1. Kanner L. Autistic disturbances of affective contact. *The Nervous Child* 1943;217-50.
2. Asperger H. Die "Autistischen Psychopathen" im Kindesalter. *Archiv für Psychiatrie und Nervkrankheiten* 1944;117:76-136.
3. Mash EJ, Barkley RA. *Child Psychopathology, Second Edition* New York: The Guilford Press; 2003.
4. Baird G, Simonoff E, Pickles A, Chandler S, Loucas T, Meldrum D, Charman T. Prevalence of disorders of the autism spectrum in a population cohort of children in South Thames: the Special Needs and Autism Project (SNAP). *Lancet* 2006;368:210-5.
5. Brugha TS, McManus S, Bankart J, Scott F, Purdon S, Smith J, et al. Epidemiology of autism spectrum disorders in adults in the community in England. *Arch Gen Psychiatry* 2011;68:459-65.
6. Lotter V. Epidemiology of autistic conditions in young children. *Prevalence Social Psychiatry* 1966;1:124-37.
7. Fombonne E. Epidemiology of autistic disorder and other pervasive developmental disorders. *J Clin Psychiatry* 2005;66 Suppl 10:3-8.
8. Gulland A. Welcome to the century of the patient. *BMJ* 2011;342:d2057
9. Salzburg statement on shared decision making. *BMJ* 2011;342:d1745.
10. Flanagan EH, Davidson L, Strauss JS. Issues for DSM-V: incorporating patients' subjective experiences. *Am J Psychiatry* 2007;164:391-2.
11. Mead N, Bower P. Patient-centredness: a conceptual framework and review of the empirical literature. *Soc Sci Med* 2000;51:1087-110.
12. Swedberg K. Personcentrerad vård – klinikens comeback. *Läkartidningen* 2010;107:320-1.
13. Balint E. The possibilities of patient-centered medicine. *J R Coll Gen Pract* 1969;17:269-76.
14. McWhinney I. *A textbook of family medicine*: Oxford University Press, USA; 1997.
15. Hermerén G. *Kunskapens pris (The cost of knowledge)*. Stockholm: HSFR; 1986.

## 2. Metodbeskrivning

---

### Litteratursökning

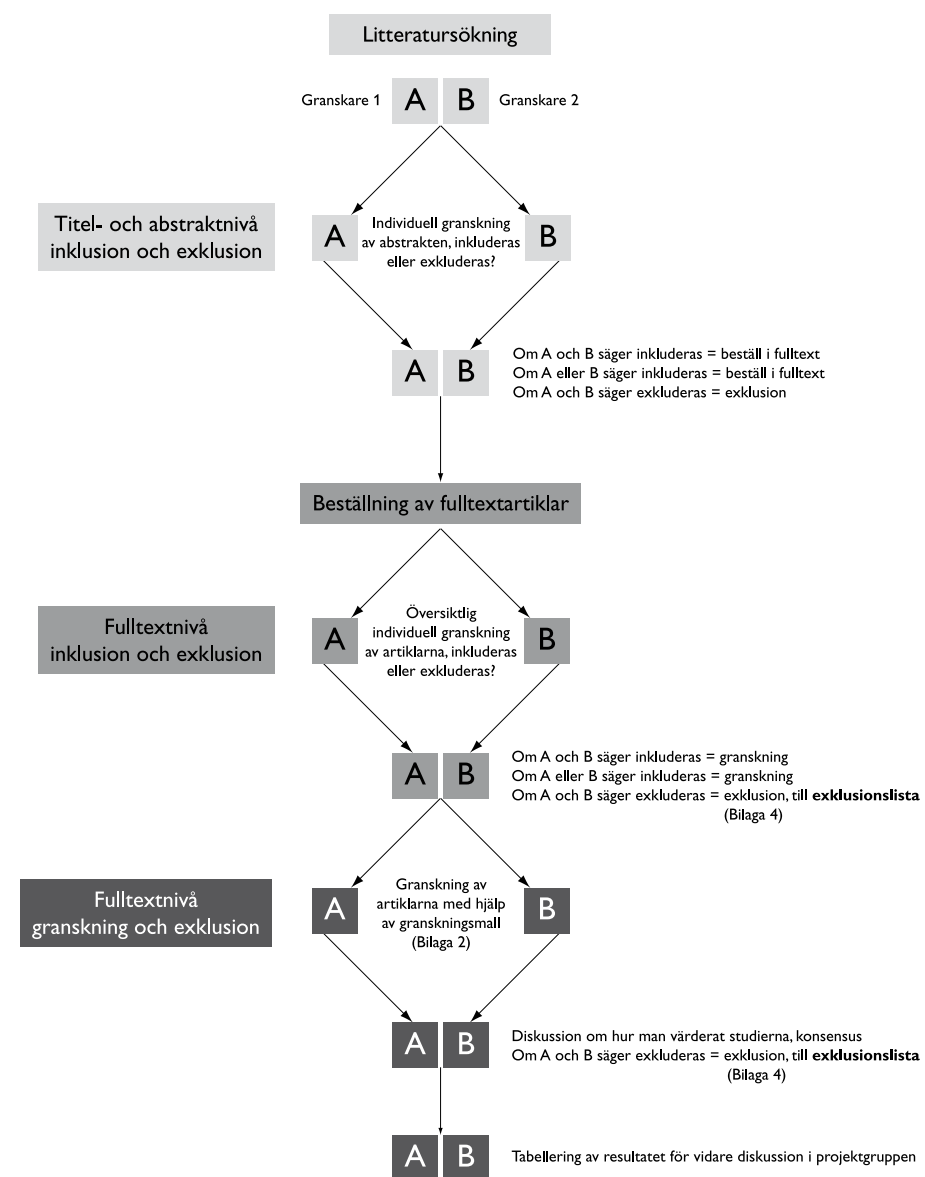
Litteratursökning utfördes i databaserna PubMed, Embase, PsycInfo, CINAHL, ERIC, Cochrane Reviews, HTA, Web of Science, HEED och NHSEED. Sökstrategierna konstruerades utifrån de övergripande frågeställningarna (Bilaga 1, [www.sbu.se/215](http://www.sbu.se/215)). Litteratursökningen har utförts tillsammans med informationsspecialister från SBU. Ytterligare studier har sökts via de vetenskapliga artiklarnas referenslistor samt i översiktsartiklar. Sökperioden var från år 1966 till mars år 2011. En uppdatering gjordes i april år 2012. För Kapitel 4 var sökperioden fram till mars 2011. För Kapitel 5 (Patientens delaktighet) var sökperioden från år 1995 till april år 2011.

### Granskningsprocessen

De vetenskapliga artiklarnas sammanfattningar lästes och granskades av två bedömare, oberoende av varandra. Målet var att identifiera studier som var relevanta för frågeställningarna. Resultaten från de oberoende granskarna jämfördes och artiklar som identifierades som "möjligen relevanta" av en eller båda granskarna beställdes i fulltext. Båda bedömarna granskade artiklarna i fulltext, oberoende av varandra, för att inkludera de som befanns relevanta. Anledningarna för exklusion noterades. Tidigare fastställda inklusions- och exklusionskriterier tillämpades för att en studie skulle inkluderas till tredje fasen av litteraturgranskningen. De studier som någon av granskarna bedömde uppfylla, eller möjligen uppfylla, inklusionskriterierna togs med till den slutliga granskningen (Figur 2.1).

Granskningen omfattade värdering av studiernas relevans för projektets frågeställningar och metodologiska kvalitet – studiedesign, intern validitet (rimligt skydd mot systematiska fel), analys av resultat, statistisk styrka och generaliserbarhet. För att tillförsäkra enhetlig, transparent

och reproducerbar bedömning med begränsade subjektiva inslag, användes granskningsmallar, specifika för olika studiedesign och frågeställningar. En granskningsmall användes för randomiserade kontrollerade studier (RCT), en annan för kohort- eller observationsstudier med kontrollgrupp. För systematiska översikter användes AMSTAR [1] och för diagnostiska studier användes QUADAS [2] med tillägg av tre frågor från STARD [3] och en fråga från AMSTAR. För samtliga granskningsmallar, Bilaga 2, [www.sbu.se/215](http://www.sbu.se/215). Efter bedömning gavs varje enskild studie ett mått på metodologisk kvalitet (hög, medelhög, låg). Vid skiljaktig uppfattning om kvaliteten hos en studie, bedömdes artikeln av hela projektgruppen. I de fall granskningen gällde en studie där någon av medlemmarna i projektgruppen är författare eller har annan form av bindning till studiens innehåll granskades och värderades studien av en annan medlem av projektgruppen. Slutligen sammanställdes viktiga fakta från de inkluderade studierna i tabellform.



**Figur 2.1** Flödesschema för litteratursökning och granskningsprocess.



## Termer och mått för beskrivning av tillförlitlighet hos diagnostiska test

För att kunna bestämma tillförlitligheten hos kliniska fynd och testresultat, dvs hur väl de speglar sjuka eller friska tillstånd, behöver det kliniska fyndet/testresultatet (så kallat indextest) prövas (valideras) mot en referensstandard (referenstest), ibland benämnt ”gold standard”.

### Validitet hos diagnostiska test

Validiteten (tillförlitligheten) beror på hur väl referenstestet (validitetskriteriet) överensstämmer med det ”sanna” tillståndet. När det finns tydliga kriterier för det ”sanna” tillståndet talar man om kriterievaliditet (criterion validity).

När ett entydigt referenstest saknas eller inte går att observera kan problemet lösas indirekt genom att konstruera ett referenstest, så kallad construct validity. Det kan bygga på en kombination av resultat av olika tester och andra resultat eller kliniska karakteristika och prognostisk information. Det ger tillsammans en pragmatisk validering av sjukdomen. Valideringen bygger då på en stor mängd empiriska data och bestäms ofta genom internationella konsensusprocedurer med expertpaneler eller med så kallade Delfi-procedurer [4].

### Mått på tillförlitlighet

Relationen mellan testresultat och sjukdomsstatus kan uttryckas med olika mått. De klassiska måtten för att beräkna tillförlitligheten hos ett diagnostiskt test är följande:

*Sensitivitet (Se)* anger sannolikheten för att sjuka får ett positivt testresultat.

*Specificitet (Sp)* anger sannolikheten för att friska får ett negativt testresultat.

*Positivt prediktivt värde (PPV)* anger sannolikheten för att de med positivt testresultat är sjuka.

*Negativt prediktivt värde (NPV)* anger sannolikheten för de med negativt testresultat är friska.

Teoretiskt är sensitivitet och specificitet oberoende av sjukdomsprevalensen i populationen. I praktiken påverkas de dock av patientkarakteristika, dvs det patientspektrum som testet appliceras på. Det innebär att sensitivitet och specificitet för ett test på patienter som remitterats till en specialistklinik inte kan förväntas vara desamma som för patienter i allmänpraxis. Den förra utgör en selekterad population, ofta med symtom på (ännu odiagnostiserad) sjukdom, medan den senare primärt är mer oselekerad och med större andel patienter utan sjukdom. Sensitivitet och specificitet påverkas därmed också av sjukdomsprevalensen som är lägre i en oselekerad population [5]. I regel är sensitiviteten lägre och specificiteten högre i en oselekerad population [5,6].

PPV och NPV beskriver en testmetods egenskaper från klinikerns perspektiv. De prediktiva värdena är dock beroende av sjukdomsprevalensen i populationen. Vid låg sjukdomsprevalens sjunker PPV för en given sensitivitet och specificitet, medan NPV inte påverkas i samma utsträckning. Prediktionsvärden från en studie kan därför inte direkt överföras till en annan population om inte sjukdomsprevalensen är jämförbar.

Sannolikhetskvoten (likelihood ratio, LR) sammanfattar sensitivitet och specificitet i ett mått. En positiv sannolikhetskvot (LR+) beskriver andelen sjuka med positivt test dividerat med andelen friska med positivt test sensitivitet/(1-specificitet). En negativ sannolikhetskvot (LR-) beskriver andelen sjuka med negativ test dividerat med andelen friska med negativt test (1-sensitivitet)/specificitet. Annorlunda uttryckt, LR+ är oddsen för sjukdom vid positivt test och LR- är oddsen för sjukdom vid negativt test.

*Odds kvoten (odds ratio, OR)* uttrycker oddsen för sjukdom vid positivt testresultat i förhållande till oddsen för sjukdom vid negativt testresultat. Om  $OR = 1$  är testet värdelöst, och ju högre OR desto bättre är testet för att särskilja sjukdom/inte sjukdom.

*Metaanalys* av diagnostiska studier är lämplig om studierna är tillräckligt homogena. Det så kallade  $I^2$ -värdet, som bygger på  $\chi^2$ -analys, är ett uttryck för graden av heterogenitet. Om  $I^2$ -värdet är högre än 40 procent anses heterogeniteten vara för stor för att berättiga en metaanalys.

## Systematiska översikter

Vissa delar i denna rapport är baserade på tidigare publicerade systematiska översikter. Under de senaste 15 åren har antalet publicerade systematiska översikter och metaanalyser ökat kraftigt [7]. Att basera nya översikter på befintliga översikter är ett område under utveckling. Vi har använt oss av tidigare publicerade översikter på flera sätt. I Kapitel 3.3 Läkemedelsbehandling med risperidon vid AST har vi valt att använda resultat från metaanalyser i en publicerad systematisk översikt eftersom de baseras på samma primärstudier som vi har inkluderat [8].

## Metaanalyser

Metaanalyserna i Kapitel 3.1 Instrument för utredning av AST utfördes med hjälp av Meta-DiSc 1.4 (Meta-analysis of Diagnostic and Screening Tests, version 1.4) [9].

## Bedömning av det vetenskapliga underlaget

Studiekvalitet avser den vetenskapliga kvaliteten hos en enskild studie och dess förmåga att besvara en viss frågeställning på ett tillförlitligt sätt.

Evidensstyrkan är en bedömning av hur starkt det sammanlagda vetenskapliga underlaget är för att besvara en viss frågeställning på ett tillförlitligt sätt. SBU tillämpar det internationellt utarbetade evidensgraderingssystemet GRADE [10]. För varje effektmått utgår man i den sammanlagda bedömningen från studiernas design. Därefter kan evidensstyrkan påverkas av förekomsten av försvagande eller förstärkande faktorer som t ex studiekvalitet, relevans, samstämmighet, överförbarhet, effektstorlek, precision i data eller risk för publikationsbias.

## Evidensstyrkan graderas i fyra nivåer:

**Starkt vetenskapligt underlag** (⊕⊕⊕⊕). Bygger på studier med hög eller medelhög kvalitet utan försvagande faktorer vid en samlad bedömning.

**Måttligt starkt vetenskapligt underlag** (⊕⊕⊕○). Bygger på studier med hög eller medelhög kvalitet med förekomst av enstaka försvagande faktorer vid en samlad bedömning.

**Begränsat vetenskapligt underlag** (⊕⊕○○). Bygger på studier med hög eller medelhög kvalitet med försvagande faktorer vid en samlad bedömning.

**Otillräckligt vetenskapligt underlag** (⊕○○○). När vetenskapligt underlag saknas (en studie av medelhög kvalitet eller inga studier), tillgängliga studier har låg kvalitet eller där studier av likartad kvalitet visar motsägande resultat anges det vetenskapliga underlaget som otillräckligt.

Ju starkare evidens desto mindre sannolikt är det att redovisade resultat kommer att påverkas av nya forskningsrön inom överblickbar framtid.

## Faktaruta 2.1 Kategorisering av evidensstyrka enligt GRADE.

Evidensstyrka	Studiedesign	Sänk gradering om	Höj gradering om
Stark ⊕⊕⊕⊕	RCT (randomiserad kontrollerad studie) Diagnostikstudie	Brister i studiekvalitet: (maximalt -2) Bristande överensstämmelse mellan studierna: (maximalt -2)	Stora effekter och inga sannolika confounders: (maximalt +2) Tydligt dos-respons-samband: (maximalt +1)
Måttligt stark ⊕⊕⊕○		Brister i överförbarhet/relevans: (maximalt -2)	
Begränsad ⊕⊕○○	Observationsstudie	Bristande precision: (maximalt -2)	Confounders borde leda till bättre behandlingsresultat i kontrollgruppen: (maximalt +1)
Otillräcklig ⊕○○○		Hög sannolikhet för publiceringsbias: (maximalt -2)	

Slutligen sammanvägs alla faktorer i en rimlighetsbedömning.

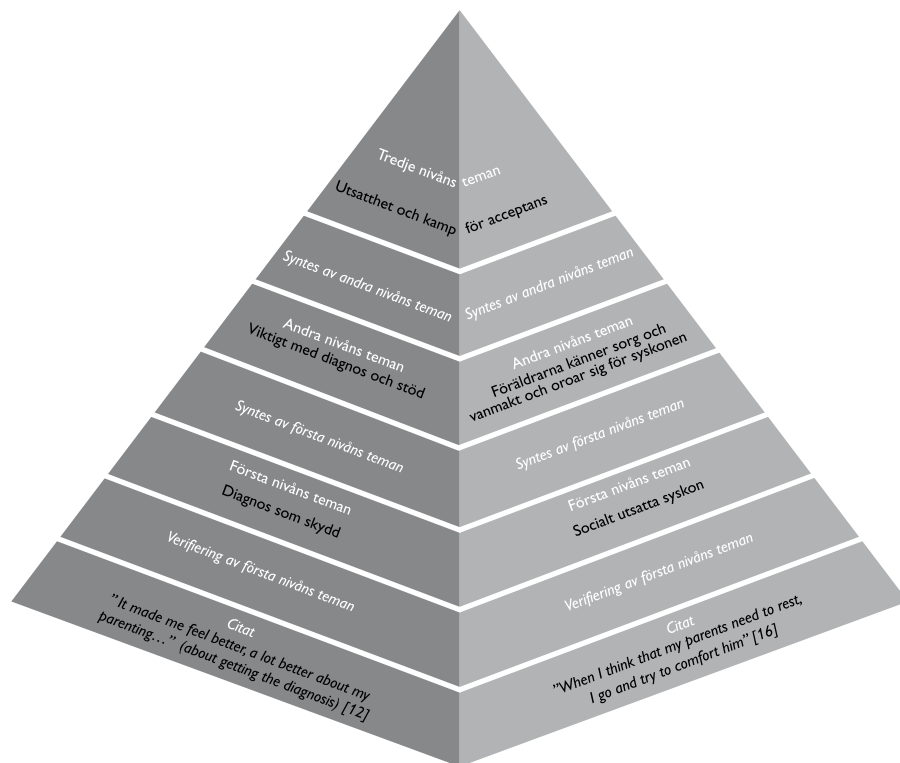
## Kvalitativ studiedesign

I avsnittet om patientens delaktighet är nästan alla studier utförda med kvalitativ metodik. Evidensstyrkan bedöms då på annat sätt. Efter granskningsprocessen grupperades studierna enligt metod- eller forskningsdesign. Resultat i form av teman, koder, kategorier och subkategorier från de inkluderade studierna verifierades genom sina citat och beaktades sedan under utvecklandet av *första nivåns teman*. Besläktade *första nivåns teman* syntetiserades sedan till *andra nivåns teman*.

Besläktade *andra nivåns teman* syntetiserades slutligen till övergripande *tredje nivåns teman*. En samlad bedömning av det vetenskapliga underlaget gjordes och slutsatser formulerades.

Evidensstyrkan i slutsatserna bedömdes enligt följande:

- **Det finns vetenskapligt stöd.** Slutsatser kan dras eftersom identifierade studier har tillräcklig kvalitet och relevans.
- **Det vetenskapliga stödet är otillräckligt.** Inga slutsatser kan dras eftersom identifierade studier saknar tillräcklig kvalitet och relevans.



**Figur 2.2** Exempel på hur de olika temanivåerna utvecklades.

Verifiering av Första nivåns teman *Diagnos som skydd*. Första nivåns teman syntetiserades sedan tillsammans med de andra Första nivåns teman till Andra nivåns teman *Viktigt med diagnos och stöd*. Slutligen syntetiserades *Viktigt med diagnos och stöd* tillsammans med de övriga Andra nivåns teman till det övergripande Tredje nivåns teman *Utsatthet och kamp för acceptans*.

## Kvalitetsbedömning vid kvalitativa studier

För kvalitativa studier bedömdes kvaliteten med hjälp av SBU:s granskningsmall för kvalitativ metod.

Följande kriterier avgjorde vilken vetenskaplig kvalitet en studie bedömdes ha.

### Faktaruta 2.2 Kriterier för bedömning av vetenskaplig kvalitet [11].

Hög kvalitet	Medelhög kvalitet	Låg kvalitet
<ul style="list-style-type: none"> <li>• Klart beskrivet sammanhang (kontext)</li> <li>• Väldefinierad frågeställning</li> <li>• Välbeskriven urvalsprocess, datainsamlingsmetod, transskriberingsprocess och analysmetod</li> <li>• Dokumenterad metodisk medvetenhet</li> <li>• Systematisk, stringent presentation av data</li> <li>• Tolkningars förankring i data påvisad</li> <li>• Diskussion om tolkningarnas trovärdighet och tillförlitlighet</li> <li>• Kontextualisering av resultat i tidigare forskning</li> <li>• Implikationer för relevant praktik välformulerade</li> </ul>	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Sammanhanget ej beskrivet tydligt</li> <li>• Frågeställning ej beskriven tydligt</li> <li>• Några otydligheter i beskrivningen av urvalsprocess, datainsamlingsmetod, transskriberingsprocess och analysmetod</li> <li>• Några otydligheter i den dokumenterade metodiska medvetenheten</li> <li>• Otydligheter i presentationen av data</li> <li>• Några otydligheter om tolkningars förankring i data</li> <li>• Några otydligheter om tolkningarnas trovärdighet och tillförlitlighet</li> <li>• Otydlig kontextualisering av resultat i tidigare forskning</li> <li>• Implikationer för relevant praktik är otydligt beskrivna</li> </ul>	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Oklart beskrivet sammanhang (kontext)</li> <li>• Vagt definierad frågeställning</li> <li>• Otydligt beskriven urvalsprocess, datainsamlingsmetod, transskriberingsprocess och analysmetod</li> <li>• Dåligt dokumenterad metodisk medvetenhet</li> <li>• Osystematisk och mindre stringent dataredovisning</li> <li>• Otydlig förankring av tolkningarna i data</li> <li>• Diskussion om tolkningarnas trovärdighet och tillförlitlighet är bristfällig eller saknas</li> <li>• Kontextualisering av resultat i tidigare forskning saknas eller är outvecklad</li> <li>• Implikationer för relevant praktik saknas eller är otydliga</li> </ul>

Fynd vid kvalitativa studier kan inte generaliseras som vid kvantitativa studier. Det är inga fakta eller bevis som presenteras som är sanningar för den grupp som studerats. Fynden är istället beskrivningar och tolkningar. Resultaten måste sättas i relation till sin rimlighet och hur tydligt och logiskt de har presenterats. De måste förstås av andra och uppfattas som trovärdiga. Begreppet överförbarhet används i kvalitativa sammanhang och är jämförbart med generaliserbarhet. I den kvantitativa studien är det forskaren som går i god för en möjlig generaliserbarhet. I den kvalitativa studien är det läsaren som själv måste avgöra om studiens sammanhang är tillräckligt lika för att resultaten ska kunna överföras till andra sammanhang. Överförbarheten har alltid begränsningar. Därför är urvalsstrategin en viktig förutsättning som bidrar till att läsaren kan bestämma var gränserna går [11].

**Tabell 2.1** Tabell över tredje nivåns teman

<b>Ämnesområde 1: Patientens perspektiv</b>			
<b>Tredje nivåns tema</b>	<b>Andra nivåns tema</b>	<b>Första nivåns tema</b>	<b>Studier</b>
Personernas osäkra omständigheter påkallar samhällets resurser och förståelse	Osäker identitet och självinsikt	Värdighet; söker mönster för identifiering	[12]
	Värdighet, tolerans och emotionellt stöd saknas	Mer tolerans	[12]
		Materiellt och emotionellt stöd behövs (ungdomar)	[13]
	Ensamhet, begränsat stöd, såväl materiellt som psykosocialt	Mer tolerans	[12]
		Materiellt och emotionellt stöd behövs (ungdomar)	[13]
		Psykosociala och fysiska villkor behöver utvecklas (vuxna). Ensamhet, kontaktlöshet, när inte fram	[14]

*Tabellen fortsätter på nästa sida*

**Tabell 2.1** fortsättning

<b>Ämnesområde 2: Relationen mellan patient, anhöriga och personal/vårdgivare</b>			
<b>Tredje nivåns tema</b>	<b>Andra nivåns tema</b>	<b>Första nivåns tema</b>	<b>Studier</b>
Otillräckliga förutsättningar och påfrestande förhållanden med hopp om förbättring	Brister i utbildning, personella och materiella resurser	Kunskapsluckor och tidsbrist hos läkare	[15]
		Önskar ordnad verksamhet. Behov av praktisk och social planering	[14]
		Stöd saknas (personellt, materiellt)	[13]
	Kontroverser, turbulens och oenigheter men också viss samsyn	Oenigheter föräldrar och barn	[12]
		Samsyn anhöriga personal	
		Personer med AST/Asperger invänder mot majoritetens uppfattning att AST är en sjukdom	
		Lättnad med tveksamhet	[16]
		Ogillande överlag, men enstaka områden positiva	[17]
		Stödgrupper är viktiga	[18]
	Hopp om förbättringar för barn och syskon, bättre kommunikation och ökad involvering av föräldrarna, samt pauser för kraftansamling	Förbättringar i sikte	[19]
		Syskon blandas in	
		Föräldrarna vill bli mer involverade	[20]
Kontakten och relationen är nödvändig		[21]	
Pauser behövs, motstånd kan övervinnas		[22]	

Tabellen fortsätter på nästa sida

**Tabell 2.1** fortsättning

<b>Ämnesområde 3: Allas perspektiv på patientens situation; stigma/diskriminering</b>				
<b>Tredje nivåns tema</b>	<b>Andra nivåns tema</b>	<b>Första nivåns tema</b>	<b>Studier</b>	
Utsatthet och kamp för acceptans	Viktigt med diagnos och stöd	Tolerans och stöd	[12]	
		Diagnos som skydd	[18]	
	Föräldrarna känner sorg och vanmakt och oroar sig för syskonen	Socialt utsatta syskon	[19]	
		Utsatta mödrar	[22]	
<b>Ämnesområde 4: anhörigas och vårdgivares perspektiv på sig själva</b>				
Från utsatthet till ökad livserfarenhet	Förväntningar motsvaras inte	Arbeta med knappa möjligheter	[15]	
		Föräldrar emotionellt påverkade, både bedrövelse och ny tillit	[16]	
		Familjen blir utsatt	[18]	
	Oönskade krav ger frustration och utveckling	Syskonen sårbara	[19]	
		Föräldrarollen stimulerar till växt och ökat ansvar	[20]	
		Ökad ansvarsmedvetenhet	[21]	
	Omvärdering av personliga attityder	Föräldrar emotionellt påverkade, både bedrövelse och ny tillit	Föräldrarollen stimulerar till växt och ökat ansvar	[20]
			Ökad ansvarsmedvetenhet	[21]
			Mödrar omvärderar livssituationen	[22]

Utvecklingen av temanivåer har skett i samråd mellan de sakkunniga och ibland även i diskussion inom hela arbetsgruppen. Överväganden, diskussioner och omprövningar har gjorts kontinuerligt tills de definitiva formuleringarna har bestämts. Vi har också under hela projektets gång använt en referensgrupp bestående av företrädare från patientorganisationer inom vår diagnosgrupp (se under rubriken Projektgrupp, externa granskare, bindningar och jäv) för att stämma av och få synpunkter på vårt arbete.

## Referenser

1. Shea BJ, Grimshaw JM, Wells GA, Boers M, Andersson N, Hamel C, et al. Development of AMSTAR: a measurement tool to assess the methodological quality of systematic reviews. *BMC Med Res Methodol* 2007;7:10.
2. Whiting P, Rutjes AW, Reitsma JB, Bossuyt PM, Kleijnen J. The development of QUADAS: a tool for the quality assessment of studies of diagnostic accuracy included in systematic reviews. *BMC Med Res Methodol* 2003;3:25.
3. Bossuyt PM, Reitsma JB, Bruns DE, Gatsonis CA, Glasziou PP, Irwig LM, et al. Towards complete and accurate reporting of studies of diagnostic accuracy: the STARD initiative. *BMJ* 2003;326:41-4.
4. Rutjes AW, Reitsma JB, Coomarasamy A, Khan KS, Bossuyt PM. Evaluation of diagnostic tests when there is no gold standard. A review of methods. *Health Technol Assess* 2007;11:iii, ix-51.
5. Whiting P, Rutjes AW, Reitsma JB, Glas AS, Bossuyt PM, Kleijnen J. Sources of variation and bias in studies of diagnostic accuracy: a systematic review. *Ann Intern Med* 2004;140:189-202.
6. Knottnerus JA. Diagnostic prediction rules: principles, requirements and pitfalls. *Prim Care* 1995;22:341-63.
7. Booth A, Clarke M, Ghersi D, Moher D, Petticrew M, Stewart L. An international registry of systematic-review protocols. *Lancet* 2011;377:108-9.
8. Jesner OS, Aref-Adib M, Coren E. Risperidone for autism spectrum disorder. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 2007, Issue 1. Art. No.: CD005040. DOI: 10.1002/14651858.CD005040.pub2.
9. Zamora J, Abraira V, Muriel A, Khan K, Coomarasamy A. Meta-DiSc: a software for meta-analysis of test accuracy data. *BMC Med Res Methodol* 2006;6:31.
10. Guyatt GH, Oxman AD, Vist GE, Kunz R, Falck-Ytter Y, Alonso-Coello P, Schunemann HJ. GRADE: an emerging consensus on rating quality of evidence and strength of recommendations. *BMJ* 2008;336:924-6.
11. SBU. Utvärdering av metoder i hälso- och sjukvården – En handbok. [http://www.sbu.se/sv/Evidensbaserad-varld/Utvardering-av-metoder-i-halso-och-sjukvarden -- En-handbok/](http://www.sbu.se/sv/Evidensbaserad-varld/Utvardering-av-metoder-i-halso-och-sjukvarden--En-handbok/)
12. Clarke J, van Amerom G. Asperger's syndrome: differences between parents' understanding and those diagnosed. *Soc Work Health Care* 2008;46:85-106.
13. Tobias A. Supporting students with autistic spectrum disorder (ASD) at secondary school: A parent and student perspective. *Educational Psychology in Practice* 2009;25:151-65.
14. Müller E, Schuler A, Yates GB. Social challenges and supports from the perspective of individuals with Asperger syndrome and other autism spectrum disabilities. *Autism* 2008;12:173-90.
15. Carbone PS, Behl DD, Azor V, Murphy NA. The medical home for children with autism spectrum disorders: parent and pediatrician perspectives. *J Autism Dev Disord* 2010;40:317-24.
16. Benderix Y, Nordstrom B, Sivberg B. Parents' experience of having a child with autism and learning disabilities living in a group home: a case study. *Autism* 2006;10:629-41.
17. Renty J, Roeyers H. Satisfaction with formal support and education for children with autism spectrum disorder: the voices of the parents. *Child Care Health Dev* 2006;32:371-85.
18. Farrugia D. Exploring stigma: medical knowledge and the stigmatisation of parents of children diagnosed with autism spectrum disorder. *Sociol Health Illn* 2009;31:1011-27.
19. Benderix Y, Sivberg B. Siblings' experiences of having a brother or sister with autism and mental retardation: a case study of 14 siblings from five families. *J Pediatr Nurs* 2007;22:410-8.
20. Stoner JB, Angell ME. Parent perspectives on role engagement: An investigation of parents of children with ASD and their self-reported roles with education professionals. *Focus Autism Other Dev Disabl* 2006;21:177-89.
21. Stoner JB, Angell ME, House JJ, Bock SJ. Transitions: Perspectives from parents of young children with Autism Spectrum Disorder (ASD). *J Dev Phys Disabil* 2007;19:23-39.
22. Kuhaneck HM, Burroughs T, Wright J, Lemanczyk T, Darragh AR. A Qualitative Study of Coping in Mothers of Children with an Autism Spectrum Disorder. *Phys Occup Ther Pediatr* 2010;30:340-50.

## 3. Systematisk litteraturoversikt – Diagnostik och insatser vid AST

---

I detta kapitel redovisas resultaten av den systematiska genomgången av de diagnostiska formulär och de behandlingsinsatser som används vid autismspektrumtillstånd (AST). Följande delkapitel ingår:

3.1 Instrument för utredning av AST

3.2 Insatser vid AST

3.3 Läkemedelsbehandling med risperidon vid AST

Alla litteratursökningar innefattar barn, ungdomar och vuxna med autismspektrumtillstånd. Vi har utgått från de diagnostiska instrument och insatser som framkom i den nationella inventeringen ”Barn- och ungdomspsykiatrins metoder” från 2009. I samråd med experter inom området har vi lagt till diagnostiska instrument och insatser som används i Sverige. Vi har även tagit med vissa metoder som inte används idag men där det kan vara av intresse att bedöma aktuell forskning.



## 3.1 Instrument för utredning av AST

### Slutsatser

- ❑ Autismspektrumtillstånd innebär i många fall stora funktionsnedsättningar, och instrumenten för utredning bör undersökas bättre. Det finns ett vetenskapligt stöd för två av 14 utvärderade instrument. Dessa instrument är Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R) och Social Communication Questionnaire (SCQ) för autismspektrumtillstånd. I fråga om övriga diagnostiska instrument och skattningsformulär är det vetenskapliga underlaget otillräckligt för att dra några slutsatser.
- ❑ Eftersom instrumenten inte är tillräckligt utvärderade finns det skäl att låta den diagnostiska processen ligga kvar inom den specialiserade vården. Det är viktigt att man följer upp användningen av de diagnostiska instrumenten och skattningsformulären.

### Bakgrund

Att utreda och diagnostisera ett autismspektrumtillstånd (AST) är en komplex uppgift. Den diagnostiska bedömningen ska baseras på social samspelsförmåga, verbal- och icke-verbal kommunikationsförmåga och förmåga till flexibelt och adaptivt beteende med hänsyn till individens utvecklingsnivå. Standard i klinisk forskning och ”best practice” i den kliniska vardagen utgörs av en multiprofessionell klinisk bedömning (konsensusdiagnos). Denna typ av diagnostisk bedömning kan också benämnas LEAD (Longitudinal Observation by Experts using All Data). Den baseras på det multiprofessionella teamets samlade information om individen för att avgöra om tillräckligt antal kriterier för något tillstånd inom AST enligt DSM-IV-TR eller ICD-10 är uppfyllt. Det är viktigt att poängtera att inget enskilt diagnostiskt instrument utgör tillräckligt underlag för diagnos, utan ska alltid vägas ihop med övriga utredningsresultat. Utredning brukar innefatta både intervju med förälder eller annan närstående och observation av den person det gäller i vardagsmiljö och vid testsituation.

Ett av syftena med denna systematiska översikt är att utvärdera de instrument som används i Sverige vid utredning av AST (autistiskt

syndrom, Aspergers syndrom, atypisk autism; se diagnoskriterierna Kapitel 1, Faktaruta 1.1 och 1.2). År 2009 publicerades den nationella inventeringen Barn- och ungdomspsykiatrins metoder [1]. Vi har utgått från de olika instrument för AST som framkom i inventeringen. Några instrument har inte utvärderats pga att det saknas svensk översättning, att det är utvecklat för allmän screening av psykiska symtom, att det inte är utvärderat på en klinisk population eller att det endast mäter vissa autistiska symtom. Fyra instrument har tillkommit i samråd med experter inom det aktuella fältet (Tabell 3.1.1).

Vi har utvärderat två typer av instrument vid utredning av AST. Dels skattningsformulär som används vid misstanke om AST, så kallad riktad eller sekundär screening. Med det menas frågeformulär som är avsedda att identifiera personer med autistiska symtom av den omfattning och svårighetsgrad att det finns behov av fortsatt utredning. Dels diagnostiska instrument i form av strukturerade föräldrintervjuer och standardiserade observationsscheman som är avsedda att användas som en del i den diagnostiska utredningen. De är utvecklade för att underlätta en samlad klinisk bedömning av AST genom att bidra med ett standardiserat insamlade av information.

**Tabell 3.1.1** Utvärderade diagnosinstrument<sup>1</sup> för AST.

Utvärderade instrument	Framkom i inventeringen Barn- och ungdomspsykiatrins metoder [1]
Social Communication Questionnaire (SCQ)	
Social Responsiveness Scale (SRS)	
Ritvo Autism Asperger Diagnostic Scale (RAADS)	
Childhood Autism Rating Scale (CARS)	x
Autism Diagnostic Interview Schedule for DSM-IV (ADI/ADI-R)	x
Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS)	x
ADOS-Toddler Module (ADOS-TM)	
Childhood Autism Spectrum Test (CAST)	x
Development and Well Being Assessment (DAWBA)	
Autism Spectrum Screening Questionnaire (ASSQ) (Ehlers formulär/Formulär A)	x
Autism Spectrum Disorder Adult Screening Questionnaire (ASDASQ)	x
Asperger Syndrome Diagnostic Interview (ASDI)	x
Autism spectrum Quotient (AQ)	x
Diagnostic Interview for Social and Communication disorders (DISCO)	x
Schedule for Affective Disorders and Schizophrenia for school-aged children (Kiddie-SADS)	x

<sup>1</sup> Diagnosinstrumenten Theory of mind test, M-CHAT, Bryant index for empathy, Griffith Empathy Measure och VABS var med i den nationella inventeringen Barn- och ungdomspsykiatrins metoder [1]. De har dock inte utvärderats här.

**Faktaruta 3.1.1** Utvärderade instrument som har ett vetenskapligt underlag.

#### **Skattningsformulär**

##### **Social Communication Questionnaire (SCQ) [2,3]**

SCQ är inriktat på att identifiera barn med möjlig AST. Det består av 40 frågor, vilka besvaras av föräldrar eller annan närstående. Skattningen tar cirka 10 minuter. SCQ fokuserar på social samverkan, språk och kommunikation samt stereotyp beteende. SCQ finns i två versioner: en som är inriktad på aktuella symtom samt en som inventerar förekomst av autistiska symtom under hela uppväxttiden. SCQ baseras på det diagnostiskt inriktade instrumentet Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R). ADI baseras i sin tur på diagnostiska kriterier för autistiskt syndrom enligt DSM-IV och ICD-10.

##### **Social Responsiveness Scale (SRS) [4]**

SRS är inriktat på att identifiera autistiska drag av olika svårighetsgrad hos barn och ungdomar 4–18 år gamla. Formuläret är avsett att besvaras av föräldrar (eller motsvarande) eller lärare. Skattningen tar 15–20 minuter. De 65 frågorna tar upp specifika svårigheter inom områdena social medvetenhet, social kognition, social kommunikation, social motivation och autistiska beteenden. Skattningen ska baseras på iakttagelser av barnets beteende i ett naturligt vardagligt socialt sammanhang.

##### **Ritvo Autism Asperger Diagnostic Scale-Revised (RAADS-R) [5]**

RAADS-R är ett självskattningsinstrument avsett som komplement till den kliniska diagnostiska bedömningen av autistiskt syndrom bland vuxna (>18 år) med normal eller hög begåvning. RAADS-R omfattar 80 frågor strukturerade i fyra områden: social interaktion, språk, begränsade intressen och sensoriskt motoriska symtom. Instrumentet är designat för att fyllas i av patienten med tillgång till en kliniker, som vid behov kan förklara och förtydliga frågorna. RAADS-R klassificerar individer i AST respektive inte AST.

##### **Autism Spectrum Screening Questionnaire (ASSQ) (Ehlers formulär/Formulär A) [6]**

ASSQ är inriktat på att identifiera barn med möjlig AST. Det består av 27 frågor, vilka besvaras av föräldrar eller lärare. Skattningen tar cirka 10 minuter. ASSQ fokuserar på social interaktion, verbal- och icke-verbal kommunikation, begränsat och repetitivt beteende och motorisk klumpighet.

Faktarutan fortsätter på nästa sida

**Faktaruta 3.1.1** fortsättning

#### **Diagnostiska instrument**

##### **Childhood Autism Rating Scale (CARS) [7]**

CARS är ett observations- och bedömningsinstrument avsett att användas vid utredning av autistiskt syndrom hos unga individer. CARS baseras på diagnostiska kriterier för autistiskt syndrom enligt DSM-III, dvs före det att diagnosen Aspergers syndrom och begreppet AST introducerades. Instrumentet har senare utvärderats enligt DSM-IV-kriterier för AST. Barnets beteende skattas inom sammanlagt 15 domäner, som bl a inkluderar socialisering, kommunikation, emotionella reaktioner och sensorisk känslighet. CARS klassificerar individen i kategorierna svårt, lindrigt, måttligt och icke autistiskt syndrom.

##### **Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R) [8]**

ADI-R är en standardiserad, semistrukturerad föräldraintervju. Instrumentet består av sammanlagt 93 frågor uppdelade i tre funktionsområden, social interaktion, kommunikation och språk, samt repetitivt stereotyp beteende. ADI-R genererar en algoritm, som har koppling till diagnostiska kriterier för autistiskt syndrom enligt DSM-IV och ICD-10. ADI-R kan användas för barn som har utvecklingsålder 2 år eller högre på icke-verbala tester.

##### **Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS) [9]**

ADOS är ett standardiserat och semistrukturerat observationsschema avsett att användas vid utredning av AST. Instrumentet fokuserar på funktionsområdena social förmåga, social kommunikation och begränsade repetitiva beteenden. ADOS finns i fyra olika moduler baserade på förmåga att uttrycka sig med ord (inga/några) respektive ålder (yngre/äldre). Detta instrument, som består av olika moduler, kallades under en period för ADOS-G (generic), senare ersatt av enbart ADOS. Den diagnostiska bedömningen räknas fram genom en algoritm.

### Faktaruta 3.1.2 Diagnostik vid AST.

Kriterier för diagnos vid AST är uppställda genom internationell samverkan. De utgörs av en rad beskrivningar av symtom, som ska stämma in i viss grad för att diagnos ska kunna ställas. Det har skapats en rad hjälpmedel för att underlätta tolkningen av diagnoskriterierna och göra diagnostiken mer enhetlig. Dels finns frågeformulär och intervjuer som på ett strukturerat sätt samlar information från närstående till barn, eller från en vuxen person som utreds, dels finns underlag för att på ett systematiskt sätt göra beteendeobservationer. En allsidig neuropsykiatrisk utredning brukar innefatta en begåvnings-test, ofta också bedömning av språkfärdigheter och av andra områden i utvecklingen. I diagnostiken vid AST ingår att också ta ställning till om behov finns av medicinsk utredning med tanke på bakgrundsfaktorer och eventuella andra samtidiga sjukdomar eller funktionsnedsättningar.

Det innebär inga diagnostiska svårigheter att påvisa AST i den mest typiska formen, däremot kan bilden vara mångtydig och det kan vara svårt att hitta rätt benämning vid atypiska tillstånd. Diagnostiken kan vara särskilt svår hos barn och vuxna som också har andra avvikelser i utvecklingen eller andra psykiatriska symtom. Det är inte realistiskt att tro att något diagnosinstrument, i 100 procent av alla fall, ska ge samma resultat som det man får vid bedömningar i ett kvalificerat utredningsteam, som har större mängd av information att kombinera.

### Faktaruta 3.1.3 Utvärderade instrument där det saknas studier som uppfyller inklusions- och kvalitetskriterier.

#### **Skattningsformulär**

##### ***Childhood Autism Spectrum Test (CAST) [10]***

CAST hette tidigare Childhood Asperger Screening Test och är inriktat på att identifiera barn med autistiska symtom av lindrig svårighetsgrad typiska för högfungerande autistiskt syndrom och Aspergers syndrom. Formuläret är avsett att besvaras av föräldrar och består av 37 frågor.

##### ***Development and Well Being Assessment (DAWBA) [11]***

”Bedömning av utveckling och välbefinnande”, DAWBA, består av ett integrerat paket av strukturerade instrument och standardiserade intervjuer för att undersöka förekomst av alla slag av psykiska symtom hos barn och ungdomar i åldrarna 5–16 år. Instrumentet genererar diagnosförslag enligt DSM-IV och ICD-10.

##### ***Autism Spectrum Disorder Adults Screening Questionnaire (ASDASQ) [12]***

ASDASQ är ett screeninginstrument utvecklat för att mäta förekomst av autismspektrumsymtom hos vuxna patienter remitterade med neuropsykiatrisk frågeställning. Instrumentet fylls i av kliniker.

##### ***Autism Spectrum Qoutient (AQ)***

AQ är ett instrument avsett att identifiera svårigheter inom autismspektrum hos vuxna med genomsnittlig intelligens. Instrumentet omfattar 50 frågor inom fem områden av autismspektrum: kommunikativ kompetens, social kompetens, uppmärksamhet på detaljer, fantasi och tolerans för förändringar.

#### **Diagnostiska instrument**

##### ***Asperger Syndrome (and high-functioning autism)***

##### ***Diagnostic Interview (ASDI) [13]***

ASDI är en strukturerad patientintervju utvecklad för att preliminärt fastställa om Aspergers syndrom eller högfungerande autistiskt syndrom föreligger hos ungdomar och unga vuxna.

Faktarutan fortsätter på nästa sida

### Faktaruta 3.1.3 fortsättning

#### **Diagnostic Interview for Social and Communication disorders (DISCO) [14]**

DISCO är en standardiserad, semistrukturerad föräldrantervju. Instrumentet består av sammanlagt 362 frågor vars primära syfte är att inventera svårigheter inom autismspektrum för att kunna bedöma individens utvecklingsnivå, funktionsförmåga, svårigheter och speciella behov. DISCO genererar också algoritmer som har koppling till diagnostiska kriterier för diagnoser inom AST enligt DSM-IV och ICD-10.

#### **Schedule for Affective Disorders and Schizophrenia for school-aged children (Kiddie-SADS) [15]**

Kiddie-SADS är en intervju för barn 6–18 år och innefattar i princip alla barn- och ungdomspsykiatriska tillstånd. Samma formulär används till barn och föräldrar. I en strukturerad screeningintervju frågar man om cirka 80 barnpsykiatriska symtom. Om barnet har något problem som framgår av screeningen går man vidare med ett riktat supplement med detaljerade frågor.

#### **ADOS-Toddler Module (ADOS-TM) [16]**

ADOS-TM är en modifierad version av ADOS för observation av barn under 30 månaders ålder, som har nått en icke-verbal utvecklingsnivå på minst 12 månader. ADOS-TM är avsedd att användas som en del i utredning av AST. Instrumentet består av tre moduler: social interaktion, kommunikation, och lek. ADOS-TM klassificerar individen i kategorierna AST eller inte AST.

### Evidensgraderade resultat

#### **Social Communication Questionnaire (SCQ)**

##### *Identifiera AST*

- Det finns måttligt starkt vetenskapligt underlag för att SCQ har en sensitivitet på 71 procent (95 % KI, 66 till 74; cut-off 15 poäng) för att identifiera AST med DSM-IV eller ADI-R och ADOS i kombination som referensstandard hos barn och ungdomar 2–16 år i specialiserad vård för AST (⊕⊕⊕○).

- Det finns måttligt starkt vetenskapligt underlag för att SCQ har en specificitet på 74 procent (95 % KI, 69 till 79; cut-off 15 poäng) för att utesluta AST med DSM-IV eller ADI-R och ADOS i kombination som referensstandard hos barn och ungdomar 2–16 år i specialiserad vård för AST (⊕⊕⊕○).

#### **Social Responsiveness Scale (SRS)**

##### *Identifiera AST*

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att bedöma tillförlitligheten för att identifiera AST med SRS (föräldraskattning) hos barn (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att bedöma tillförlitligheten för att identifiera AST med SRS (föräldraskattning och lärarskattning i kombination) hos barn (⊕○○○).

#### **Ritvo Autism Asperger Diagnostic Scale-Revised (RAADS-R)**

##### *Identifiera AST*

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att bedöma tillförlitligheten för att identifiera AST med RAADS-R (självskattning) hos vuxna (⊕○○○).

#### **Autism Spectrum Screening Questionnaire (ASSQ)**

##### *Identifiera AST*

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att bedöma tillförlitligheten för att identifiera AST med ASSQ (föräldraskattning och lärarskattning) hos barn (⊕○○○).

#### **Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R)**

##### *Ställa diagnosen autistiskt syndrom*

- Det finns begränsat vetenskapligt underlag för att ADI-R har en sensitivitet på 79 procent (95 % KI, 73 till 84) för att ställa diagnosen autistiskt syndrom med DSM-IV som referensstandard hos individer i åldern 1,5–22 år i specialiserad vård för AST (⊕⊕○○).
- Det finns begränsat vetenskapligt underlag för att ADI-R har en specificitet på 66 procent (95 % KI, 60 till 72) för att utesluta diag-

nosen autistiskt syndrom med DSM-IV som referensstandard hos individer 1,5–22 år i specialiserad vård för AST (⊕⊕○○).

### Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS)

#### Ställa diagnosen autistiskt syndrom

- Det finns begränsat vetenskapligt underlag för att ADOS har en sensitivitet på 88 procent (95 % KI, 88 till 92) för att ställa diagnosen autistiskt syndrom med DSM-IV som referensstandard hos individer 1,5–22 år i specialiserad vård för AST (⊕⊕○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (bristande överensstämmelse och precision) för att bedöma den diagnostiska tillförlitligheten mätt som specificitet för att utesluta diagnosen autistiskt syndrom med ADOS hos barn och ungdomar (⊕○○○).

### Childhood Autism Rating Scale (CARS)

#### Ställa diagnosen autistiskt syndrom

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att bedöma den diagnostiska tillförlitligheten för att ställa diagnosen autistiskt syndrom med CARS hos barn (⊕○○○).

### Övriga instrument

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma tillförlitligheten för att identifiera AST hos följande instrument (⊕○○○):
  - Asperger Syndrome Diagnostic Interview (ASDI)
  - Autism Diagnostic Observation Schedule-Toddler Module (ADOS-TM)
  - Autism Spectrum Disorder Adult Screening Questionnaire (ASDASQ)
  - Autism spectrum Quotient (AQ)
  - Childhood Autism Spectrum Test (CAST)
  - Development and Well-Being Assessment (DAWBA)
  - Diagnostic Interview for Social and Communication disorders (DISCO)
  - Scheudle for Affective Disorders and Schizophrenia for school-aged children (Kiddie-SADS)

## Sammanfattande resultattabeller

### SCQ

**Tabell 3.1.2** Sammanfattande resultattabell. Tillförlitligheten för att identifiera AST med SCQ hos barn och ungdomar 2–16 år, specialistklinik, cut-off 15.

Effektmaß	Antal patienter (antal studier)	Medelvärde (95% KI)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Sensitivitet	822 (3)	0,71 (0,66;0,74)	⊕⊕⊕○	Överensstämmelse (-1)* [17–19]
Specificitet	822 (3)	0,74 (0,69;0,79)	⊕⊕⊕○	Överensstämmelse (-1)* [17–19]

\* Prevalens 32%, 75% och 40%.

KI = Konfidens intervall

### SRS

**Tabell 3.1.3** Sammanfattande resultattabell. Tillförlitligheten för att identifiera AST med SRS föräldraskattning.

Effektmaß	Antal patienter (antal studier)	Medelvärde (95% KI)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Sensitivitet	1 365 (1)	0,90* (-)	⊕○○○	1 studie [20]
Specificitet	1 365 (1)	0,50* (-)	⊕○○○	1 studie [20]

\* Cut-off 56. Prevalens 12%.

KI = Konfidens intervall

**Tabell 3.1.4** Sammanfattande resultattabell. Tillförlitligheten för att identifiera AST med SRS föräldra- och lärarskattning.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Medelvärde (95% KI)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Sensitivitet	442 (1)	0,75* (-)	⊕○○○	1 studie [21]
Specificitet	442 (1)	0,96* (-)	⊕○○○	1 studie [21]

\* Cut-off 60. Prevalens 61%.

KI = Konfidens intervall

## RAADS

**Tabell 3.1.5** Sammanfattande resultattabell. Tillförlitligheten för att identifiera AST med RAADS hos vuxna.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Medelvärde (95% KI)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Sensitivitet	779 (1)	0,97* (-)	⊕○○○	1 studie [5]
Specificitet	779 (1)	1,0* (-)	⊕○○○	1 studie [5]

\* Cut-off 65. Prevalens AST 26%.

KI = Konfidens intervall

## ASSQ

**Tabell 3.1.6** Sammanfattande resultattabell. Tillförlitligheten för att identifiera AST med ASSQ med föräldraskattning hos barn.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Medelvärde (95% KI)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Sensitivitet	109 (1)	0,62* (-)	⊕○○○	1 studie [6]
Specificitet	109 (1)	0,90* (-)	⊕○○○	1 studie [6]

\* Cut-off 19. Prevalens AST 19%.

KI = Konfidens intervall

**Tabell 3.1.7** Sammanfattande resultattabell. Tillförlitligheten för att identifiera AST med ASSQ med lärarskattning hos barn.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Medelvärde (95% KI)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Sensitivitet	106 (1)	0,70* (-)	⊕○○○	1 studie [6]
Specificitet	106 (1)	0,91* (-)	⊕○○○	1 studie [6]

\* Cut-off 22. Prevalens AST 19%.

KI = Konfidens intervall

## ADI-R

**Tabell 3.1.8** Sammanfattande resultattabell. Diagnostisk tillförlitlighet för att ställa diagnosen autistiskt syndrom med ADI-R, 1,5–22 år.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Medelvärde (95% KI)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Sensitivitet	470 (3)	0,79 (0,73;0,84)	⊕⊕○○	Överensstämmelse (-2)* [22–24]
Specificitet	470 (3)	0,66 (0,60;0,72)	⊕⊕○○	Överensstämmelse (-2)* [22–24]

\* Skillnad mellan studierna med avseende på åldersspann (5–20 år, 1,5–4,5 år, 2,5–22 år) och prevalens (26, 57, 55%).

KI = Konfidens intervall

## ADOS

**Tabell 3.1.9** Sammanfattande resultattabell. Diagnostisk tillförlitlighet för att ställa diagnosen autistiskt syndrom med ADOS, 1,5–22 år.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Medelvärde (95% KI)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Sensitivitet	470 (3)	0,88 (0,82;0,92)	⊕⊕○○	Överensstämmelse (-2)* [22,24]
Specificitet	470 (3)	0,75 (0,69;0,80)	⊕○○○	Överensstämmelse (-2)* Precision** [22,24]

\* Skillnad mellan studierna med avseende på åldersspann (5–20 år, 1,5–4,5 år, 2,5–22 år) och prevalens (26, 57, 55%).

\*\* I<sup>2</sup>=89 %.

## CARS

**Tabell 3.1.10** Sammanfattande resultattabell. Diagnostisk tillförlitlighet för att ställa diagnosen autistiskt syndrom med CARS, 2 år.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Medelvärde (95% KI)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Sensitivitet	243 (1)	0,79* (-)	⊕○○○	1 studie [25]
Specificitet	243 (1)	0,81* (-)	⊕○○○	1 studie [25]

\* Autistiskt syndrom-diagnos i en population med autistiskt syndrom och atypisk autism. Prevalens autistiskt syndrom 58%. Cut-off 32.

KI = Konfidens intervall

**Tabell 3.1.11** Sammanfattande resultattabell. Diagnostisk tillförlitlighet för att ställa diagnosen autistiskt syndrom med CARS, 4 år.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Medelvärde (95% KI)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Sensitivitet	148 (1)	0,86* (-)	⊕○○○	1 studie [25]
Specificitet	148 (1)	0,80* (-)	⊕○○○	1 studie [25]

\* Autistiskt syndrom-diagnos i en population med autistiskt syndrom och atypisk autism. Prevalens autistiskt syndrom 70%. Cut-off 30.

KI = Konfidens intervall



## Frågor

1. Vad är tillförlitligheten, mätt som sensitivitet och specificitet, för instrument avsedda för riktad screening som används vid misstanke om AST hos barn, ungdomar och vuxna, med DSM-IV, ICD-10 eller ADI-R och ADOS i kombination som referensstandard?
2. Vad är tillförlitligheten, mätt som sensitivitet och specificitet, för instrument avsedda för diagnostik som används vid misstanke om AST hos barn, ungdomar och vuxna, med DSM-IV, ICD-10 eller ADI-R och ADOS i kombination som referensstandard?

## Inklusions- och exklusionskriterier

Vi inkluderade systematiska översikter och primärstudier på engelska, svenska, norska eller danska.

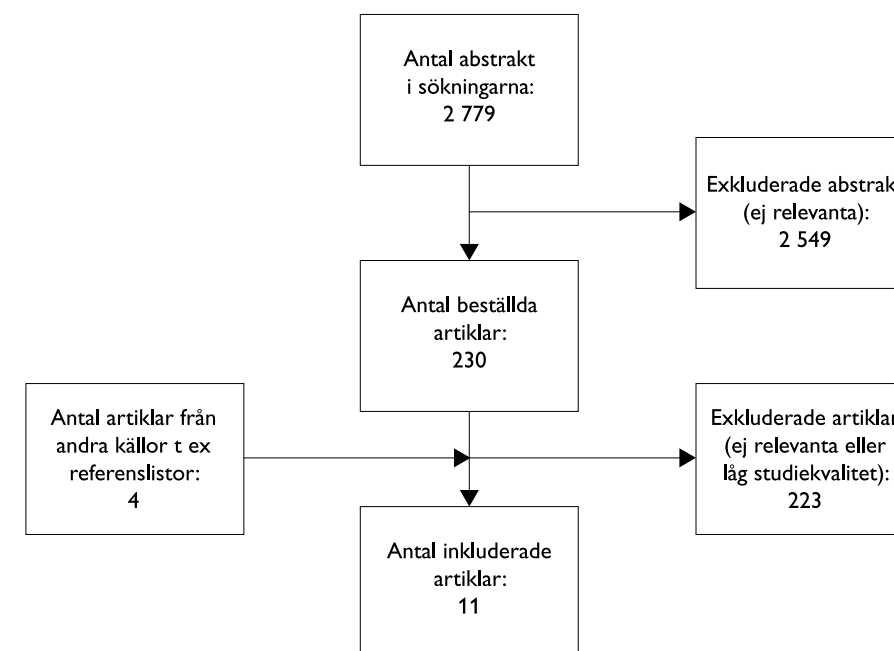
<b>Population</b>	Barn, ungdomar och vuxna med misstanke om AST.
<b>Indextest</b>	De diagnosinstrument för AST som används i Sverige och finns översatta till svenska (Tabell 3.1.1).
<b>Referenstest</b>	Klinisk diagnos enligt DSM-IV, ICD-10 eller ADI-R och ADOS tillsammans.
<b>Utfallsmått</b>	Sensitivitet, specificitet, likelihood-kvoter, odds kvot, multivariata analyser eller ROC med eller utan Az (area under kurvan). Alternativt att data rapporteras så att sensitivitet och specificitet kan beräknas.

Vi exkluderade studier som handlade om generella screeningsformulär (screeninginstrument typ 1), dvs screening av populationer för ett brett spektrum av psykiatriska tillstånd<sup>2</sup>. Vi har också exkluderat studier som har prövat översättningar av olika versioner av ett skattningsformulär t ex validering av en kinesisk version av ett instrument. Undantaget är om det gäller en validering i ett nordiskt land.

<sup>2</sup> Exempel på generella screeningformulär är Child Behavior Checklist (CBCL), Strengths and Difficulties Questionnaire (SDQ) och Nordiskt formulär rörande barns utveckling och beteende i åldrarna 5–15 år (NF 5–15).

## Resultat av litteratursökningen

Litteratursökningen resulterade i 2 779 abstrakt. Flödesschemat i Figur 3.1.1 sammanställer det totala antalet titlar, antalet artiklar som beställts i fulltext och antalet som har inkluderats i granskningen.



Figur 3.1.1 Flödesschema över litteratursökning och granskningsprocess.

## Beskrivning av studier och resultat

### Skattningsinstrument

#### *Social Communication Questionnaire (SCQ)*

En australisk studie inkluderade barn i förskoleåldern som hade remitterats till specialistklinik för utredning pga avvikande utveckling [17]. Studien genomfördes under 9 månader av ett multiprofessionellt team. Föräldrarna besvarade SCQ varefter teamet gjorde en oberoende diagnostisk bedömning baserad på DSM-IV-kriterier för AST. Vid en cut-

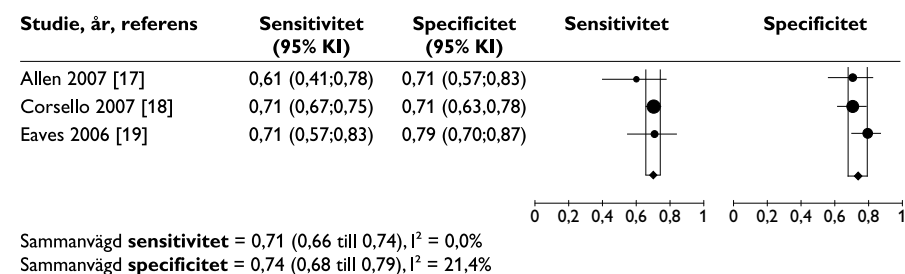
offnivå på 11 erhöles en sensitivitet på 93 procent och en specificitet på 58 procent. Vid en cut-offnivå på 15 ökade specificiteten till 70 procent medan sensitiviteten minskade till 60 procent. Resultatet visar sammanfattningsvis att SCQ har låg specificitet, vilket ger upphov till en hög andel falskt positiva fall.

En annan studie undersökte SCQ:s funktion som ett kliniskt screening-instrument på barn i åldrarna 2–16 år vilka remitterats med misstanke om AST [18]. Föräldrarna besvarade SCQ varefter en klinisk bedömning, baserad på ADI-R och ADOS, gjordes utan kännedom om utfallet på SCQ. Vid en cut-offnivå på 15 erhöles för autistiskt syndrom jämfört med icke-AST en sensitivitet på 78 procent och en specificitet på 71 procent. För AST jämfört med icke-AST en sensitivitet på 71 procent och en specificitet på 71 procent. Vid en cut-offnivå på 20 erhöles en sensitivitet på 45 procent och en specificitet på 84 procent vilket innebär att den högre cut-off nivån medförde färre falskt positiva fall, men även färre sant positiva fall.

Validiteten av SCQ för barn med en genomsnittlig ålder på 5 år undersöktes i en kanadensisk studie av AST [19]. Barnen var remitterade till två olika specialistkliniker för utredning pga avvikande utveckling. Föräldrarna besvarade först SCQ och därefter gjorde ett tvärprofessionellt team en oberoende diagnostisk bedömning baserad på DSM-IV-kriterier, CARS och i vissa fall ADOS. ADI-R ingick i utredningen, men resultatet användes inte vid fastställande av diagnos. Vid en cut-offnivå på 15 var sensitiviteten 71 procent och specificiteten 79 procent. Specificiteten utföll bättre på förskolekliniken än på kliniken för autistiskt syndrom, dvs 62 procent jämfört med 53 procent, vilket påverkar antalet falskt positiva fall.

Metaanalys av resultaten från de tre studierna visar att sensitiviteten är 71 procent och att specificiteten är 74 procent (Figur 3.1.2) [17–19].

## Syntes av studierna



**Figur 3.1.2** Metaanalys av värden från tre studier [17–19]. Skattningsformuläret SCQ har använts för att identifiera AST hos barn och ungdomar 2–16 år, specialistklinik, cut-off 15.

## Social Responsiveness Scale (SRS)

Med hjälp av SRS bedömde lärare förekomsten av AST bland skolbarn i åldern 10–12 år, vilket jämfördes med motsvarande bedömningar gjorda av föräldrar [21]. Barnen som ingick i undersökningen rekryterades dels från en longitudinell studie av barn med olika psykiatriska diagnoser, inklusive barn med AST, dels från ett register med familjer med flera personer med autistiskt syndrom. Föräldrar och en lärare (vald av föräldrarna) besvarade SRS. En uppföljande bedömning av alla studiedeltagare med AST-diagnos gjordes med ADI-R och ADOS, men denna bedömning exkluderade inte någon deltagare. Vid en cut-off på 60, enligt både lärares och föräldrars skattning, var sensitiviteten 75 procent och specificiteten 96 procent. Baserat på enbart föräldraskattningen blev specificiteten 84 procent och baserat på enbart lärarskattningen blev specificiteten 90 procent. Överensstämmelsen (inter-rater) mellan föräldrar och lärare var 0,72 (Pearson's r).

I en tysk studie undersöktes SRS förmåga att identifiera barn med AST i åldrarna 8–12 år i en grupp där barnen hade diagnosen AST, annan psykiatrisk diagnos eller ingen psykiatrisk diagnos [20]. En förälder eller båda föräldrarna besvarade SRS. Referenstest utgjordes av ADI-R och ADOS, på vars resultat en tvärprofessionell klinisk konsensusdiag-

nos enligt ICD-10-kriterier baserades. En cut-off på 85 diskriminerade bäst mellan AST och andra psykiatriska diagnoser, med en sensitivitet på 73 procent och en specificitet på 81 procent. Eftersom olika cut-off användes i de två studierna, samt att inga lärarskattningar gjordes i den tyska studien, har ingen syntes kunnat göras.

#### ***Ritvo Autism Asperger Diagnostic Scale-Revised (RAADS-R)***

I en multicenterstudie, som genomfördes vid nio specialistkliniker i USA, Australien, Kanada och England, inkluderades 779 individer i en analys av RAADS-R [5]. Till gruppen personer med autistiskt syndrom respektive Aspergers syndrom inkluderades två jämförelsegrupper. Den ena gruppen bestod av personer med annan DSM-IV-diagnos och den andra gruppen av personer utan DSM-IV-diagnos. Bästa cut-off för att skilja mellan autistiskt syndrom och icke-autistiskt syndrom var 65 poäng då sensitiviteten uppgick till 97 procent och specificiteten till 100 procent. Eventuell osäkerhet i skattningarna går inte att utläsa, då studien anger standardavvikelse och inte konfidensintervall, som mått på varians.

#### ***Autism Spectrum Screening Questionnaire (ASSQ)***

En svensk studie med inriktning på sekundär screening av välfungerande AST inkluderade 110 barn och ungdomar i åldern 6 till 17 år som var konsekutivt handlagda vid en neuropsykiatrisk klinik [6]. Barn med måttlig eller svår retardation exkluderades då ASSQ inte är avsett för barn med motsvarande funktionsnedsättningar. Referenstest utgjordes av en professionell bedömning enligt DSM-IV-kriterier. ASSQ tillämpades av föräldrar och lärare. Resultaten redovisas bl a i form av ROC-kurvor vilka för föräldraskattningen motsvarade en sensitivitet på 62 procent och en specificitet på 90 procent. För lärarskattningen var utfallet en sensitivitet på 70 procent och en specificitet på 91 procent. Dessa resultat uppnåddes vid en cut-off som motsvarade 19 på ASSQ-skalan för föräldrar och 22 för lärare.

#### **Diagnostiska instrument**

##### ***Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS) och Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R)***

En studie från Nederländerna jämförde ADI-R och ADOS-G (generisk) med en klinisk diagnos baserad på DSM-IV [22]. De som ingick i studien var i åldern 5–20 år, samtliga med en lindrig till grav mental retardation. Referenstestet utgjordes av en tvärprofessionell klinisk bedömning enligt DSM-IV-TR-kriterier, via information som var insamlad med ADI-R och ADOS (men utan kännedom om hur algoritmerna utföll). För gruppen med AST uppnåddes för ADOS-G en sensitivitet på 87,4 procent och en specificitet på 47,2 procent. För samma grupp uppnåddes med ADI-R, en sensitivitet på 71,6 procent och en specificitet på 78,7 procent, med cut-off för autistiskt syndrom (ADI-R saknar speciell cut-off för AST). För gruppen med autistiskt syndrom erhöles för ADOS-G en sensitivitet på 91,7 procent och en specificitet på 64,7 procent, och för ADI-R en sensitivitet på 77,1 procent och en specificitet på 63,2 procent. Generellt sett förefaller både ADOS-G och ADI-R uppnå högre precision för autistiskt syndrom än för AST. Författarna beskriver svårigheterna att diagnostisera autistiskt syndrom vid låg utvecklingsnivå men visar på att ADI-R och ADOS i kombination ger tillgång till den information som krävs för att ställa en klinisk diagnos.

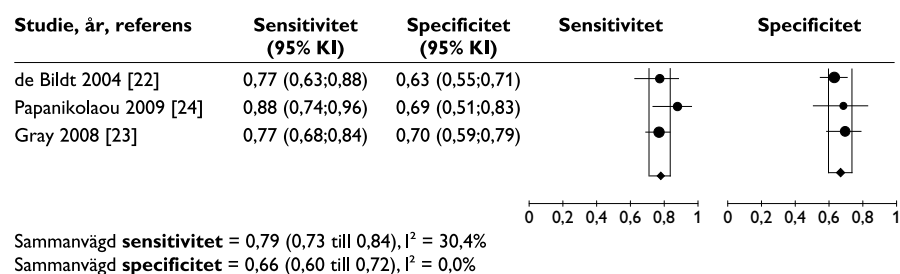
I en studie från Australien undersöktes ADI-R och ADOS diagnostiska egenskaper i en grupp barn i förskoleåldern under en period på 20–55 månader. Barnen var remitterade till en specialistklinik pga försenad utveckling och/eller misstanke om autistiskt syndrom [23]. Referenstestet utgjordes av en klinisk konsensusdiagnos baserad på DSM-IV-kriterier för autistiskt syndrom. Den kliniska diagnosen inkluderade information från ADI-R och ADOS, men bedömarna kände inte till resultatet (total score). För ADOS uppnåddes för autistiskt syndrom jämfört med icke autistiskt syndrom en sensitivitet på 85 procent och en specificitet på 89 procent. För ADI-R gav motsvarande jämförelse en sensitivitet på 77 procent och en specificitet på 70 procent. Vid AST jämfört med icke-AST gav ADI-R en något lägre sensitivitet på 73 procent, men en något högre specificitet på 77 procent. Sammanfattningsvis visar denna studie att ADOS hade bättre överensstämmelse än ADI-R med den kliniska diagnosen. Författarna påpekade att instrumenten som

använts, tillsammans gav kliniskt värdefull information också i denna grupp med sin låga ålder och ofta låga utvecklingsnivå, men att resultaten strax över eller under cut-off på algoritmer måste bedömas med försiktighet.

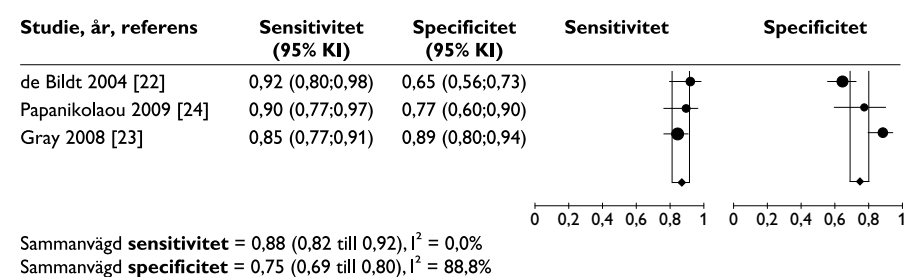
Barn och unga vuxna i åldern 3–22 år som remitterats för bedömning av AST ingick i en studie från Grekland [24]. Diagnostisk klassifikation enligt ADOS-G och ADI-R jämfördes med en klinisk konsensusdiagnos baserad på DSM-IV-kriterier, vilken var utförd av ett tvärprofessionellt team. Teamet hade tillgång till information från ADI-R-intervjun och ADOS-G-observationen. Teamet kände dock inte till resultatet (algoritm score). ADOS-G uppnådde för autistiskt syndrom jämfört med AST och nonspektrum en sensitivitet på 90 procent och en specificitet på 77 procent. Motsvarande jämförelse med ADI-R gav sensitiviteten 88 procent och specificiteten 69 procent. Sammanfattningsvis visar denna studie att ADOS-G hade bättre överensstämmelse med klinisk diagnos än ADI-R.

Syntes av studierna visar att sensitiviteten är 79 procent och att specificiteten är 66 procent för ADI-R, och att sensitiviteten är 88 procent och specificiteten är 75 procent för ADOS (Figur 3.1.3–3.1.4) [22–24].

### Syntes av studierna



**Figur 3.1.3** Metaanalys av värden från tre studier [22–24]. Det diagnostiska instrumentet ADI-R användes för att ställa diagnosen autistiskt syndrom hos barn och ungdomar 1,5–22 år.



**Figur 3.1.4** Metaanalys av värden från tre studier [22–24]. Det diagnostiska instrumentet ADOS användes för att ställa diagnosen autistiskt syndrom hos barn och ungdomar 1,5–22 år.

### Childhood Autism Rating Scale (CARS)

En amerikansk forskargrupp undersökte CARS diagnostiska förmåga i en studie som inkluderade barn i åldrarna två respektive fyra år med avvikande utveckling [25]. Barnen remitterades till en specialistklinik för utredning pga misstänkt autistiskt syndrom efter att ha screenats med M-CHAT. Referenstestet utgjordes av en tvärprofessionell klinisk bedömning enligt DSM-IV-kriterier, baserad på information inhämtad med ADI-R och ADOS. För barn i tvåårsåldern med AST visade CARS vid en cut-offnivå på 32 det bästa utfallet med en sensitivitet på 79 procent och en specificitet på 81 procent. Barn i fyraårsåldern med AST-diagnos hade vid en cut-off på 30 enligt CARS, en sensitivitet på 86 procent och specificitet på 80 procent. För barn i tvåårsåldern med autistiskt syndrom, jämfört med icke-autistiskt syndrom, var sensitiviteten 93 procent och specificiteten 85 procent (cut-off 25). Barn i fyraårsåldern med autistiskt syndrom, jämfört med icke-autistiskt syndrom, hade vid en cut-off på 25 för CARS en sensitivitet på 84 procent och en sensitivitet på 93 procent.

### Diskussion

Tretton instrument för AST har utvärderats. Av dessa finns ett vetenskapligt underlag för sju instrument: skattningsformulären SCQ, SRS, RAADS och ASSQ samt de diagnostiska instrumenten ADI-R, ADOS,

CARS. Flertalet av de 234 studier som granskades i fulltext blev exkluderade pga att de inte uppfyllde inklusionskriterierna. Den vanligaste orsaken var att tillförlitligheten i form av sensitivitet och specificitet inte hade angetts. Detta gäller t ex för studier om ASDI och DISCO. En annan vanlig orsak till exklusion var oklarheter kring referenstestetets oberoende. Antingen att indextestet använts i den kliniska diagnostiken eller att det inte gick att utesluta att diagnostikern hade kännedom om indextestetets resultat vid diagnostillfället. Detta gäller t ex för flera studier om ADI-R och ADOS. I vissa studier hade referenstestet inte baserats på DSM-IV, ICD-10 eller en kombination av ADI-R och ADOS och exkluderades därför.

De studier som har inkluderats i denna litteraturöversikt har samtliga genomförts på specialistkliniker eller universitetskliniker, dvs de baserades på remitterade personer med misstänkt AST eller personer som ingått i andra AST-studier. Generellt kan förväntas att prevalensen är högre bland de som remitteras till en specialistklinik än bland de som söker vård i t ex primärvården. Det innebär att vårdnivån (setting) som studien genomfördes på behöver beaktas vid bedömning av utfallet av det undersökta instrumentet. Vid samma sensitivitet och specificitet kommer antalet falskt positiva att öka vid låg prevalens (t ex i primärvården), jämfört med vid hög prevalens (t ex på specialistklinik). Annorlunda uttryckt, det positivt prediktiva värdet (PPV) försämras vid låg prevalens jämfört med vid hög prevalens.

Ett sätt att analysera diagnostiska test är att fokusera på utfallet i form av sant positiva och falskt positiva fall, dvs att analysera det prediktiva värdet. Ju högre PPV desto större sannolikhet att en patient med positivt test har AST. På motsvarande vis, ju högre NPV desto större sannolikhet att en patient med negativt test inte har AST.

En andra jämförelse för att fokusera på en undersöknings prognostiska värde är att uttrycka detta i dess "likelihood ratio" (LR) dvs patientens risk efter ett positivt utfall LR+ eller ett negativt utfall LR-. LR anger således en undersöknings diskriminerande kraft och indikerar hur graden av sannolikhet före undersökningen ökar LR+ eller minskar LR- med hjälp av undersökningen.

LR+	Sannolikhet för att personen har sjukdomen vid positivt test
>10	Stor eller mycket stor ökning
5–10	Måttlig ökning
2–5	Liten ökning, kan vara betydelsefull
1–2	Mycket liten ökning, sällan betydelsefull
LR-	Sannolikhet för att personen har sjukdomen vid negativt test
0,5–1	Mycket liten minskning, sällan betydelsefull
0,2–0,5	Liten minskning, kan vara betydelsefull
0,1–0,2	Måttlig minskning
<0,1	Mycket stor minskning

**Figur 3.1.5** Följande enkla tumregler har föreslagits för tolkning av LR+ och LR-.

**Tabell 3.1.12** PPV, NPV, LR+ och LR- baserat på de sammanfattande resultat-tabellerna. Beräkningarna är baserade på en prevalens på 25 procent.

Instrument	Diagnos	Grupp	PPV	NPV	LR+	LR-
SCQ	AST	2–16 år	0,53	0,89	3,38	0,37
SRS	AST (cut-off 85)	Föräldrar	0,55	0,89	3,73	0,36
SRS	AST	Föräldrar + lärare	0,86	0,92	18,75	0,26
RAADS-R	AST	Vuxna	1	0,99	Inte möjligt beräkna*	0,03
ASSQ	AST	Föräldrar	0,67	0,88	6,20	0,42
ASSQ	AST	Lärare	0,72	0,90	7,78	0,33
ADI-R	Autistiskt syndrom	1,5–22 år	0,44	0,90	2,32	0,32
ADOS	Autistiskt syndrom	1,5–22 år	0,54	0,95	3,52	0,16

Tabellen fortsätter på nästa sida

**Tabell 3.1.12** fortsättning

Instrument	Diagnos	Grupp	PPV	NPV	LR+	LR-
CARS	Autistiskt syndrom	2 år	0,58	0,92	4,16	0,26
CARS	AST	2 år	0,59	0,94	4,30	0,18
CARS	Autistiskt syndrom	4 år	0,59	0,94	4,30	0,18
CARS	AST	4 år	0,65	0,93	5,47	0,21

\* Division med noll inte möjlig.

Fet kursiv stil anger sammanvägda resultat av tre studier, övriga avser en studie.

PPV är sannolikheten för att patienten har sjukdomen när testresultatet är positivt.

NPV är sannolikheten för att patienten inte har sjukdomen när testresultatet är negativt.

LR+ är oddset för att ett positivt test kommer från en patient som har sjukdomen istället för från en patient utan sjukdom. LR+ definieras: sensitivitet/(1-specificitet).

LR- är oddset för att ett negativt test kommer från en patient som har sjukdomen istället för från en patient utan sjukdom. LR- definieras: (1-sensitivitet)/specificitet.

Läs mer om detta i Kapitel 2.

ADI-R = Autism diagnostic interview-revised; ADOS = Autism diagnostic observation schedule; ASSQ = Autism spectrum screening questionnaire; AST = Autismspektrumtillstånd; CARS = Childhood autism rating scale; LR = Likelihood ratio; NPV = Negative predictive value; PPV = Positive predictive value; RAADS-R = Ritvo autism Asperger diagnostic scale revised; SCQ = Social communication questionnaire; SRS = Social responsiveness scale

Fyra av de sju instrumenten (ASSQ, CARS, RAAD-R, SRS) som redovisas i Tabell 3.1.12 är utvärderade i endast en studie av medelhög kvalitet [5,6,20,21,25], vilket inte utgör tillräckligt underlag för vetenskapligt baserade slutsatser. De fyra instrumenten visar lovande förmåga att urskilja individer med AST, men det behövs fler studier för att bekräfta resultaten.

Övriga instrument (ADI-R, ADOS, SCQ) är utvärderade i flera studier. Låga PPV-nivåer för alla tre instrumenten visar att de har dålig förmåga att identifiera/diagnostisera autistiskt syndrom och/eller AST. Relativt höga NPV nivåer visar å andra sidan att instrumenten fungerar förhållandevis väl för att utesluta autistiskt syndrom och/eller AST.

Men NPV bör jämföras med förväntade nivåer före testet. Exempelvis, ett NPV på cirka 90 procent bör vid en prevalens på 25 procent av AST innebära att 75 procent inte hade AST före testet. Ökningen från 75 procent sannolikhet före testning till 90 procent sannolikhet efter testning att AST inte föreligger är begränsad. Även utfallet för LR visar att instrumenten med ett undantag har begränsad förmåga att identifiera/diagnostisera AST liksom för att utesluta AST. ADOS är något bättre på att ändra sannolikheten jämfört med före test, dvs LR- 0,16.

En kompletterande litteratursökning genomfördes för att undersöka om nyligen publicerade studier kunde medföra förändringar av slutsatser om evidens för inkluderade instrument. Endast två studier befanns vara relevanta och av tillräckligt hög kvalitet, en studie baserad på SRS-instrument [26] och en på DISCO-instrument [27]. Ett inkluderande av dessa två studier hade emellertid inte medfört några ändringar av evidens för diagnostiska instrument enligt denna rapport.

Sammanfattningsvis är tre instrument (SCQ, ADI-R och ADOS) vetenskapligt utvärderade i mer än en studie. SCQ är ett skattningsformulär utvecklat för att identifiera personer med autistiska symtom av den omfattning och svårighetsgrad att det finns behov för fortsatt AST-utredning. ADI-R och ADOS är utvecklade för att användas som diagnostiska verktyg vid AST-utredning. Resultaten visar att samtliga instrument har ett begränsat värde som självständiga metoder att identifiera eller diagnostisera AST, men kan utgöra en viktig del i den kliniska bedömningen. Hur en utredning är upplagd är självklart av stor vikt både för personer som själva är berörda och för de olika samhällsorgan som ska ge insatser med stöd av resultatet. Det bör vara samma villkor för diagnossättande och samma tillförlitlighet i processen var utredningen än sker. Vid studier av effekt av olika insatser är det också mycket viktigt att veta att ursprungsdiagnoserna är jämförbara. Tillförlitligheten i diagnostiken ökar vid användning av standardiserade instrument. Till utbildning i att använda ett instrument hör bl a att få kunskap om vilka begränsningar som finns för instrumentet. Svårigheterna vid diagnostik är speciellt stora för de som är yngst och/eller har lägsta utvecklingsnivån samt för gruppen med mindre typiska symtom.

**Table 3.1.13** ADI-R and ADOS.

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
de Bildt et al 2004 [22] The Netherlands	Comparison of ADI-R, ADOS-G and clinical classification	<p><u>Study design</u> Case-control</p> <p><u>Population characteristics</u> N=184 Mentally retarded (mild, moderate, severe, profound) Children and adolescents from an epidemiological study. Age range: 5–20 years Gender: 59% male</p> <p><u>Setting</u> Participants selected from an epidemiological study of PDD</p> <p><u>Disease prevalence</u> Autism 26% PDD 52%</p> <p><u>Drop-out</u> None reported</p>	ADI-R	DSM-IV-TR	<p><u>PDD diagnosis</u> Se 0.716 Sp 0.787</p> <p><u>Autism diagnosis</u> Se 0.771 Sp 0.632</p>	Moderate	Withdrawals not described. No measures of statistical uncertainty

The table continues on the next page

Table 3.1.13 continued

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Gray et al 2008 [23] Australia	To evaluate the diagnostic validity of the ADI-R and the ADOS in young children with and without autism	<p><u>Study design</u> Case-control</p> <p><u>Population characteristics</u> N=209 Autism 120 children PDD-NOS 23 children Non-autism 66 children Age range: 20–55 months Gender: Autism 85% male, non-autism 81% male</p> <p><u>Setting</u> Assessment clinic for children with developmental problems and/or suspected of having autism</p> <p><u>Disease prevalence</u> Autism 57% ASD 68%</p> <p><u>Drop-out</u> None reported</p>	ADI-R	Consensus autism clinical diagnosis/ Clinical judgment based on DSM-IV criteria	<p><u>Autism diagnosis</u> Se: 0.77 (0.68–0.84) Sp: 0.70 (0.59–0.79)</p> <p><u>ASD diagnosis</u> Se: 0.73 (0.65–0.80) Sp: 0.77 (0.65–0.87)</p>	Moderate	Uninterpretable, indeterminate or intermediate test results not reported. Withdrawals not described. Training and expertise of investigators not specified. Methods for calculating test reproducibility not described. Conflict of interest not stated
Papanikolaou et al 2009 [24] Greece	<p>1. To investigate agreement among ADI-R, ADOS-G and clinical diagnosis based on DSM-IV in a Greek sample</p> <p>2. To examine Se, Sp and PPV of ADI-R and ADOS-G</p>	<p><u>Study design</u> Cross-sectional</p> <p><u>Populations characteristics</u> N=77 Mean IQ: 83 (SD 23), range 40–146 Age range: 33 months–22 years Gender: 75% male</p> <p><u>Setting</u> Outpatient PDD clinic</p> <p><u>Disease prevalence</u> Autism: 55%</p> <p><u>Drop-out</u> None reported</p>	ADI-R translated to greek	Clinical diagnosis based on DSM-IV criteria	<p><u>Diagnosis autism vs PDD-NOS and non-spectrum</u> Se: 0.95 Sp: 0.69 PPV: 0.77 AUC: 0.8558 (0.7711–0.9404)</p>	Moderate	Examination with index and reference test was not blinded. Withdrawals not described. Conflict of interest not stated

The table continues on the next page



Table 3.1.13 continued

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
de Bildt et al 2004 [22] The Netherlands	Comparison of ADI-R, ADOS-G and clinical classification	<p><u>Study design</u> Case-control</p> <p><u>Population characteristics</u> N=184 Mentally retarded (mild, moderate, severe, profound). Children and adolescents from an epidemiological study. Age range: 5–20 years Gender: 59% male</p> <p><u>Setting</u> Participants selected from an epidemiological study of PDD</p> <p><u>Disease prevalence</u> Autism: 26% PDD: 52%</p> <p><u>Drop-out</u> None reported</p>	ADOS-G	DSM-IV-TR	<p><u>PDD diagnosis</u> Se: 0.874 Sp: 0.472</p> <p><u>Autism diagnosis</u> Se: 0.917 Sp: 0.647</p>	Moderate	Withdrawals not described. No measures of statistical uncertainty

The table continues on the next page

Table 3.1.13 continued

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Gray et al 2008 [23] Australia	To evaluate the diagnostic validity of the ADI-R and the ADOS in young children with and without autism	<p><u>Study design</u> Case-control</p> <p><u>Population characteristics</u> N=209 Autism: 120 children PDD-NOS: 23 children Non-autism: 66 children Age range: 20–55 months Gender: Autism 85% male, non-autism 81% male</p> <p><u>Setting</u> Assessment clinic for children with developmental problems and/or suspected of having autism</p> <p><u>Disease prevalence</u> Autism 57% ASD 68%</p> <p><u>Drop-out</u> None reported</p>	ADOS	Consensus autism clinical diagnosis/ Clinical judgment based on DSM-IV criteria	<p><u>Autism diagnosis</u> Se: 0.85 (0.77–0.91) Sp: 0.89 (0.80–0.94)</p> <p><u>ASD diagnosis</u> Se: 0.76 (0.68–0.82) Sp: 0.94 (0.85–0.98)</p>	Moderate	Uninterpretable, indeterminate or intermediate test results not reported. Withdrawals not described. Training and expertise of investigators not specified. Methods for calculating test reproducibility not described. Conflict of interest not stated

The table continues on the next page

Table 3.1.13 continued

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Papanikolaou et al 2009 [24] Greece	1. To investigate agreement among ADI-R, ADOS-G and clinical diagnosis based on DSM-IV in a Greek sample  2. To examine Se, Sp and PPV of ADI-R and ADOS-G	<u>Study design</u> Cross-sectional  <u>Populations characteristics</u> N=77 Mean IQ: 83 (SD 23), range 40–146 Age range: 33 months–22 years Gender: 75% male  <u>Setting</u> Outpatient PDD clinic  <u>Disease prevalence</u> Autism 55%  <u>Drop-out</u> None reported	ADOS-G translated to Greek	Clinical diagnosis based on DSM-IV criteria	<u>Diagnosis autism vs PDD-NOS and non-spectrum</u> Se: 0.90 Sp: 0.77 PPV: 0.83 AUC: 0.8694 (0.7872–0.9515)  <u>Diagnosis autism vs PDD-NOS</u> Se: 0.95 Sp: 0.60 PPV: 0.86 AUC: 0.8571 (0.7533–0.9346)  <u>Diagnosis autism vs non-spectrum</u> Se: 0.95 Sp: 0.82 PPV: 0.95 AUC: 0.8929 (0.7736–0.9581)  Results continues on the next page	Moderate	Examination with index and reference test was not blinded. Withdrawals not described. Conflict of interest not stated

The table continues on the next page

**Table 3.1.13** continued

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Papanikolaou et al 2009 [24] Greece					<u>Diagnosis</u> <u>PDD-NOS vs</u> <u>non-spectrum</u> Se: 0.53 Sp: 0.90 PPV: 0.90 AUC: 0.6812 (0.5071–0.8314)  <u>Diagnosis autism</u> <u>and PDD-NOS vs</u> <u>non-spectrum</u> Se: 0.85 Sp: 0.75 PPV: 0.95 AUC: 0.8179 (0.6714–0.9645)		

The table continues on the next page

ADI-R = Autism diagnostic interview-revised; ADOS = Autism diagnostic observation schedule; ADOS-G = Autism diagnostic observation schedule-generic; ASD = Autism spectrum disorder; AUC = Area under the curve; DSM-IV = Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth version; DSM-IV-TR = Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth edition, text revision; IQ = Intelligence quotient; N = Number of patients; PDD = Pervasive developmental disorders; PDD-NOS = Pervasive developmental disorders – not otherwise specified; PPV = Positive predictive value; SD = Standard deviation; Se = Sensitivity; Sp = Specificity

**Table 3.1.14** ASSQ.

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Ehlers et al 1999 [6] Sweden	Evaluate the reliability and validity of ASSQ for screening of high-functioning ASDs in a clinical setting	<p><u>Study design</u> Case-control</p> <p><u>Population characteristics</u> N=110 Mildly retarded children and children with high-functioning ASD Age range: 6–17 years Gender: 79% male</p> <p><u>Setting</u> Tertiary neuropsychiatric clinic</p> <p><u>Disease prevalence</u> Autism: 20% PDD: 53%</p> <p><u>Drop-out</u> 17 parents and 39 teachers</p>	ASSQ	DSM-IV and ICD-10	<p><u>ASD diagnosis, cut-off 13, parent scoring</u> Se: 0.91 Sp: 0.77</p> <p><u>ASD diagnosis, cut-off 11, teacher scoring</u> Se: 0.90 Sp: 0.58</p>	Moderate	Difference drop-outs and non-drop-outs NS

ASD = Autism spectrum disorder; ASSQ = Autism spectrum screening questionnaire; DSM-IV = Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth version; ICD = International statistical classification of diseases related health problems, 10th revision; N = Number of patients; NS = Non significant; PDD = Pervasive developmental disorders; Se = Sensitivity; Sp = Specificity

**Table 3.1.15 CARS.**

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Chlebowski et al 2010 [25] USA	Diagnostic assessment accuracy  To investigate the use of the CARS in clinically referred sample of young children with ASD. Replicate studies assessing the ideal CARS cut-off for diagnosis of autism in samples of toddlers and preschool aged children  Calculate the optimal CARS cut-off for an ASD diagnosis. Diagnostic agreement between the CARS and clinical judgment based on DSM-IV criteria	<u>Study design</u> Case-control  <u>Population characteristics</u> N=606 Children clinically referred for possible ASD according to screening with M-CHAT  <i>The 2-year sample</i> N=376 Age range: 21–30 months Gender: 79% male  <i>The 4-year sample</i> N=230 Age range: 42–66 months Gender: 80% male  <u>Setting</u> Tertiary clinic  <u>Disease prevalence</u> Autism: 41% PDD-NOS: 24%  <u>Drop-out</u> None reported	CARS  Diagnosis of: Not autism (<30) mild/moderate autism (30–36.5) severe autism (>37)	The autism group met DSM-IV criteria as per best clinical diagnosis based on ADOS and ADI-R and direct observation  The PDD-NOS group diagnosis per best clinical estimate based on ADOS, parent interview, and direct observation  The non-ASD diagnosis group based on other DSM-IV diagnosis  No diagnosis group fulfilled, no DSM-IV diagnosis, and was judged typically developing  Evaluations were conducted by experienced clinicians	<i>The 2-year sample:</i> <i>Autism diagnosis, cut-off 30:</i> Se: 0.93 Sp: 0.49  <i>Cut-off 32:</i> Se: 0.79 Sp: 0.81  <i>PDD-NOS diagnosis, cut-off 25.5</i> Se: 0.92 Sp: 0.89  <i>The 4-year sample:</i> <i>Autism diagnosis, cut-off 30:</i> Se: 0.86 Sp: 0.80  <i>PDD-NOS diagnosis, cut-off 25.5:</i> Se: 0.82 Sp: 0.95  Strong internal consistency and inter-rater reliability  The main findings continues on the next page	Moderate	Limitations: No control group  Clinical diagnosis was not made independently from CARS scores. The clinician who completed the CARS also made the diagnosis based on DSM-IV criteria  Clinicians using the CARS in a setting that does not allow for extensive behavioural observations yield consistent result with this study

The table continues on the next page

**Table 3.1.15** continued

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Chlebowski et al 2010 [25] USA					<p>The CARS total score differs significantly by diagnostic group, with children diagnosed with autism having significantly higher total CARS than children with PDD-NOS, who in turn had significantly higher scores than those with non-ASD diagnosis</p> <p>In the 2-year sample the CARS cut-off of 32 for autism produced best balanced Se and Sp</p> <p>The 4-year sample the CARS cut-off of 30 for autism produced ideal Se and Sp</p>		

ASD = Autism spectrum disorder; ADI-R = Autism diagnostic interview-revised;  
 ADOS = Autism diagnostic observation schedule; CARS = Childhood autism rating scale;  
 DSM-IV = Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth version; M-CHAT  
 = Modified checklist for autism in toddlers; N = Number of patients; PDD-NOS = Perva-  
 sive developmental disorders – Not otherwise specified; Se = Sensitivity; Sp = Specificity

**Table 3.1.16** RAADS-R.

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Ritvo et al 2011 [5] USA	To standardize the RAADS-R	<p><u>Study design</u> Case-control</p> <p><u>Population characteristics</u> N=779 ASD: n=201 (AD: n=66, AS: n=135) Comparisons n=578 (no diagnosis n=276 other DSM-IV-TR diagnosis n=302)</p> <p>Age range: 30.4–42.04 years Mean IQ range: 112–122 Gender: 44.4% male</p> <p><u>Setting</u> 9 research centers on 3 continents (university clinics)</p> <p><u>Disease prevalence</u> ASD: 26%</p> <p><u>Drop-out</u> Not reported</p>	<p>RAADS-R</p> <p>A RAADS-R score of 65 or greater is consistent with a clinical diagnosis of ASD</p> <p>A RAADS-R score of 65 or lower is not consistent with a clinical diagnosis of ASD</p>	All ASD subjects met a clinical DSM-IV-TR diagnosis of autism or AS	<u>ASD vs non-ASD</u> Se: 0.97 Sp: 1.00	Moderate	<p>Limitations: There were significant differences of the mean RAADS scores among the 9 research centers</p> <p>The subjects were given the RAADS-R to complete in the presence of a clinician who introduced the instrument and offered clarifications when needed. The clinician was blinded to diagnostic information</p>

AS = Aspergers syndrome; ASD = Autism spectrum disorder; DSM-IV-TR = Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth edition, text revision; IQ = Intelligence quotient; N = Number of patients; RAADS-R = Ritvo autism Asperger diagnostic scale revised; Se = Sensitivity; Sp = Specificity



**Table 3.1.17 SCQ.**

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Allen et al 2007 [17] Australia	To estimate the Se, Sp and positive and negative likelihood ratios of the SCQ in correctly identifying ASD from non-ASD amongst preschoolers referred for developmental problems	<p><u>Study design</u> Cohort study</p> <p><u>Population characteristics</u> N=81 Parents of all children referred for assessment over a period of 9 months. 81 questionnaires were completed. Clinical ASD diagnosis: 28 children</p> <p>Intellectually disabled: 33.6% Age range: 2–6 years Gender: 81% male</p> <p><u>Setting</u> Tertiary referral centre</p> <p><u>Disease prevalence</u> 35%</p> <p><u>Drop-out</u> 19 out of 100 did not return the SCQ</p>	SCQ	A multidisciplinary team conducted an clinical assessment including DSM-IV criteria for autistic disorder and the CARS	<p><u>ASD diagnosis, cut-off 11</u> Se: 0.93 Sp: 0.5 LR+: 2.24 (1.60–3.13) LR–: 0.12 (0.03–0.47)</p> <p><u>Cut-off 15</u> Se: 0.60 Sp: 0.70 LR+: 2.01 (1.21–3.34) LR–: 0.56 (0.34–0.92)</p> <p>A SCQ score of 11 provided best Se but at the cost of a low Sp. With a cut-off of 15 the Se is poor without improvement in Sp</p>	Moderate	<p>Sample size was sufficient to ensure statistical precision for estimates of test performance for all age groups</p> <p>Limitations: The ADI-R was used in the clinical work-up by the experts making the final clinical diagnosis</p> <p>The SRS were completed by the parents prior to clinical assessment</p> <p>The investigator scoring the SCQ was blinded to the outcome of clinical assessment</p>

*The table continues on the next page*

Table 3.1.17 continued

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Corsello et al 2007 [18] USA/ United Kingdom	To investigate how well the SCQ functions as a clinical screening instrument in a young sample of children with ASD or non-ASD disorders  To compare SCQ with the ADI-R regarding its discriminating validity both alone and in combination with the ADOS	<u>Study design</u> Cross-sectional  <u>Population characteristics</u> N=590 Children with possible ASDs consecutively referred Autism: n=282 PDD-NOS: n=157 Non-PDDs: n=151 IQ: significantly lower verbal and non-verbal IQ scores in the Autism group than the PDD-NOS and non-ASD groups, and significantly lower verbal and non-verbal IQ scores in the non-ASD group than in the PDD-NOS group. Age range: 2–16 years Gender: 78% male  <u>Setting</u> 2 tertiary university clinics  <u>Disease prevalence</u> ASD: 75% Autism: 48%  <u>Drop-out</u> 43 participants were excluded because of missing SCQ items	SCQ	Diagnoses were made by examiners who had access to all assessments results. The examiners were blind to SCQ scores but aware of ADI-R and ADOS scores and classifications  Parents completed the SCQ prior to the ADI-R interview	<u>SCQ cut-off &gt;15</u> ASD vs non-ASD Se: 0.71 Sp: 0.71  <u>Autism vs non-autism</u> Se: 0.78 Sp: 0.57  <u>SCQ cut-off &gt;22</u> <u>Autism vs Non-ASD</u> Se: 0.45 Sp: 0.84  When the cut-off $\geq 15$ was used the SCQ resulted in lower Se than the ADI-R which is not ideal for a screening measure  The SCQ was most effective in the 8–10 and >11 years age groups  Younger children scored lower than older children with ASDs on the SCQ, with the SCQ ( $\geq 15$ ) missing a large number of younger children with ASDs	Moderate	Participants in the autism group were significantly younger than in the PDD-NOS group  Significant difference across groups with more males than females in the Autism and PDD-NOS groups than the non-ASD  Sample may not be representative of children referred to general psychiatric or developmental clinics  The sample size for children <5 was insufficient for more detailed study of age effects during the preschool period  The ADI-R was used in the clinical work-up by the experts making the final clinical diagnosis

The table continues on the next page

Table 3.1.17 continued

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Eaves et al 2006 [19] Canada	To examine the validity of the SCQ in two young clinical samples	<p><u>Study design</u> Cross-sectional study</p> <p><u>Population characteristics</u> N=151</p> <p>IQ 33.6% were intellectually disabled</p> <p>Age range: 3–7 years Children under the age of 3 years were excluded Gender: 79% male</p> <p><u>Setting</u> Tertiary autism clinic (university clinic) or preschool clinics</p> <p><u>Disease prevalence</u> ASD 32%</p> <p><u>Drop-out</u> None reported</p>	SCQ	<p>Autism diagnoses relied on the use of the CARS, the ADI-R and clinical judgement, and in some cases the ADOS</p> <p>Diagnoses were made an experienced team of expert clinicians</p> <p>The ADI-R was not used in arriving at the final diagnosis</p>	<p><u>ASD diagnosis, cut-off of 15:</u> Se: 0.71 Sp: 0.79</p> <p><u>Preschool clinics n=45</u> <u>ASD diagnosis:</u> Se: 0.71 Sp: 0.76</p> <p><u>Autism clinic n=106</u> <u>ASD diagnosis:</u> Se: 0.71 Sp: 0.52</p> <p><u>Overall</u> n=151 PPV: 65%</p> <p>The SCQ cut-off of 15 yielded a hit rate of 65% in sorting out ASD from non-ASD. 28% of the children with ASD were missed and 38% of the non-ASD were misidentified as having ASD</p> <p>Higher functioning children with ASD are less likely to be identified by the SCQ</p> <p>If the cut-off score is reduced to 11, Se increases but Sp declines unacceptably</p>	Moderate	Limitations: the ADI-R was used in the clinical work-up by the experts making the final clinical diagnosis

ASD = Autism spectrum disorder; ADI-R = Autism diagnostic interview-revised; ADOS = Autism diagnostic observation schedule; CARS = Childhood autism rating scale; DSM-IV = Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth version; IQ = Intelligence

quotient; LR+ = Positive likelihood ratio; LR- = Negative likelihood ratio; N = Number of patients; PDD = Pervasive developmental disorders-not otherwise specified; PPV = Positive predictive value; SCQ = Social communication questionnaire; Se = Sensitivity; Sp = Specificity

**Table 3.1.18 SRS.**

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Bölte et al 2008 [20] Germany	To examine the cross-cultural validity of the parent SRS	<p><u>Study design</u> Prospective study, selected patients and controls</p> <p><u>Population characteristics</u> N=1 436 children n=838 normative and n=527 clinical children of which 160 had an ASD and 367 other psychiatric diagnoses</p> <p>Age range: Clinical sample 10.3 years (SD=3.8) Normative sample 9.9 years (SD=3.4) Gender: Clinical sample 72% male Normative sample 53% male</p> <p><u>Setting</u> Tertiary clinic (university clinic)</p> <p><u>Disease prevalence</u> ASD 12%</p> <p><u>Drop-out</u> None reported</p>	<p>SRS</p> <p>Raw scores can be transformed into T-scores in order to provide relative normative data</p>	Consensus diagnoses according to ICD-10 research criteria by at least two expert clinicians	<p><u>AST diagnosis:</u> T-score of 85 Se: 0.73 Sp: 0.81</p> <p>T-score of 56 Se: 0.90 Sp: 0.50</p>	Moderate	<p>Limitations: Small sample. Low proportion of females. Discrepancies in age between various diagnostic groups</p>

*The table continues on the next page*

Table 3.1.18 continued

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Disease prevalence Drop-out	Index test	Reference test	Main findings	Study quality	Comments
Constantino et al 2007 [21] USA	This study examined the application of the SRS in the classroom setting	<p><u>Study design</u> Prospective study, patients chosen at random from clinical listings. Parents were mailed two SRS forms per child to be completed by the parent(s) and by one of the child's teachers</p> <p><u>Population characteristics</u> Parents and teachers of 577 children from 323 families currently enrolled in another study</p> <p>Data analysis comprised PDD n=271, Unaffected siblings n=119, Non-PDD controls n=52 Age range: 10.1–11.9 years Gender: Unknown</p> <p>IQ data were available for 126 of the subjects</p> <p><u>Setting</u> Tertiary clinic (university clinic)</p> <p><u>Prevalence</u> ASD 48%</p> <p><u>Drop-outs</u> 18% of the families</p>	SRS	ADI-R, and in, a majority of cases, the ADOS, or expert clinician diagnosis	<p><u>PDD-diagnosis:</u> A SRS T-score of &gt;60 by both parent and teacher report: Se: 0.75 Sp: 0.96</p> <p>Likelihood of a clinically classified PDD diagnosis is 96.8% and false positive rate 3.2%</p> <p><u>The SRS T-score of 60 exclusively by parent report:</u> Se: No data Sp: 0.84</p> <p><u>Exclusively teacher report:</u> Se: No data Sp: 0.90</p> <p>Inter-rater agreement between parents and teachers r=0.72</p>	Moderate	<p>Limitations: Small sample. Low proportion of females. Discrepancies in age between various diagnostic groups</p> <p>The SRS were completed by the mother, father, and a teacher 2–6 weeks after an ADI-R interview with the mother. Research assistants were blind to clinical DSM-IV criteria diagnosis</p>

ASD = Autism spectrum disorder; ADI-R = Autism diagnostic interview-revised; ADOS = Autism diagnostic observation schedule; DSM-IV = Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth version; ICD-10 = International Classification of Diseases and Related Health Problems, version 10; IQ = Intelligence quotient; N = Number of patients; PDD = Pervasive developmental disorders; SD = Standard deviation; Se = Sensitivity; Sp = Specificity; SRS = Social responsiveness scale;

## Referenser

1. Barn- och ungdomspsykiatrins metoder, En nationell inventering. Socialstyrelsen; 2009.
2. LeCouteur A, Rutter M, Lord C, Rios P. Autism diagnostic interview: A standardized investigator-based instrument. *J Autism Dev Disord* 1989;19:363-87.
3. Lord C, Rutter M, Le Couteur A. Autism Diagnostic Interview-Revised: a revised version of a diagnostic interview for caregivers of individuals with possible pervasive developmental disorders. *J Autism Dev Disord* 1994;24:659-85.
4. Constantino JN, Davis SA, Todd RD, Schindler MK, Gross MM, Brophy SL, et al. Validation of a brief quantitative measure of autistic traits: comparison of the social responsiveness scale with the autism diagnostic interview-revised. *J Autism Dev Disord* 2003;33:427-33.
5. Ritvo RA, Ritvo ER, Guthrie D, Ritvo MJ, Hufnagel DH, McMahon W, et al. The Ritvo Autism Asperger Diagnostic Scale-Revised (RAADS-R): a scale to assist the diagnosis of autism spectrum disorder in adults: an international validation study. *J Autism Dev Disord* 2011;41:1076-89.
6. Ehlers S, Gillberg C, Wing L. A screening questionnaire for Asperger syndrome and other high-functioning autism spectrum disorders in school age children. *J Autism Dev Disord* 1999;29:129-41.
7. Nordin V, Gillberg C, Nyden A. The Swedish version of the Childhood Autism Rating Scale in a clinical setting. *J Autism Dev Disord* 1998;28:69-75.
8. Rutter M, Le Couteur A, Lord C. ADI-R Autism Diagnostic Interview-Revised Los Angeles: Western Psychological Services; 2003.
9. Lord C, Risi S, Lambrecht L, Cook EH, Jr., Leventhal BL, DiLavore PC, et al. The autism diagnostic observation schedule-generic: a standard measure of social and communication deficits associated with the spectrum of autism. *J Autism Dev Disord* 2000;30:205-23.
10. Scott FJ, Baron-Cohen S, Bolton P, Brayne C. The CAST (Childhood Asperger Syndrome Test): preliminary development of a UK screen for mainstream primary-school-age children. *Autism* 2002;6:9-31.
11. Goodman R, Ford T, Richards H, Gatward R, Meltzer H. The Development and Well-Being Assessment: description and initial validation of an integrated assessment of child and adolescent psychopathology. *J Child Psychol Psychiatry* 2000;41:645-55.
12. Nylander L, Gillberg C. Screening for autism spectrum disorders in adult psychiatric out-patients: a preliminary report. *Acta Psychiatr Scand* 2001;103:428-34.
13. Gillberg C, Rastam M, Wentz E. The Asperger Syndrome (and high-functioning autism) Diagnostic Interview (ASDI): a preliminary study of a new structured clinical interview. *Autism* 2001;5:57-66.
14. Wing L, Leekam SR, Libby SJ, Gould J, Larcombe M. The Diagnostic Interview for Social and Communication Disorders: background, inter-rater reliability and clinical use. *J Child Psychol Psychiatry* 2002;43:307-25.
15. Ambrosini PJ. Historical development and present status of the schedule for affective disorders and schizophrenia for school-age children (K-SADS). *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 2000;39:49-58.
16. Luyster R, Gotham K, Guthrie W, Coffing M, Petrak R, Pierce K, et al. The Autism Diagnostic Observation Schedule-toddler module: a new module of a standardized diagnostic measure for autism spectrum disorders. *J Autism Dev Disord* 2009;39:1305-20.
17. Allen CW, Silove N, Williams K, Hutchins P. Validity of the social communication questionnaire in assessing risk of autism in preschool children with developmental problems. *J Autism Dev Disord* 2007;37:1272-8.
18. Corsello C, Hus V, Pickles A, Risi S, Cook EH, Jr., Leventhal BL, Lord C. Between a ROC and a hard place: decision making and making decisions about using the SCQ. *J Child Psychol Psychiatry* 2007;48:932-40.
19. Eaves LC, Wingert HD, Ho HH, Mickelson EC. Screening for autism spectrum disorders with the social communication questionnaire. *J Dev Behav Pediatr* 2006;27:S95-S103.
20. Bolte S, Poustka F, Constantino JN. Assessing autistic traits: cross-cultural validation of the social responsiveness scale (SRS). *Autism Res* 2008;1:354-63.
21. Constantino JN, Lavesser PD, Zhang Y, Abbacchi AM, Gray T, Todd RD. Rapid quantitative assessment of autistic social impairment by classroom teachers. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 2007;46:1668-76.
22. de Bildt A, Sytema S, Ketelaars C, Kraijer D, Mulder E, Volkmar F, Minderaa R. Interrelationship between Autism Diagnostic Observation Schedule-Generic (ADOS-G), Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R), and the Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders (DSM-IV-TR) classification in children and adolescents with mental retardation. *J Autism Dev Disord* 2004;34:129-37.
23. Gray KM, Tonge BJ, Sweeney DJ. Using the Autism Diagnostic Interview-Revised and the Autism Diagnostic Observation Schedule with young children with developmental delay: evaluating diagnostic validity. *J Autism Dev Disord* 2008;38:657-67.
24. Papanikolaou K, Paliokosta E, Houliaras G, Vgenopoulou S, Giouroukou E, Pehlivanidis A, et al. Using the Autism Diagnostic Interview-Revised and the Autism Diagnostic Observation Schedule-Generic for the diagnosis of autism spectrum disorders in a Greek sample with a wide range of intellectual abilities. *J Autism Dev Disord* 2009;39:414-20.
25. Chlebowski C, Green JA, Barton ML, Fein D. Using the Childhood Autism Rating Scale to Diagnose Autism Spectrum Disorders. *J Autism Dev Disord* 2010;40:787-99.

26. Aldridge F, Gibbs V, Schmidhofer K, Williams M. Investigating the Clinical Usefulness of the Social Responsiveness Scale (SRS) in a Tertiary Level, Autism Spectrum Disorder Specific Assessment Clinic. *J Autism Dev Disord* 2012;42: 294-300.

27. Maljaars J, Noens I, Scholte E, Van Berckelaer-Onnes I. Evaluation of the criterion and convergent validity of the Diagnostic Interview for Social and Communication Disorders in young and low-functioning children. *Autism* 2011;16(5):487-97.

## 3.2 Insatser vid AST

### Slutsats

- ❑ **Många olika insatser och behandlingar, förutom läkemedel, används idag, men kunskapen om deras nytta, risker och kostnader måste förbättras.** Vi har identifierat 25 olika insatser och behandlingsmetoder som används vid autismspektrumtillstånd. Det vetenskapliga underlaget för att bedöma effekterna av dessa är otillräckligt. Träning som innefattar kombination av flera metoder är en vanlig form av insats i Sverige, men effekten har inte studerats.

### Inledning

Teorier om orsaken till AST har alltid haft avgörande betydelse för de insatser som erbjudits. Idag råder konsensus om den neurobiologiska orsaken till AST men det finns ändå ideologiska skillnader i hur man ser på insatser från habilitering och sjukvård. Vissa ser det som absolut viktigast att acceptera människor med AST som de är. De ska ha rätt till sitt sätt att tänka och förstå omvärlden och insatser innebär då att öka kunskapen om AST samt anpassa miljön och därigenom skapa möjligheter för dem som har AST att vara delaktiga i samhällslivet. Andra ser på AST som en funktionsnedsättning som bör och kan påverkas genom intensiv träning med målsättningen att skapa så god funktion som möjligt. Gruppen med AST är inte heller homogen. För personer med AST som har normal eller hög begåvning och en positiv självbild är det inte alltid nödvändigt att diskutera behandling. För den grupp som har omfattande nedsättningar i olika förmågor kan det vara angeläget att försöka påverka symtombilden. AST innefattar således stor spridning från god till mycket nedsatt funktion. Samsjuklighet med andra psykiatriska tillstånd som Attention Deficit Hyperactivity Disorder (ADHD), tvångssyndrom, Tourettes syndrom, och kognitiva funktionsnedsättningar såsom utvecklingsstörning är vanligt. Andra typer av samsjuklighet kan vara depressionstillstånd, ångestproblematik och personlighetsstörning.

För att effekterna av en insats vid ett visst tillstånd ska kunna bedömas bör det finnas kunskap om naturförloppet vid detta tillstånd. Det är

beskrivet sedan länge att AST i kombination med svår utvecklingsstörning ger bestående svår funktionsnedsättning, men kunskapen har inte varit lika stor om de mindre tydliga formerna av AST och inte heller om förloppet vid tidig diagnos. Enligt ett flertal studier kommer en diagnos inom AST som är ställd vid 2 års ålder att bli bestående i en majoritet av alla fall [1]. Förändrad utveckling hos barnen kan leda till ändring av diagnos inom AST och även till övergångar mellan närliggande former av utvecklingsproblem (som språkstörning) och AST. Däremot är det ovanligt att barn efter 2 års ålder byter från diagnosgruppen svår AST/autistiskt syndrom till helt normal utveckling eller omvänt. I en prospektiv studie hade exempelvis alla 89 barn, som fick preliminär diagnos inom autismspektrum vid 13–27 månaders ålder, också kvar diagnosen vid uppföljning, då de var i medeltal 47 månader gamla. För några barn märktes mer påtagliga svårigheter, men hos en större grupp noterades positiv förändring till mindre uttalad AST-bild [2].

En god kognitiv utveckling samt frånvaro av språkstörning vid 6–8 års ålder är förknippat med god prognos för t ex adaptiv förmåga (vardagsfärdigheter och anpassning i samhället) i högre ålder. Däremot verkar skillnader i språkutvecklingen vid låg ålder inte ha samma betydelse för prognosen [3].

Syftet med den här systematiska översikten är att utvärdera de insatser och behandlingsmetoder som används i Sverige för barn, ungdomar och vuxna med AST. Vi har utgått från de behandlingsmetoder som framkom i den nationella inventeringen ”Barn- och ungdomspsykiatrins metoder” [4]. Flera behandlingsmetoder har lagts till i samråd med experter inom fältet. Vi har även tagit med vissa metoder som inte används idag men där det kan vara av intresse att bedöma aktuell forskning (TMS, DBS, VNS) (Tabell 3.2.1). Alla sökningar i databaser har inkluderat insatser för barn, ungdomar och vuxna. Vissa metoder som kom fram i inventeringen, t ex krisbehandling, miljöterapi, familjestöd, föräldrastöd, stödsamtal, nätverksbehandling, lekterapi, theraplay samspelets metod och the Marschak Interaction Method (MIM), utvärderas inte här eftersom de inte är specifikt inriktade på insatser vid AST.

**Tabell 3.2.1** Utvärderade metoder.

Behandlingsmetod	Framkom i inventeringen ”Barn- och ungdomspsykiatrins metoder” [4]
Tidig intensiv beteendeterapeutiskt inriktad träning (Early Intensive Behavioral Intervention (EIBI), Applied Behavioral Intervention (ABI), Applied Behaviour Analysis (ABA), Contemporary ABA, Behavioural theory interventions, Lovaas’ therapy)	
Kognitiv beteendeterapi (KBT), beteendeterapi (BT)	X
Treatment and education of autistic and related communication handicapped children (TEACCH)	
Specialpedagogik, tydliggörande pedagogik (structured teaching)	X
Picture exchange communication system (PECS)	
Social Skills Training	X
Sociala berättelser (social stories)	X
Seriesamtal	
Datorbaserad träning	
KAT-kit	X
Autism preschool program	
Early bird program	
Floortime	
Son-Rise	
Kognitiv psykoterapi (KPT)	X
Psykodynamisk psykoterapi	X
Sensory motor interventions	
Musikterapi	
Kostråd/Dietbehandling (diet therapy)	
Probiotika (probiotics)	
Fettsyratillskott, omega-3 (fish oil)	

Tabellen fortsätter på nästa sida



**Tabell 3.2.1** fortsättning

Behandlingsmetod	Framkom i interventionen ”Barn- och ungdomspsykiatris metoder” [4]
Vitamin B, Magnesium	
Vitamin D	
Transkraniell magnetstimulering (TMS)	
Deep brain stimulation (DBS), vagus nerve stimulation (VNS)	

Kapitel 3.2 är uppdelat i följande avsnitt:

- 3.2.1 Tidig intervention
- 3.2.2 Anpassning av miljö och pedagogiska insatser  
Treatment and education of Autistic and Communication  
handicapped Children (TEACCH)  
Picture Exchange Communication System (PECS)  
Social skills training/träning av social förmåga  
Datorstödd träning
- 3.2.3 Psykologiska och psykoterapeutiska insatser  
Kognitiv beteendeterapi  
Övrigt
- 3.2.4 Intervention inriktade på kost
- 3.2.5 Övriga interventioner.

Personer med AST kan, oavsett ålder, ha behov av att miljön anpassas och av pedagogiska insatser inriktade på kommunikation och sociala färdigheter. Ofta används en kombination av insatser som förutsätter god kunskap om funktionsnedsättningen och som även förutsätter en kartläggning av svårigheter och starka sidor hos individen. Vi kommer att belysa TEACCH, sociala berättelser, PECS och varianter av social träning. Även mer ovanliga behandlingsalternativ såsom KAT-kit, Autism preschool program och Early bird program (Avsnitt 3.2.2).

Vi har gått igenom forskningen av de vanligaste formerna av så kallad alternativ behandling (Avsnitt 3.2.4 och 3.2.5). Många personer med autistiskt syndrom får behandling som bygger på en bestämd uppfattning eller hypotes om den neurobiologiska bakgrunden till autistiskt syndrom med målsättningen att försöka ”rätta till” kroppsliga processer. Ett exempel är dietbehandling. Vi kommer inte att beröra insatser vid AST som inriktas på att upptäcka och behandla andra funktionshinder eller samtidigt sjukdomar.

## Inklusionskriterier

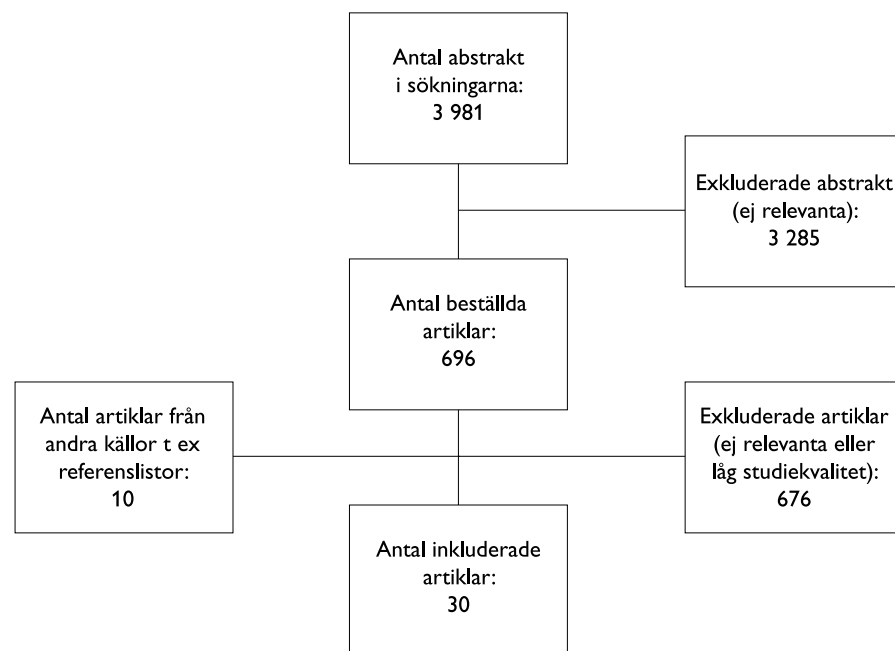
Vi inkluderade systematiska översikter och primärstudier på engelska, svenska, norska eller danska. Studierna ska i första hand vara randomiserade och dubbelblindade och i andra hand vara observations- eller kohortstudier med matchad kontrollgrupp.

<b>Population</b>	Barn, ungdomar och vuxna med AST, där diagnos är ställd enligt DSM-IV, ICD-10 eller ADI-R och ADOS tillsammans.
<b>Intervention</b>	Behandlingsmetoder för AST som används i Sverige (Tabell 3.2.1).
<b>Kontroll</b>	Annan behandling eller ingen behandling.
<b>Utfall</b>	Förändring av kärnsymtom <sup>1</sup> och associerade problem enligt skattningsskalor och/eller psykometriska instrument.

<sup>1</sup> Kärnsymtom är de symtom som är utmärkande för en sjukdom eller ett tillstånd. För AST är kärnsymtomen brister i social interaktion och kommunikation samt stereotypa beteenden.

## Resultat av litteratursökningen

Sökningarna som redovisas i Bilaga 1 på SBU:s webbplats ([www.sbu.se/215](http://www.sbu.se/215)) genererade 3 981 abstrakt. Flödesschemat i Figur 3.2.1 visar det totala antalet abstrakt och artiklar som beställdes i fulltext samt antalet artiklar som inkluderas i denna granskning.



**Figur 3.2.1** Flödesschema för litteratursökning och granskningsprocess.

## 3.2.1 Tidig intervention

### Bakgrund

Idag finns en ökad kunskap om hur AST-diagnosen kan ställas tidigt och därför är det angeläget att ha god kunskap när det gäller tidiga insatser till yngre barn. Alla studerade metoder för tidig intervention är insatser riktade till barn i åldersgruppen 1,5–7 år. Metoderna har en gemensam grund i inlärningsteori och i kunskap om barns utveckling, men det finns stora skillnader i hur olika moment betonas. Viss träning är specifikt inriktad på de första basala stegen i barnets utveckling av kommunikation, samspel och lek (A). Vid beteendeterapeutiskt inriktad träning ingår moment som syftar till att lära barnet att rikta uppmärksamhet och samarbeta, men träningen omfattar också andra utvecklingssteg (B).

För metoder som klassificeras under punkterna A och B finns en samlad strategi och behandlingsmanual. Detta skiljer sig från det som i forskningssammanhang kallas eklektisk behandling, där ofta flera olika typer av behandling erbjuds utan gemensam ideologisk bakgrund. Denna typ av insats, som är en kombination av vad olika professioner kan erbjuda, får ofta fungera som jämförelseintervention i studier. I Sverige får barn med AST oftast någon form av eklektisk behandling.

### Evidensgraderade resultat

#### Effekt

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (sex randomiserade kontrollerade studier med brister i studiekvalitet och överensstämmelse) för att bedöma effekten av tidig intensiv träning inriktad på socialt samspel och kommunikation hos barn med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en randomiserad kontrollerad studie och nio kohortstudier med brister i studiekvalitet och överensstämmelse) för att bedöma effekten av tidig intensiv träning med beteendeterapeutiskt inriktad metodik hos barn med AST (⊕○○○).

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma effekten av Floortime hos barn med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma effekten av Son-Rise hos barn med AST (⊕○○○).

### Biverkningar och önskade effekter

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) avseende biverkningar vid tidig intensiv träning inriktad på socialt samspel och kommunikation och tidig intensiv träning med beteendeterapeutiskt inriktad metodik (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) avseende biverkningar vid Floortime och Son-Rise hos barn med AST (⊕○○○).

## Sammanfattande resultattabeller

**Tabell 3.2.2** Sammanfattande resultattabell. Effekt av tidig intensiv träning inriktad på socialt samspel och kommunikation hos barn (2–5 år) med AST.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
AST-symtom (förändring mätt med ADOS-G*)	103 (2 RCT)	Går inte att bedöma	⊕○○○	Studiekvalitet (-1) Samstämmighet (-2) [5,6]

\* I Aldred [5] har man använt totalpoäng för ADOS-G, i Green [6] har man använt en totalpoäng för sociala och kommunikationsfärdigheter. Resultaten går därför inte att läggas samman.

ADOS-G = Autism diagnostic observation schedule-generic; RCT = Randomiserad kontrollerad undersökning

**Tabell 3.2.3** Sammanfattande resultattabell. Effekt av tidig intensiv träning med beteendeterapeutiskt inriktad metodik hos barn (1,5–4,5 år) med AST. Uppföljningstid >1 år.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Adaptiv funktion (förändring mätt med VABS composite score)	191 (4 kohortstudier)	–	⊕○○○	Studiekvalitet (-1) Samstämmighet (-2) [7–10]

VABS = Vineland adaptive behaviour scale

**Tabell 3.2.4** Sammanfattande resultattabell. Effekt av tidig intensiv träning med beteendeterapeutiskt inriktad metodik hos barn 4–7 år med AST. Uppföljningstid >1 år.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Adaptiv funktion (förändring mätt med VABS composite score)	25 (1 kohortstudie)	–	⊕○○○	En studie [11]

VABS = Vineland adaptive behaviour scale

## Frågor

1. Ger tidig intensiv träning symtomlindring med avseende på kärnsymtom eller associerade problem hos barn med AST?
2. Finns kunskap om negativa effekter av tidig intensiv träning?

Frågorna besvaras för varje delområde A och B.

## Inklusionskriterier

Inklusionskriterierna finns angivna tidigare i Kapitlet 3.2. När det gäller effektmått har vi inkluderat studier som angett totalpoäng för Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS) eller motsvarande (för att mäta AST-symtom) och Vineland Adaptive Behaviour Scale (VABS, som mäter adaptiv förmåga).

## Resultat av litteratursökningen och urval av studier

Se flödesschema (Figur 3.2.1). Vi har inkluderat sex studier om insatser inriktade på socialt samspel och kommunikation (A) och tio studier om beteendeterapeutiskt inriktad träning (B).

## Beskrivning av studier och resultat

**A. Insatser som är inriktade specifikt på de basala byggstenarna för socialt samspel och kommunikation, som förmågan att dela intresse, att imitera och leka (Tabell 3.2.5).**

Sex studier uppfyllde kriterierna för medelhög kvalitet [5,6,12–15]. Två studier kom från samma forskargrupp men rörde inte samma barngrupp [12,13]. Alla studier hade preciserad metodik men med variationer. Alla studier genomfördes som randomiserade kontrollerade studier (i ett fall bara partiellt genomfört [15]) och en studie hade enbart väntelista som kontroll [13] (Tabell 3.2.5).

*1. Ger tidig intensiv träning som är inriktad på socialt samspel och kommunikation symtomlindring med avseende på kärnsymtom och associerade problem hos barn med AST?*

Aldred och medarbetare beskrev att utbildning till föräldrar i att stimulera barnets tidiga kommunikation gav tydlig skillnad i kommunikativ förmåga efter ett år jämfört med kontrollgruppen som enbart fick sedvanlig språkträning [5]. Observation med ADOS-G visade på en statistiskt signifikant förbättring i behandlingsgruppen. Totalpoäng för VABS uppgavs inte. I vardera gruppen fanns 14 deltagare och uppföljningstiden var 1 år [5].

Green och medarbetare jämförde en grupp barn vars föräldrar fått träning och handledning i att stimulera barnen till kommunikation och social interaktion, med en grupp barn som fick sedvanliga för-

skoleinsatser [6]. Man såg större framsteg i gruppen som fått den specifika träningen enligt skattningsskalor ifyllda av föräldrarna, men däremot inte någon signifikant skillnad vid observationer. Det är oklart om denna diskrepans berodde på att föräldrar hade överbetonat de positiva effekterna av behandlingen vid sin skattning, eller om framstegen blev underskattade vid observationer genom att det observationsschema som användes inte var känsligt nog (ADOS är utarbetat för diagnostik, inte för att följa utveckling). I studiens båda grupper var 77 respektive 75 familjer engagerade och uppföljningstiden var 13 månader.

Kasari och medarbetare visade att två studiegrupper som fick träning i att dela uppmärksamhet och intresse med andra, alternativt träning av symbol- eller fantasilek, gjorde framsteg enligt beteendeobservationer jämfört med den grupp som enbart fick sedvanliga insatser på förskola [12]. Grupperna bestod av 20, 21 respektive 17 barn och uppföljningstiden var åtta veckor.

I en annan studie av Kasari och medarbetare från år 2010 tränade föräldrarna barnens förmåga att dela uppmärksamhet och intresse samt förmågan att leka [13]. Effekten var positiv jämfört med utvecklingen hos de barn som var i vänteliste-grupp. I vardera gruppen ingick 19 barn. Uppföljning gjordes efter åtta veckor med träning samt efter ett år.

Landa och medarbetare jämförde i en studie från år 2011 utvecklingen hos en grupp barn i en förskoleverksamhet som var inriktad på allsidigt stöd av utvecklingen, med en annan grupp barn i förskoleverksamheten som dessutom fick specifik träning på att bl a dela uppmärksamhet och imitera [14]. Utvecklingen var positiv i båda grupperna. Den enda skillnaden var att gruppen som fått den specifika träningen visade signifikant mer av imitation kombinerad med ögonkontakt. Tjugofyra barn ingick i vardera grupp och uppföljningstiden var sex månader.

Oosterling och medarbetare genomförde en delvis randomiserad kontrollerad studie (men av praktiska skäl begränsades genomförandet av randomiseringen) för att utvärdera effekten av föräldraträning utöver de vanliga insatserna som barnet gavs ("care as usual") [15]. Barnen i de båda grupperna gjorde stora framsteg men man fann inga signifikanta

skillnader. En möjlig orsak till detta var att de vanliga insatserna hade hög standard. Författarna ansåg det dock inte vara etiskt försvarbart att göra motsvarande studie med en grupp barn som lämnades utan intervention. Grupperna bestod av 36 respektive 31 barn och uppföljningstiden var 15 månader.

## 2. Finns kunskap om negativa effekter av tidig intensiv träning?

Inga studier som uppfyllde inklusionskriterierna kunde identifieras avseende negativa effekter av tidig intervention.

### Faktaruta 3.2.1 Tidig intensiv beteendeterapeutiskt inriktad träning.

#### **Tidig intensiv beteendeterapeutiskt inriktad träning (Early Intensive Behavioral Intervention, EIBI)**

Beteendeterapeutiska behandlingsinterventioner för barn med AST utvecklades av Ivar Lovaas (Lövås) under 1970- och 1980-talet. Lovaas och medarbetare publicerade år 1987 en studie med 19 barn som fått EIBI under mer än 40 timmar/vecka [16]. Vid uppföljning efter 3–4 år hade nio barn normalt resultat vid begåvningsstest och skolgång i normalklass, medan bara ett barn i en kontrollgrupp på 40 barn som fått mindre intensiv träning, hade gjort samma goda framsteg. McEachin och medarbetare fann att det resultatet kvarstod vid uppföljning då barnen var äldre [17]. Siffran 9/19 (47 %) har lyfts fram i många sammanhang. Kritik har riktats mot Lovaas studie för att ursprungsgrupperna inte var helt jämförbara. Urvalet skedde utifrån tillgänglighet av terapeut och resultat beskrevs enbart som IK-nivåer mätt med varierande instrument. Denna första rapport från Lovaas grupp har blivit tongivande för senare forskning. Gruppen på University of California Los Angeles (UCLA) har utvecklat samarbete med andra institutioner i UCLA Multi-Site Young Autism Project. En del rapporter har haft för avsikt att upprepa Lovaas studie, andra har försökt överföra den ursprungliga metodiken från universitetsmiljö till samhället utanför och ytterligare andra har jämfört effekten vid olika intensitet på träningen.

*Faktarutan fortsätter på nästa sida*

### Faktaruta 3.2.1 fortsättning

Allmänna principer:

1. Tidig start (före 3,5 års ålder enligt Lovaas 1987 [16]).
2. Individualiserad träning som bygger på beteendeanalys (Applied Behaviour Analysis) och beteendeterapeutisk metodik, med de engelska termerna bl a shaping, prompting och fading. Belöningar är viktigt. I den ursprungliga modellen fanns också moment av bestraffning (utrop, "dask" mot låret eller liknande), men detta finns inte med vid senare användning.
3. Försök att påverka många beteenden.
4. Träningen är intensiv och bör enligt Lovaas ursprungliga metodbeskrivning innefatta 40 timmar specifikt inriktad träning/vecka, med lägre antal timmar i andra studier. Tankegången bakom den intensiva träningen är att barn normalt sett lär in nya färdigheter alla vakna timmar på dygnet. Vid starten används enbart en-till-en-undervisning med terapeut (discrete trial training). När man ser utveckling hos barnet sker successivt en övergång till gruppaktiviteter och träning i samband med vardagssituationer med naturlig kommunikation.
5. Täta kontroller och anpassning av träningen med ledning av den effekt man ser, handledning från kvalificerad personal.
6. Träningen blir mer effektiv när föräldrar medverkar.

En ofta använd och sammanfattande term för metodiken är Applied Behaviour Analysis (ABA). Andra beteckningar är Applied Behavioral Intervention (ABI), Intensive Behavioral Therapy, på svenska Intensiv Beteendeterapi (IBT) och Lovaas-metodik. För modifierad metodik har termen Contemporary ABA kommit till användning.

### **B. Beteendeterapeutiskt inriktad tidig intervention (Tabell 3.2.6)**

Flera rapporter finns där deltagarna i en kohort fått intensiv träning enligt IBT/EIBI och jämförelsegruppen fått en annan eller en mindre intensiv intervention. Nio studier bedöms ha medelhög kvalitet, varav en studie är en uppföljning (behandlar samma grupp [11,18]). I en randomiserad kontrollerad studie av Dawson och medarbetare från år 2010 får en grupp barn intensiva insatser med betydande inslag av IBT/EIBI [19] (Tabell 3.2.6).

#### *1. Ger tidig intensiv träning med beteendeterapeutiskt inriktad metodik symtomlindring med avseende på kärnsymtom hos barn med AST?*

Cohen och medarbetare jämförde träning med Lovaas metodik och social träning med specialklassundervisning [7]. Gruppen som fått intensiva insatser hade bättre funktion i många avseenden. Det var 21 barn i respektive grupp och uppföljning gjordes efter tre år.

Dawson och medarbetare beskrev en metod med beteendeterapi integrerad med annan träning för att stödja barnens utveckling (Early Start Denver Model, ESDM) [19]. Barnen fick träna 37 timmar i veckan under två år. Barnen som fick denna träning (n=24) gjorde större framsteg när det gäller kognitiv och adaptiv förmåga än den grupp som fick mindre intensiv, sedvanlig förskoleträning (n=24). I gruppen som inte fick intensiva insatser ökade avståndet till barnen med normal utveckling, dvs att utvecklingstakten var lägre än normalt.

Eikeseth och medarbetare visade i två studier gott resultat med EIBI under en tidsperiod på ett år [11,18]. I den senare studien gjordes en uppföljning efter cirka 2,5 år. Skillnaden mellan gruppen som fick EIBI och gruppen som fick eklektiska insatser hade då ökat. Det var 13 respektive 12 barn i grupperna.

Howard och medarbetare studerade utvecklingen i tre grupper som fick antingen IBT, eklektiska insatser med speciell inriktning på autistiskt syndrom och med hög intensitet, eller specialundervisning utan speciell inriktning [10]. I gruppen med IBT såg man signifikant större framsteg vad gäller kognitiv utveckling, språk och adaptiv förmåga. IBT-gruppen hade också högre inlärningstakt under de 14 månader studien pågick

jämfört med tidigare. Inlärningstakten var oförändrat låg i de övriga två grupperna. Författarna diskuterade kring eklektisk terapi, som här innefattade inslag av beteendeterapi, PECS, sensorisk integration och TEACCH-influerade insatser. Flera olika terapeutiska idéer kan innebära många vuxenkontakter för barnen, täta övergångar mellan aktiviteter och därigenom behov av att skifta uppmärksamhet. Eventuellt kan sådan eklektisk terapi ställa alltför stora krav på barnen med autistiskt syndrom och insatserna därigenom få bristande effektivitet. Enligt studien är det inte bara intensiteten, dvs den tiden barnet får träning, som är avgörande utan också innehållet av träningen. Grupperna bestod av 29, 16 respektive 16 barn och uppföljning gjordes efter 14 månader.

Magiati och medarbetare jämförde hembaserad beteendeterapi med förskolevistelse med eklektisk träning [8]. Det var en marginell skillnad mellan grupperna efter två års behandling och för båda grupperna framkom få framsteg i förhållande till åldern. I grupperna ingick 28 respektive 16 barn. Uppföljning gjordes efter 23–27 månader.

Peters-Scheffer och medarbetare visade att tillägg av några få timmar per vecka med en-till-en-träning på förskolor för barn med autistiskt syndrom och/eller utvecklingsstörning hade tydlig positiv effekt vad gäller utvecklingsnivå och adaptiv förmåga [20]. Tolv respektive 22 barn deltog och uppföljning gjordes efter åtta månaders träning.

Remington och medarbetare jämförde EIBI med eklektisk förskoleträning [9]. Efter två år rapporterades signifikant större framsteg för gruppen som fått EIBI men med starkt varierande resultat för de enskilda barnen. Den positiva förändring av IK (intelligenskvot) som i förväg bedömdes vara tillförlitlig, fanns hos sex av 23 barn i gruppen med EIBI, och hos tre av 21 barn i den eklektiska gruppen där också tre barn hade förlorat påtagligt i IK-nivå. Författarna såg inte något förhållande mellan insats i tid och utfall (eventuellt för att vissa barn som gör framsteg får minskad tid för en-till-en-träning). Grupperna bestod av 23 respektive 21 barn och uppföljning gjordes efter två år.

Zachor och medarbetare visade att en barngrupp som fick beteendeterapi utvecklades mer avseende språk och kommunikation, jämfört

med en barngrupp som fick fortsätta med en pågående insats i förskolan [21]. Tjugo respektive 19 barn ingick och uppföljning gjordes efter ett års intervention.

I en annan studie av Zachor och medarbetare jämfördes barngrupper i förskolor med olika terapeutisk inriktning. Man fann ingen signifikant skillnad mellan de som fått Applied Behaviour Analysis (ABA)-inriktad träning och de som fått fortsatt förskoleinsats utan speciell inriktning [22]. I studien ingick 45 respektive 33 barn med en uppföljning efter ett års intervention.

## *2. Finns kunskap om negativa effekter av tidig intensiv träning?*

Inga studier som uppfyllde inklusionskriterierna kunde identifieras avseende negativa effekter av tidig intensiv träning.

### ***Former av tidig intervention där vetenskapligt underlag saknas***

Floortime eller DIR (Developmental Individual difference Relationship-based model) är en metod som är inriktad på att beakta och stimulera barnets motivation, utveckla relationer och träna lek [23]. Någon vetenskaplig utvärdering av metoden är inte publicerad.

Son-Rise Program som också kallas Option-metoden utvecklades i USA på 1970-talet. Metoden används företrädesvis av föräldrar för träning en-till-en, där barnets intention får vara styrande. Det finns inga studier rapporterade om effekten av behandlingen. I litteratursökningen fann vi endast en publicerad artikel, där forskarna beskrev en grupp föräldrar som använde metoden [24].

### ***Övrigt som inte ingår i de evidensbaserade resultaten***

#### *Primärstudier*

Det finns några studier om tidig intervention som är värda att nämnas men som inte uppfyller inklusionskriterierna. Här presenteras också de studier som framkom i den kompletterande litteratursökning som gjordes i mars år 2012. De är i detta sammanhang av intresse men påverkar inte evidensgraderade resultat och slutsatser.

I en retrospektiv multicenterstudie från USA och Kanada presenterades data för 1 433 barn med AST i åldern 6–17 år [25]. En stor majoritet (95,4 %) gjorde framsteg i social och kommunikativ förmåga. Efter kontroll för ålder och initiala symtom framkom ett positivt samband mellan graden av framsteg och om barnen fått träning (där det förekom olika former) och även intensiteten på denna träning. Sambandet mellan insats och framsteg var speciellt tydligt för barnen med god icke-verbal begåvning. I studien beskrivs att den äldsta barngruppen hade svårare funktionsnedsättning än den yngsta. Det kan tolkas som att också barn med lättare former av AST får en diagnos idag jämfört med tidigare.

Hayward och medarbetare fann framsteg för de barn som fått interventioner, antingen klinikbaserade eller organiserade av föräldrar [26]. Det fanns ingen skillnad mellan resultaten i de två grupperna. Det var 23 respektive 21 barn i grupperna och en uppföljning efter ett års träning.

Rickards och medarbetare visade att extra hembaserad, individualiserad träning gav förbättrad utveckling jämfört med sedvanlig klinikbaserad insats [27]. Arton respektive 21 barn hade autismspektrumdiagnos. I grupperna ingick också barn med andra funktionsnedsättningar. Det fanns ingen signifikant skillnad i utveckling mellan gruppen med autismspektrumtillstånd och övriga vid uppföljning efter 13 månader. Efter 26 månader gjordes en uppföljning av alla barn [28]. Effekten av interventionen kvarstod och någon tillbakagång i utvecklingsnivå hade inte noterats.

Sallows och medarbetare genomförde en studie med Lovaas-metodik utanför universitetsmiljö. De jämförde två former av interventioner, där skillnaden var antalet timmar med professionell handledning till barnens föräldrar [29]. Barnen i båda grupperna fick en-till-en-träning under mer än 30 timmar i veckan under två år. Man såg en signifikant positiv utveckling (IK, språk, adaptiv förmåga) men utan skillnad mellan de två grupperna. Fyra år efter behandlingsstart hade ungefär hälften av den totala gruppen (11 av 23 barn) fått markant ökad IK, medan resten av barnen inte fick någon signifikant förbättring. Sju till åtta barn hade, vad man kan beskriva som, optimalt resultat (inte längre diagnos inom autismspektrum). Begåvningsnivån mätt med icke-verbala tester före

start av behandling var det som mest tydligt särskilde den subgrupp som fick bäst resultat. De ursprungliga grupperna var små, 13 respektive 10 barn, med en uppföljning efter fyra år vid cirka sju års ålder.

Smith och medarbetare rapporterade om ”The Nova Scotia early intensive behavior intervention model” [30]. Programmet är utarbetat för att ge evidensbaserad intervention på så effektivt sätt som möjligt. Metoden innefattar en kombination av föräldraträning och ABA-baserad intervention i vardagliga situationer. Interventionen baseras på barnets egna intressen och försöker locka fram barnets egna initiativ (teknik kallad pivotal response treatment (PRT) [31]. Barnen gjorde framsteg, mer tydligt i gruppen med en IK >50, än bland de barn som hade en lägre IK. Träningen skilde sig bara lite mellan två studiegrupper på 25 respektive 28 barn. Resultatet var positivt i båda grupperna, dvs ingen jämförelse av detta program mot annat; intervention 1 år.

Wong och medarbetare använde en behandlingsmetod som kallas Autism 1-2-3 [32]. Barnen fick träning i 30 minuter per dag, fem dagar i veckan under två veckor i direkt anslutning till att diagnosen var ställd. Träningen var inriktad på ögonkontakt, gester och att göra ljud. Föräldrarna fick också lära sig använda samma metodik hemma. Gruppen som fått träning förbättrades t ex vid bedömning med ett observationsschema (ADOS) jämfört med den grupp som inte fick samma insats. Föräldrarna beskrev att det var positivt att de fick strategier som var användbara för dem i vardagen och att deras stress minskade i väntan på andra planerade insatser. I studien ingick nio respektive åtta barn och uppföljningstiden var sex veckor.

I en svensk studie, publicerad år 2011 av Fernell och medarbetare, beskrevs effekten av insatser under två år för en grupp barn med autismspektrumtillstånd [33]. Effektmåttet som studerades var utvecklingen av adaptiv förmåga (mätt med en föräldrantervju, Vineland Adaptive Behavior Scale). Efter två år fanns ingen skillnad i utvecklingen för gruppen (93 barn) som fått ta del av beteendeterapeutiskt inriktad träning enligt manual, jämfört med den andra gruppen (105 barn) som också fått habiliteringsinsatser där beteendeterapi funnits med men enbart varit riktad mot specifika svårigheter. I båda grupperna var det

större framsteg för de barn som hade högre begåvning än de som hade en samtidig utvecklingsstörning. Effekterna var blygsamma på adaptivt beteende. Gruppen hade efter två år som medelvärde samma standardpoäng – dvs inte större framsteg än vad ökad ålder i sig medför. För gruppen med den bästa utvecklingen (de med normal begåvning) ökade adaptiv förmåga i standardpoäng (med medelvärde 100) från 79,4 (SD 9) till 83,5 (SD 10). Studien kan inte avgöra om en viss form av insats har bättre eller sämre effekt än någon annan form. Alla föräldrar deltog i samma föräldrautbildning inklusive information om beteendeterapeutiska principer. I gruppen som fått den mest intensiva beteendeterapin varierade antalet timmar från 15 till över 30 timmar per vecka. Urvalet till behandlingsgrupp skedde enligt föräldrarnas önskemål samt vilka resurser som fanns på respektive barns förskola. Det finns ingen möjlighet att veta i vilken grad träningen skett enligt avsedd manual.

Eikeseth och medarbetare beskrev effekten av träning för en undergrupp av de barn [34] som ingick i uppföljningen publicerad av Fernell och medarbetare [33], barn som fått insatser vid ett specifikt träningscenter i Stockholm under perioden mars 2008–maj 2010. Begränsningar i studien är bl a att urvalet till behandling vid detta center inte varit slumpmässigt utan föräldrarnas intresse för IBT har haft betydelse. En annan begränsning är att jämförelsegruppen var barn som fick sedvanliga habiliteringsinsatser – dock inte i samma område utan i Norge och under något vidare tidsperiod. Trettiofem barn fick IBT över 10 timmar per vecka under ett år, i medeltal träning 23 timmar per vecka. Efter ett år hade gruppen som fick IBT ökat sin adaptiva förmåga mätt med VABS (ökning av totalpoäng från 67,0 (SD 10,3) till 75,3 (SD 12) medan jämförelsegruppen hade en oförändrad nivå. För vissa barn fanns resultat också efter två års behandling, VABS-poängen var oförändrad jämfört med efter ett år. Ett mått på svårighetsgraden av symtom på autistiskt syndrom, CARS, visade en signifikant minskning efter ett år, och efter två år noterades fortsatt minskning av CARS-poängen.

En publikation av Kovshoff och medarbetare från år 2011 illustrerade svårigheterna att ha kontroll över vilka faktorer som har betydelse vid en intervention [35]. Vid uppföljning två år efter avslutad träning av de barn som beskrevs av Remington och medarbetare, deltog alla 23 barn i inter-



ventionsgruppen och 18 (av ursprungligen 23) i jämförelsegruppen [9]. Det fanns då inte längre någon signifikant skillnad mellan grupperna. Vid ytterligare analys av ursprungsdata blev det tydligt att i gruppen som fick intervention var det en undergrupp som förlorat färdigheter medan en annan grupp behållit sin funktion. Gruppen med mest positiv utveckling visade sig också i starten ha haft bättre utgångsläge vad gäller symtom på autistiskt syndrom och adaptivt beteende. De hade sannolikt också fått mera intensiv träning. Författarna ställde frågan om skillnader i modellen för träning och/eller olika intensitet i träningen och/eller olika förmågor vid starten kan ha orsakat skillnaden i hur väl effekten av interventionen stod kvar.

Kaale och medarbetare genomförde en randomiserad kontrollerad studie på norska förskolor där förskollärare tränade barnen på att öka förmågan att dela intresse [36]. Efter avslutad intervention visade barnen som fått träning högre frekvens av tillfällen med delat intresse med förskollärare och i någon mån generalisering till längre stunder med gemensam aktivitet med mödrarna. Det gick inte att mäta någon skillnad i social förmåga och kommunikation mellan grupperna genom strukturerat instrument. I interventionen deltog 34 barn och 27 barn fick förskoleprogram enligt vanliga principer. Barnens åldrar var mellan 24 och 60 månader. Interventionen pågick i åtta veckor.

### ***Systematiska översikter och metaanalyser***

Det har publicerats flera systematiska översikter och metaanalyser om insatser vid AST. Vi beskriver fem rapporter, fyra systematiska översikter och en metaanalys. Resultaten i dessa ligger inte till grund för de evidensgraderade resultaten i den här utvärderingen.

En Cochrane-översikt från år 2003 av Diggle och medarbetare var inriktad på effekterna av föräldrabaserad träning [37]. Fram till år 2002 fanns bara två studier som bedömdes ha tillräcklig kvalitet för att ingå; Jocelyn och medarbetare beskrev föräldraträning utöver förskoleprogram och Smith och medarbetare beskrev träning enligt Lovaas metodik [38,39]. Dessa kunde inte jämföras sinsemellan och gav bara begränsat stöd för effekten av föräldraträning. Slutsatsen blev att ytterligare studier behövdes.

Reichow och medarbetare sammanfattade år 2009 resultat av EIBI-studier baserade på Lovaas metodik [40]. Resultaten visade framsteg för grupper som fått ta del av EIBI men författarna visade på kunskapsluckor som t ex att EIBI inte är jämfört med andra typer av insatser med välbeskriven metodik. Man diskuterade också att publikationsbias inte kunde uteslutas, men även efter korrektion blev effekten av behandlingen tydligt positiv.

I systematiska översikter från de senaste åren, Effective Health Care Program 2011 [41] och Makrygianni och medarbetare från år 2010 [42], ingår vissa artiklar publicerade före 2000 som inte är med i denna rapport. Det beror på att de inte uppfyllde våra inklusionskriterier (diagnosen ska vara ställd enligt diagnoskriterierna i ICD-10 eller DSM-IV, eller att ADOS och ADI-R använts i kombination). Studier som är publicerade år 2010–2011 har tillkommit efter den amerikanska rapporten och utvärderas inom ramen för detta projekt (Tabell 3.2.5–3.2.6).

Eldevik och medarbetare gjorde en metaanalys där tre grupper jämfördes. En grupp barn som fick intensiv IBT 20–30 timmar per vecka under 12–36 månader (n=309), en annan grupp barn som fick intensiv träning i annan form (n=39) och en grupp som fick en mindre intensiv och ospecificerad intervention (n=105) [43,46]. Man räknade ut nivån för den förändring som kunde bedömas vara tillförlitlig (metodik använd också av Remington och medarbetare [9], se ovan och Tabell 3.2.1). Av de barn som fick intensiv IBT hade 83 av 279 (29,8 %) en reliabel positiv förändring av IK-nivån, 51 av 248 (20,6 %) hade en lika reliabel förbättring av adaptiv förmåga och i gruppen som fick annan intensiv träning hade 1 av 39 respektive 2 av 39 en motsvarande positiv förändring. I gruppen med ospecifik insats var siffrorna 9 av 104 och 4 av 70. Skillnaden var signifikant; IBT-gruppen hade bättre resultat jämfört med de andra grupperna ( $p < 0,001$  för IK,  $p = 0,003$  för VABS).

### **Sammanfattning och diskussion**

#### ***Många heterogena studier eller inga studier alls***

Det vetenskapliga underlaget för tidig intervention är otillräckligt när det gäller symtomlindring med avseende på kärnsymtom hos barn med AST. För negativa effekter finns det inga studier som uppfyller

inklusionskriterierna och som är av minst medelhög studiekvalitet. För Floortime och Son-Rise finns det inga studier om effekt av behandlingen jämfört med kontrollgrupp.

Vi har inkluderat 16 studier om tidig intervention (två studier behandlar samma grupp barn). Sex studier behandlar tidig intervention inriktad på socialt samspel och kommunikation och tio handlar om tidig intensiv träning som är beteendeterapeutiskt inriktad. Trots att relativt många studier redovisas är heterogeniteten så stor att inga synteser har kunnat göras. Detta beror främst på olikheter i behandling, kontrollbehandling och de effektmått som har använts i studierna. Andra publicerade systematiska översikter av tidig intervention beskriver också svårigheter att jämföra studierna pga stora variationer i hur intervention och kontrollåtgärd beskrivs, hur väl man kontrollerar att en viss behandling genomförs, typ och omfattning av samtidigt andra interventioner och de effektmått som används för att beskriva effekten.

Vetenskapligt underlag för att bedöma eventuella biverkningar vid behandling saknas helt. Oosterling och medarbetare hör till undantagen som också tar upp risker med tidig intervention. De nämner faran att föräldrar känner stress och bristande självförtroende om barnet trots intensiva ansträngningar inte utvecklas [15].

Redan i Lovaas studie från år 1987 noterade man att medan viss andel barn förbättrades av tidig intervention så fanns en betydande grupp som visade liten förändring i testresultat trots lika intensiv träning som för övriga i hans studie (10 av 19 barn) [16]. Liknande fynd finns i flertalet av de efterföljande studierna. Företrädare för intensiv tidig intervention betonar att behandling måste pågå under stor del av barnets dag för att vara effektiv och att behandling kan behövas under flera år för att barnen ska kunna nå liknande eller samma utvecklingsnivå som barn utan AST. Barnen ligger efter jämnåriga i utvecklingsnivå, då insatserna börjar, och måste ha en högre utvecklingstakt än vanligt under viss tid för att nå upp i normalområdet.

Enligt ett par studier är framstegen störst under första året med behandling, för att sedan minska [7,29]. I vissa studier anges hög intensitet som

den variabel som bäst korrelerar med framsteg [10,43]. Andra rapporter att utgångsdata är mer avgörande för effekten än intensitet [29]. Högre IK-nivå före behandling är kopplat till bättre effekt enligt flera studier [8,11,18,29,30]. Lägre ålder vid start av behandling är också kopplat till god effekt enligt vissa studier [10] medan andra inte finner något sådant samband [8,11]. Sämre resultat beskrivs vid tecken på annan sjukdom och utvecklingsstörning hos barnet [44]. Många faktorer behöver analyseras närmare, t ex om någon basal förmåga krävs för att insats i viss form ska vara till hjälp, inverkan av beteendeproblem m m (t ex diskuterat i en översikt) [45].

Det blir tydligt genom denna litteraturgenomgång att en vanlig form av insats i Sverige inte alls har något vetenskapligt stöd, nämligen den typ av träning som innefattar kombination av flera metoder. Detta kan innebära splittring av resurser och alltför stora krav på barnet att skifta uppmärksamhet. Barnen med AST, som inte automatiskt lär av erfarenheter, kan behöva väl strukturerad och samlad träning av lek och kommunikation för att nå framsteg.

#### *Alternativ bearbetning av resultat från inkluderade studier*

Vi har försökt att på liknande sätt som i den metaanalys som är publicerad av Eldevik och medarbetare [43,46] analysera de individuella resultaten i de 16 studierna av tidig intervention som ingår i vår översikt. Vi har också lagt till resultat från två andra studier som är nämnda ovan, där studiegrupperna har fått samma typ av intervention [26,29].

I åtta av studierna finns jämförbara mått på kognitiv utveckling (IK-mått) före och efter intervention [7–11,20,26,29]. I sex studier finns en grupp som fått intensiv intervention och en kontrollgrupp med mer specifik och mindre intensiv intervention [7–11,20]. I två av studierna har båda grupperna fått intensiv beteendeterapeutiskt inriktad träning med mindre skillnader i hur träningen administrerades; här förs alla resultat till gruppen med intensiv intervention [26,29]. I medeltal hade de 188 barnen som ingått i studiegrupper med intensiv intervention ökat sin IK-nivå med 17,1 medan de 124 barn som fått mindre specifik träning hade ökat IK-nivån med 4,5 i medeltal (uträknat som totala IK-ökningen i respektive grupp dividerat med antalet deltagare).

Kognitiv nivå är ett omdiskuterat mått på effekten av träning. Det är inte ett kärnsymtom. Barn kan medverka bättre vid testning efter en träningsperiod utan att kognitiva faktorer i sig blivit förändrade och man kan behöva använda olika instrument efter ålder och utvecklingsnivå, vilket kan göra att resultaten är svåra att jämföra. I genomgången ovan kan vi anta att testningarna gjorts på likartat sätt i de olika studiegrupperna (men vi kommer inte ifrån den risk för bias det innebär att en viss grupp får extra uppmärksamhet i samband med intensiv träning).

Olika studier använder olika instrument vid försök att beskriva kärnsymtom, vilket gör det svårt att sammanställa resultaten. ADOS används i några fall. Det är ett välkänt instrument för diagnostik och kan användas vid uppföljning men är sannolikt inte tillräckligt detaljerat för att mäta subtila förändringar. Ett praktiskt problem är att man använt olika modifikationer av ADOS.

I brist på bedömning av kärnsymtom anses förändringar i adaptiv förmåga (förmågan att klara vardagsaktiviteter) vara en värdefull indikator på barnets utveckling, ungefär förmågan att klara vardagsaktiviteter. I sju studier används samma mått på adaptiv förmåga, VABS composite score (ett sammantaget resultat i Vineland Adaptive Behaviour Scale; anges här som standardpoäng med medelnivå 100, SD 15). I fem studier analyseras en observationsgrupp och en kontrollgrupp [7,8,10,11,19]. I två studier får dessa två grupper huvudsakligen samma intervention och här förs alla deltagarna till gruppen med den mest intensiva interventionen [26,29]. I medeltal får 177 barn som ingår i studiegrupper med intensiv intervention en ökad adaptiv förmåga med 5,7 standardpoäng.

De 102 barn som får mindre specifik träning har minskad adaptiv förmåga efter avslutad studieperiod med i medeltal 6,0 standardpoäng (uträknat som totala förändringen i standardpoäng i respektive grupp dividerat med antalet deltagare). Således uppkommer en skillnad på 11,7 standardpoäng mellan grupperna. I flera av de ingående studierna ser man en minskad adaptiv nivå i grupper som inte får intensiv träning [8,10,11,19]. I två studier finns också viss förlust av adaptiv förmåga i gruppen som får mest intensiv intervention men i mindre grad än i kontrollgruppen [8,19]. Dessa resultat kan tolkas som att naturalförloppet vid AST hos små barn är att utvecklingen av adaptiv förmåga släpar efter alltmera.

**Table 3.2.5** Early intervention (communication, interaction and play).

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Aldred et al 2004 [5] United Kingdom	<p><u>Design</u> Pilot RCT; stratification for age and autism severity; unselected consecutive clinician or self-referrals</p> <p><u>Aim</u> To test a new theoretically based communication intervention aimed to increase the quality of parental adaptation and communication against routine care alone</p>	<p><u>Diagnosis</u> Clinical and ADI-R-verified diagnosis of autistic disorder; ADOS one point below cut-off accepted (in 4 cases)</p> <p><u>No of participants</u> 28</p> <p><u>Gender</u> 25 boys, 3 girls</p> <p><u>Age</u> 2 years–5 years, and 11 months</p> <p><u>IQ</u> No severe global developmental delay</p> <p><u>Other</u> No severe environmental deprivation in infancy. 1st language English. No diagnosed hearing or visual impairment. No chronic illness in parents. Evidence of some desire to interact with adult</p>	<p>I: A social communication intervention manualised, staged to reflect the early pre-linguistic skills. Initial series of parental psycho-educational workshops + monthly treatment sessions for parents and child for 6 months + less frequent maintenance sessions for 6 months. Videotape of parent child play is reviewed. Parents asked to practice 30 minutes daily alone with child + routine speech and language therapy. n=14</p> <p>C: Routine speech and language therapy. n=14</p>	<p><u>Assessments</u> Baseline and after 12 months</p> <p><u>Drop-outs</u> No drop-outs</p>	<p><u>Behaviour/observation</u> ADOS-G: Mean baseline total score: I: 16.1 (SD 4.5) C: 15.6 (SD 4.9) Mean follow-up total score: I: 11.8 (SD 6.4) C: 16.1 (SD 4.4) Improvement (=lower score) I&gt;C (p &lt;0.01)</p> <p><u>Adaptive functioning</u> VABS communication subdomain score: Baseline mean: I: 22.6 (SD 13.3) C: 20.0 (SD 10.8) Posttreatment mean: I: 36.9 (SD 21.2) C: 28.7 (SD 16.6) ns</p> <p><u>Language</u> The MacArthur Communicative Developmental Inventory: Language comprehension: ns Expressive language: I&gt;C (p &lt;0.001)</p> <p><u>Other</u> The Parenting Stress Index questionnaire: ns</p> <p>Parent-child interaction (video coding developed by the researchers): Positive synchronous communication: I&gt;C (p &lt;0.016) Shared attention: ns</p>	<p>Moderate</p> <p>VABS composite score not included in results</p>

The table continues on the next page

Table 3.2.5 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Green et al 2010 [6] United Kingdom	<u>Design</u> RCT  <u>Aim</u> To provide a stringent test of a parent-child communication-focused intervention in children with core autism	<u>Diagnosis</u> Criteria for autism (social and communication domains of the ADOS-G + >2 of 3 domains of the ADI-R)  <u>No of participants</u> 152  <u>Gender</u> 138 boys, 14 girls  <u>Age</u> 2 years–4 years, and 11 months  <u>IQ</u> Non-verbal mental age >12 months  <u>Other</u> No epilepsy requiring medication, no severe hearing or visual impairment in a parent or the child. English-speaking parents	I: Preschool Autism Communication Trial (PACT). Biweekly 2 h clinic sessions for 6 months, followed by monthly booster sessions for 6 months (total 18). Parents asked to do 30 minutes of daily home practice  + treatment as usual. n=77  C: Treatment as usual. n=75	<u>Assessments</u> Baseline and after 13 months  <u>Drop-outs</u> I: n=3 C: n=3	<u>Behaviour/observation</u> ADOS-G; Total socialcommunication score (a modified algorithm score): Baseline: I: 19.6 (4.2) C: 19.3 (4.0) Follow-up: I: 15.7 (6.0) C: 16.5 (5.7) ns  ADOS-G change from core autism: I: To other ASD: 22/74; to non-spectrum: 4/74 C: To other ASD: 17/74; to non-spectrum: 5/74  Parent-child interaction during naturalistic play: Improvement for I>C for parental synchrony (p <0.005), child initiations and parent-child shared attention – ns  <u>Adaptive functioning</u> VABS interview with teachers; Baseline mean unavailable  <u>Posttreatment mean</u> Adaptive behavior composite (ABC) score: I: 60.3 (15.2) C: 62.8 (14.8) <u>Communication score</u> I: 64.3 (17.7) C: 67.7 (17.5)  <u>Other</u> Preschool Language Scales: ns MCDI (parent ratings): I>C CSBS-DP (parent ratings): I>C	Moderate  The endpoint score for core symptoms of autism improved in both groups according to observation (ADOS). Parent ratings of language and social communication showed a strong effect in favour of the PACT intervention

The table continues on the next page

Table 3.2.5 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Kasari et al 2006 [12] USA	<u>Design</u> RCT  <u>Aim</u> To examine the efficacy of targeted interventions of joint attention and symbolic play	<u>Diagnosis</u> Children with autism, met ADI-R and ADOS criteria  <u>No of participants</u> 65 randomised, 58 in final groups  <u>Gender</u> 46 boys, 12 girls  <u>Age</u> 3–4 years  <u>IQ</u> Developmental quotient means for groups I1, I2 and C were 58, 59, and 52, respectively  <u>Other</u> No additional medical diagnosis	Children recruited from an existing early intervention 6-hour per day preschool program with training based on ABA  I1: Joint attention intervention. n=20  I2: Symbolic play intervention. n=21  C: Control group. n=17  I1 and I2 had 30 minutes per day for mean 5–6 weeks of specified training, a combination of behavioural/table training and milieu teaching (child-driven floor sessions)	<u>Assessments</u> Baseline and after 8 weeks  <u>Drop-outs</u> (after randomisation) I1: n=2 I2: n=1 C: n=4	<u>Behaviour/observation</u> ESCS: Showing: (I1 and I2)>C; Responding skills: I1>(I2 and C)  Structured Play Assessment: Level of play: – I2>C  Joint attention skills in mother-child interaction: Joint looks: (I1 and I2)>C Giving and showing: I1>I2 Child-initiated joint attention: I1>C  Mother-child interaction: Types of symbolic play and overall play level – I2>(I1 and C)	Moderate  Improvements noted by independent testers. Large effect sizes. Children in the joint attention group initiated more shows and responded more to joint attention. Children in the play group showed greater diversity of play and higher play levels. Children were able to generalize skills from training to play with their mothers

The table continues on the next page

Table 3.2.5 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Kasari et al 2010 [13] USA	<p><u>Design</u> RCT with waitlist controls; videotapes of caregiver-child interaction scored by blind reviewers (primary outcome measures)</p> <p><u>Aim</u> Intervention for caregivers of toddlers with autism to increase joint engagement and play; to study if changes were maintained during a follow-up period</p>	<p><u>Diagnosis</u> DSM-IV criteria for autism by an independent clinician, verified with the ADI-R</p> <p><u>No of participants</u> 38 children and caregivers</p> <p><u>Gender</u> 29 boys, 9 girls</p> <p><u>Age</u> 21–36 months</p> <p><u>IQ</u> Average mental age: 19.2 months</p>	<p>I: Immediate intervention group; 24 sessions (3/week) of instruction, modeling and feed-back; individualised to each dyad; based on developmental procedures and ABA. n=19</p> <p>C: Waitlist condition; treatment delayed for 8 weeks. n=19</p>	<p><u>Assessments</u> At baseline, after 8 weeks, and for group I after 12 months</p> <p><u>Drop-outs</u> No drop-outs</p>	<p><u>Cognition</u> –</p> <p><u>Language</u> –</p> <p><u>Adaptive functioning</u> –</p> <p><u>Behaviour/observation</u> Interaction child-caregiver, videotapes of 15 minutes; difference baseline to 8 weeks: Joint engagement increased more in I compared to C (p &lt;0.05) Frequency of joint attention initiations – ns Frequency of joint attention responses – I&gt;C (p &lt;0.05) Types of functional play acts – I&gt;C (p &lt;0.05) Types of symbolic play acts – ns</p> <p>Videoscorings after 12 months, group I: Treatment-related gains in joint engagement and play were maintained or improved</p> <p><u>Questionnaires</u> –</p>	<p>Moderate</p> <p>Experiences from earlier studies made authors focus on toddlers expected to have minimal language abilities</p> <p>Coding system of videotapes found reliable in previous research [12]</p>

The table continues on the next page

Table 3.2.5 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Landa et al 2011 [14] USA	<u>Design</u> RCT  <u>Aim</u> To examine the effects in toddlers of a supplementary intervention targeting core deficits of autism	<u>Diagnosis</u> Diagnosis of autism (ADOS + expert clinician)  <u>No of participants</u> 50 randomised, 48 analysed  <u>Gender</u> 40 boys, 8 girls  <u>Age</u> 21–33 months  <u>IQ</u> Non-verbal mental age >8 months  <u>Other</u> No siblings with ASD. English the primary language. No known etiology for ASD	I and C: Intervention in classroom 4 days/week, 2.5 hours/day, 6 months according to a comprehensive developmental curriculum based on individual developmental profile. Parent education/training  I: Interpersonal synchrony condition with specific efforts to increase joint attention, imitation, and affect sharing. n=24  C: Non-interpersonal synchrony condition. n=24	<u>Assessments</u> Baseline, after intervention for 6 months, and after follow-up for further 6 months  <u>Drop-outs</u> I: n=1 C: n=1	<u>Behaviour/observation</u> The Communication and Symbolic Behavior Scales – DP: Initiation of joint attention: ns Shared positive affect: ns  Socially engaged imitation (structured videotaped observations): I>C (p=0.02) <u>Cognition</u> MSEL expressive language and nonverbal cognition: No significant group differences; in both groups, gains over time from pre-test to follow-up: I: Significant on every outcome (p <0.01) C: Significant only on MSEL expressive language (p=0.01) (use of MSEL T-scores with mean 40, not an IQ measure)	Moderate  Absence of more robust between-group differences, probably because of the similarity between the interventions

The table continues on the next page



Table 3.2.5 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Oosterling et al 2010 [15] The Netherlands	<u>Design</u> Partly randomised controlled study  <u>Aim</u> To evaluate the effectiveness of a home-based parent- training program focused on promoting compliance, mutual enjoyment, and joint attention, called Focus parent training, modeled after an intervention descri- bed by Drew et al (2002) [47]	<u>Diagnosis</u> Referrals who were screen positive on ESAT; consensus diag- nosis by at least two experienced profes- sionals (psychologist and psychiatrist) after a diagnostic assessment including use of the ADI-R and the ADOS  <u>No of participants</u> 75 randomised  <u>Gender</u> 53 boys, 14 girls (analyzed)  <u>Age</u> 12–42 months  <u>IQ</u> Autism with develop- mental age ≥12 months or PDD-NOS with developmental age ≥12 months or Development Quotient <80 (based on PEP-R)	I: The Focus parent training in addition to care-as-usual; four weekly 2 hour sessions in group with parents + 3 hour home visits every 6 weeks during the first year. In the second year, home visits at 3 month intervals, plenary sessions every 6 months; n=40 allocated to intervention; 9 pre- maturely discon- tinued; 4 of these without endpoint measurements  C: Care as usual. Daycare, on an indi- vidual basis, speech and language + motor + play therapy and parent counseling. n=35 allocated to control group; 4 without endpoint measurement	<u>Assessments</u> Baseline and after mean 15 months (1 year of inter- vention)  <u>Drop-outs</u> After randomisation I: n=9 C: n= 4	<u>Behaviour/observation</u> ADOS: Change of mean score from baseline to follow-up; Level of non-echoed language on a 6 point scale I: -1.6 (1.1) C: -1.3 (1.2)  Social Affect domain score I: -2.5 (4.0) C: -2.3 (3.7)  Joint attention factor I: -0.8 (2.3) C: -0.9 (0.2)  <u>Other</u> MCDI, parent report: ns  CGI-I (raters blind to the case- control status, based on comp- rehensive assessment reports): I: 57% showed much improvement C: 52% showed much improvement	Moderate  First 25 cases were rando- mised, then allocation after where families lived (for not to undermine the distin- ction between groups and for practical reasons)  The findings of Drew et al [47] could not be replica- ted. This could be due to methodological differences or high standard of the care as usual in the Netherlands

ABA = Applied behaviour analysis; ADI-R = Autism diagnostic interview-revised; ADOS = Autism diagnostic observation schedule; ADOS = Autism diagnostic observation schedule generic; ASD = Autism spectrum disorder; C = Control group; CGI-I = Clinical global impression of improvement; CSBS-DP = Communication and symbolic behavior scales developmental profil; ESCS = Early social-communication scales; ESAT = Early screening of autistic traits; I = Intervention group; IQ = Intelligence quotient; MCDI = MacArthur communicative developmental inventory; MSEL = Mullen: scales of early learning; n = Number of patients; ns = Non-significant; p = Probability coefficient; PEP-R = Psycho-educational profile revised; PPD-NOS = Pervasive developmental disorders – not otherwise specified; RCT = Randomised controlled trial; SD = Standard deviation; T scores (mean = 50, SD = 10); VABS = Vineland adaptive behaviour scale

**Table 3.2.6** Early intervention (behavioural therapy).

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Cohen et al 2006 [7] USA	<p><u>Design</u> Cohort study with comparison group</p> <p><u>Aim</u> Replication of early IBT/EIBI with the methodology of the initial Lovaas' study (1987) but in a community setting</p>	<p><u>Diagnosis</u> Primary diagnosis of AD or PDD-NOS based on an evaluation by an independent licensed psychologist and confirmed by the ADI-R</p> <p><u>No of participants</u> 42</p> <p><u>Gender</u> 35 boys, 7 girls</p> <p><u>Age</u> 18–42 months at diagnosis and &lt;48 months at treatment onset</p> <p><u>IQ</u> Pretreatment IQ above 35</p>	<p>I: EIBI 35–40 h/week + staff and parent training; treatment for 3 years or more (n=17), ended before 3 years (n=4)</p> <p>C: Special education classes at local public schools (n=21)</p>	<p><u>Assessments</u> Baseline + annual evaluations for 3 years</p> <p><u>Drop-outs</u> (Not included in the n=21 in each group) I: 3 C: 2</p>	<p>Outcome after 3 years</p> <p><u>Adaptive functioning</u> <u>VABS Composite score</u> Pretreatment mean: I: 69.8 (8.1) C: 70.6 (9.6) Post-treatment mean change: I: Increase 9 points C: Decline 4 points; I&gt;C (p &lt;0.01)</p> <p><u>Language</u> Reynell Language comprehension: I&gt;C (p &lt;0.05) Reynell Expressive language: ns</p> <p><u>Cognition</u> IQ (BSID-R) mean Pretreatment: I: 61.6 (16.4) C: 59.4 (14.7) Posttreatment: I: 87 C: 73 (details not given) I&gt;C (p &lt;0.05) Merill-Palmer: ns (results shown in figure only)</p> <p><u>Other</u> Placement in regular classroom: I: 17/21 (6 without assistance) C: 1/21</p>	<p>Moderate</p> <p>Replication of the UCLA EIBI model in a community setting; good description of methodology</p> <p>No randomisation</p> <p>VABS post-treatment composite score reported as increase in points. Otherwise only in figures. Analyses of covariance testing included</p>

The table continues on the next page

Table 3.2.6 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Dawson et al 2010 [19] USA	<u>Design</u> RCT, stratification on the basis of IQ and gender  <u>Aim</u> To evaluate the efficacy of the ESDM, a comprehen- sive developmental behavioural interven- tion	<u>Diagnosis</u> Diagnosis of autism according to Toddler ADI + autism or ASD according to ADOS + clinical diagnosis based on DSM-IV criteria  <u>No of participants</u> 51 randomised, n=3 excluded  <u>Gender</u> 3.5:1 (boys:girls)  <u>Age</u> 18–30 months  <u>IQ</u> >35	I: ESDM; therapist- delivered intervention 15.2 hours per week (SD 1.4) + by parents 16.3 hours/week (SD 6.2) + other therapies 5.2 hours/week (SD 2.1). n=24  C: Community inter- vention; average of 9.1 hours of individual therapy and 9.3 hours/ week of group inter- ventions. n=24	<u>Assessments</u> Baseline + after 1 year of intervention + after 2 years or at 48 months of age  <u>Drop-outs</u> I: No drop-outs C: 3 lost to follow-up	<u>Behaviour/observation</u> ADOS severity score Baseline: I: 7.2 (1.7) C: 6.9 (1.7) After 1 year: I: 6.5 (1.5) C: 7.3 (2.1) After 2 years: I: 7.0 (1.9) C: 7.3 (1.8) No significant differences  <u>Adaptive functioning</u> VABS composite scale: Pretreatment: I: 69.5 (5.7); C: 69.9 (7.3) Posttreatment (1 year): I: 65.7 (9.8) C: 63.7 (8.8) Posttreatment (2 years): I: 68.7 (15.9) C: 59.1 (8.8)  <u>Language</u> MSEL receptive and expressive language: ns  <u>Cognition</u> MSEL Composite Pretreatment: I: 61.0 (9.2) C: 59.4 (8.6) Posttreatment (1 year) I: 76.4 (23.4) C: 64.0 (13.8) I>C (p=.018) Posttreatment (2 years) I: 78.6 (24.2) C: 66.3 (15.3) I>C (p=0.044)	Moderate  Of interest that the ESDM group had a steady rate of deve- lopment of adaptive behavior; the commu- nity group got further behind the normative sample  No significant differen- ces in ADOS scores

The table continues on the next page

Table 3.2.6 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Eikeseth et al 2002 [18] Norway	<p><u>Design</u> Cohort study with comparison group; pseudo-randomisation of all referrals during a time period; group assignment based on staff availability</p> <p><u>Aim</u> To evaluate the outcome of 1 year of IBT based on the UCLA model (Lovaas 1987) [16]</p>	<p><u>Diagnosis</u> Childhood autism (ICD-10) according to ADI-R + an independent clinical psychologist</p> <p><u>No of participants</u> 25</p> <p><u>Gender</u> 19 boys, 6 girls</p> <p><u>Age</u> 4–7 years</p> <p><u>IQ</u> ≥50</p>	<p>I: Behavioural treatment; mean 28 h/week (range 20–35). Parents worked alongside therapists at school for the first 3 months a minimum of 4 h/week. n=13</p> <p>C: Eclectic treatment; mean 29 h/week (range 20–41). A minimum of 20 h/week of treatment. A variety of different interventions. n=12</p>	<p><u>Assessments</u> Baseline and after 1 year</p> <p><u>Drop-outs</u> In addition to 25 participants included in analysis I: 1 C: 1</p>	<p><u>Adaptive functioning</u> VABS Composite score Pretreatment mean: I: 55.77 (8.96) C: 60.00 (13.20) Posttreatment mean: I: 67.00 (16.30) C: 60.17 (11.69) I&gt;C (p &lt;0.05)</p> <p><u>Language</u> Reynell or verbal IQ-test: I&gt;C (p &lt;0.05)</p> <p><u>Cognition</u> IQ (different tests used): Pretreatment: I: 61.92 (11.31) C: 65.17 (14.97) Posttreatment (1 year): I: 79.08 (18.09) C: 69.50 (18.38) I&gt;C (p &lt;0.01)</p> <p><u>Performance IQ (Merrill-Palmer or performance scale of other test):</u> Pretreatment: I: 77.54 (30.21) C: 81.83 (21.05) Posttreatment (1 year): I: 95.00 (16.91) C: 90.17 (19.97) No significant group differences</p> <p><u>Post-treatment WPPSI-R</u> IQ-scores &gt;85: I: 7/13 C: 2/12 I&gt;C (p &lt;0.05)</p>	<p>Moderate</p> <p>The authors conclude that results of training in this 4–7 years old group were consistent with those reported for younger children</p>

The table continues on the next page

Table 3.2.6 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Eikeseth et al 2007 [11] Norway	<p><u>Design</u> Cohort study with comparison group; pseudo-randomisation of all referrals during a time period; group assignment based on staff availability</p> <p><u>Aim</u> Follow up of an IBT study based on the UCLA model [18]</p>	<p><u>Diagnosis</u> Childhood autism (ICD-10) according to ADI-R + an independent clinical psychologist</p> <p><u>No of participants</u> 25</p> <p><u>Gender</u> 19 boys, 6 girls</p> <p><u>Age</u> 4–7 years</p> <p><u>IQ</u> IQ ≥50</p>	<p>I: Behavioural treatment. n=13 C: Eclectic treatment; a variety of interventions: ABA, TEACCH, sensory-motor therapies, clinical experience. n=12</p>	<p><u>Assessments</u> Baseline and after mean time from treatment onset: I: 33.3 months (12.6) C: 31.4 months (8.7)</p> <p>Mean age at follow-up 8 years and 2 months</p> <p><u>Drop-outs</u> No drop-outs</p>	<p><u>Adaptive functioning</u> VABS Composite score Posttreatment mean: I: 67.9 (17.1) C: 49.5 (13.0) (p &lt;0.01 calculated for change in scores from pretreatment)</p> <p><u>Cognition</u> IQ (different tests used): Pretreatment: I: 61.92 (11.31) C: 65.17 (14.97) Posttreatment: I: 86.9 (25) C: 71.9 (28.4) I&gt;C (p &lt;0.05)</p> <p>Post-treatment WPPSI-R IQ-scores &gt;85: I: 7/13; C: 3/12 Losing IQ points I: 3/13 C: 5/12</p> <p><u>Other</u> CBCL Aggressive: I&lt;C (less problems in I; p &lt;0.01) CBCL Social: I&lt;C (less problems in I; p &lt;0.05)</p> <p>No longer any one-to-one treatment at school (but child may have full- or part-time shadow teacher): I: 5/13 C: 1/12</p>	<p>Moderate</p> <p>VABS pretreatment scores as in Eikeseth et al 2002 [18]. Difference in scores between groups widened from the year 1 follow-up to this follow up</p>

The table continues on the next page

Table 3.2.6 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Howard et al 2005 [10] USA	<p><u>Design</u> Comparison of three cohorts</p> <p><u>Aim</u> To compare the efficacy of IBT and more or less intensive eclectic treatment</p>	<p><u>Diagnosis</u> Diagnosis of autistic disorder or PDD-NOS according to DSM-IV criteria</p> <p><u>No of participants</u> 78 enrolled; 61 with follow-up-data</p> <p><u>Gender</u> 54 boys, 7 girls</p> <p><u>Age</u> &lt;48 months</p> <p><u>IQ</u> (See Main results)</p>	<p>I: IBT 25–40 h/week. n=29 fulfilled the program</p> <p>C1: Intensive eclectic intervention in public classrooms designed specifically for children with ASD; combination of methods; 30 h/week. n=16 fulfilled the program.</p> <p>C2: Non-intensive public early intervention programs; combination of methods; 15 h/week n=16 fulfilled the program</p>	<p><u>Assessments</u> At baseline and at an average of 14 months from treatment entry</p> <p><u>Drop-outs</u> I: n=8 C1+C2: n=9</p>	<p><u>Adaptive functioning</u> VABS Composite score: Baseline: I: 70.46 (11.85) C1: 69.81 (10.48) C2: 71.62 (10.47) Posttreatment I: 81.32 (11.14) C1: 69.25 (12.91) C2: 68.25 (9.86) I&gt;(C1+C2) (p&lt;0.01)</p> <p><u>Language</u> Reynell (+ other tests used)</p> <p><u>Cognition</u> IQ (different tests used): Pretreatment I: 58.54 (18.15) C1: 53.69 (13.50) C2: 59.88 (14.85) Posttreatment I: 89.88 (20.87) C1: 62.13 (19.63) C2: 68.81 (15.32) I&gt;(C1+C2) (p&lt;0.01); no significant differences between C1 and C2</p> <p><u>Other</u> Learning rates at follow-up: I: Mean rates normal/near normal in all areas. C1 and C2 combined: Near normal learning rates only for non-verbal skills</p>	<p>Moderate</p> <p>The authors conclude, that the eclectic treatment – even if intensive, is not as effective as IBT</p>

The table continues on the next page

Table 3.2.6 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Magiati et al 2007 [8] United Kingdom	<u>Design</u> Cohort study with comparison group  <u>Aim</u> To compare home based early IBT/ EIBI in a community setting with autism specific nursery provision	<u>Diagnosis</u> Independent professio- nal diagnosis of autism/ ASD, confirmed with ADI-R  <u>No of participants</u> 44  <u>Gender</u> 39 boys, 5 girls  <u>Age</u> 22–54 months  <u>IQ</u> (See Main results)	Treatment chosen by parents  I: EIBI for mean 32.4– 33.2 h/week (at start and after 2 years). n=28  C: Nursery group with eclectic treatment for 25.6–27.4 h/week inclu- ding one-to-one teach- ing mean 6 h/week. n=16	<u>Assessments</u> At baseline and after 23–27 months  <u>Drop-outs</u> No drop-outs	<u>Behaviour/observation</u> <i>Symbolic Play Test-Second Edition</i> ns <i>Test of Pretend Play</i> – ns  <u>Adaptive functioning</u> <i>VABS Composite score</i> Baseline: I: 59.6 (6.2) C: 55.4 (5.4) Posttreatment: I: 57.5 (10.1) C: 48.6 (10.7) ns  <u>Language</u> <i>The British Picture Vocabulary</i> Scale-II - ns <i>The Expressive One Word Picture</i> <i>Vocabulary test-Revised</i> – ns  <u>Cognition</u> <i>IQ</i> (best standardized test available at each timepoint; WPPSI-R>Merrill-Palmer>BSID-R) Pretreatment: I: 83.0 (27.9) C: 65.2 (26.9) Posttreatment (1 year): I: 78.4 (17.6) C: 65.3 (18.0) ns  <u>Other</u> No child in mainstream school without 1:1 support	Moderate  Large individual differ- ences in progress, with intake IQ and language level best predicting progress

The table continues on the next page

Table 3.2.6 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Peters- Scheffer et al 2010 [20] The Netherlands	<u>Design</u> Cohort with com- parison group  <u>Aim</u> To assess the effects of low intensity one-to-one beha- vioural treatment on developmental age and adaptive skills	<u>Diagnosis</u> Autism or PDD-NOS and intellectual disabi- lity based on DSM-IV criteria and established independently from the study  <u>No of participants</u> 36  <u>Gender</u> Not reported  <u>Age</u> <7 years  <u>IQ</u> (See Main results)	I+C attended pre- schools for children with autism  I: 5–10 hours (Mean 6, SD 3) of one-to-one treatment per week. + teachers informally used ABA principles in the group context. n=12  C: Visited preschools where no one-to-one treatment was given. n=22	<u>Assessments</u> At baseline and after 8 months of treatment  <u>Drop-outs</u> No described drop-outs	<u>Adaptive functioning</u> VABS Composite score (in months) Baseline: I: 20.83 (6.69) C: 19.18 (4.14)  Posttreatment: I: 31.75 (10.96) C: 22.05 (7.47) Increase I>C (p<0.01)  <u>Cognition</u> IQ (different tests used) Pretreatment: I: 47.00 (10.33) C: 45.73 (15.99) Posttreatment (1 year): I: 55.83 (14.94) C: 43.73 (16.74) I>C (p<0.01)  <u>Other</u> CBCL (parents' report) – ns PDD-MRS (Dutch version, parent's report) – ns	Moderate  Significant effect of this low intensity one- to-one training. The children were not ran- domly assigned, short follow-up period

The table continues on the next page



Table 3.2.6 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Remington et al 2007 [9] United Kingdom	<u>Design</u> Cohort study with comparison group  <u>Aim</u> To test whether early IBT/EIBI can be beneficial in routine use	<u>Diagnosis</u> Diagnosis of autism by a clinician, (independ- ent of the research team), verified with the ADI-R  <u>No of participants</u> 44  <u>Gender</u> Not reported  <u>Age</u> 30–42 months  <u>IQ</u> (See Main results)	I: Parents had opted for EIBI. One-to-one teach- ing mean 25.6 hours per week for 2 years. ABA + alternative and augmen- tative communication systems incorporated. n=23  C: Parents not actively seeking behavioural intervention, instead publicly funded standard provision; a variety of interventions. n=21	<u>Assessments</u> At baseline and after 1 and 2 years  <u>Drop-outs</u> No drop-outs	<u>Behaviour/observation</u> The Early Social Communication Scales Responding to joint attention – I>C (p=0.049) Initiating joint attention – ns  <u>Adaptive functioning</u> VABS Composite raw scores Baseline: I: 114.78 (26.89) C: 113.57 (29.78) Posttreatment: I: 202.83 (61.98) C: 182.86 (58.89) – ns  <u>Language</u> Reynell comprehension – I>C (p=0.004) Reynell expressive language – I>C (p=0.002)  <u>Cognition</u> IQ (different tests used) Pretreatment: I: 61.43 (16.43) C: 62.33 (16.64) Posttreatment (1 year): I: 68.72 (20.49) C: 58.90 (20.45) Posttreatment (2 years): I: 73.48 (27.28) C: 60.14 (27.76) I>C (p<0.01 on main effects for combined 12- and 24-month data)  <u>Other</u> The Autism Screening Question- naire (completed by parents) – ns	Moderate  Important limitation that parents decided on treatment, but groups were similar on demographic characteristics  Estimated that 23.94 IQ points was a reliable change for an individual child: I: 6 children showed this improvement, 0 regressed; C: 3 improved, 3 regressed

The table continues on the next page

Table 3.2.6 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Zachor et al 2007 [21] Israel	<p><u>Design</u> Comparison of two cohorts, matched for age, autism severity and cognitive level</p> <p><u>Aim</u> Comparison of outcomes of two centerbased programs for early intervention in autism, IBT and eclectic treatment</p>	<p><u>Diagnosis</u> Criteria for autism or PDD-NOS according to ADI-R/DSM-IV</p> <p><u>No of participants</u> 39</p> <p><u>Gender</u> 37 boys, 2 girls</p> <p><u>Age</u> &lt;3 years</p> <p><u>IQ</u> Mean 77.6 (15.8)</p>	<p>I1: ABA. One-to-one treatment for 35 h/ week + regular preschool activities. n=20</p> <p>I2: Eclectic-developmental approach; daily work in small-group activities + individual therapy from various therapists. n=19</p>	<p><u>Assessments</u> At baseline and after 1 year</p> <p><u>Drop-outs</u> No drop-outs</p>	<p><u>Behaviour/observation</u> ADOS: Language and communication domain (all items used, not only algorithm scores): Baseline: I1: 13.8 (4.3) I2: 11.8 (4.3) Follow-up I1: 7.2 (4.1) I2: 9.7 (3.0) Decrease of scores (=improvement) for I1&gt;I2 (p&lt;0.01)</p> <p>Change of diagnosis according to ADOS algorithm: I1: From autism to ASD n=4, no longer any diagnosis in the autism spectrum n=4; I2: From autism to ASD n=3; changes I1&gt;I2 (p&lt;0.05)</p>	<p>Moderate</p> <p>The authors had no role in selecting children for a specific treatment; the matching procedure not described</p>

The table continues on the next page

Table 3.2.6 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Zachor et al 2010 [22] Israel	<p><u>Design</u> Comparison of two cohorts</p> <p><u>Aim</u> 1. To examine the effect of two inter- vention approaches, IBT and eclectic treatment</p> <p>2. To examine the relation between autism severity at baseline, type of intervention and outcome</p>	<p><u>Diagnosis</u> Clinical diagnosis of autism based on ADI-R and DSM-IV criteria</p> <p><u>No of participants</u> 78</p> <p><u>Gender</u> 71 boys, 8 girls</p> <p><u>Age</u> 15–35 months; mean age 25.4 months at start of treatment</p> <p><u>IQ</u> MSEL cognitive composite mean I1: 72.2 (19.2) I2: 73.3 (22.2)</p>	<p>I1 and I2: 8 h per day in an autism-specific community-based pre- school</p> <p>I1: ABA. 20 h/week of 1:1-intervention; parents received weekly intstruction for home treatment. n=45</p> <p>I2: Eclectic approach. Individual program. Total of 19 h/week of individual encounters with the child. Guidance for parents. n=33</p>	<p><u>Assessments</u> Baseline and after 1 year of intervention</p> <p><u>Drop-outs</u> 114 children recruited, 37 excluded, some of them because of incom- plete post-intervention assessments</p>	<p><u>Behaviour/observation</u> ADOS Change of diagnosis according to ADOS algorithm I1: From autism to ASD n=2. No longer a diagnosis in the autism spectrum n=1. From ASD to autism n=2 I2: From autism to ASD n=2</p> <p>Combined I1 and I2: Children with low ADOS score at start improved significantly more than a high ADOS score group</p> <p><u>Adaptive functioning</u> VABS composite scale Only reported for pretreatment</p> <p><u>Cognition</u> MSEL cognitive standard scores No significant differences between groups I1 and I2. Significant changes in standard scores only for the MSEL verbal cognitive domains (ie better than was expected by maturation)</p>	<p>Moderate</p> <p>No significant group differences over time in any of the out- come measures – the authors emphasize the importance of early intervention but indi- cate that the type of intervention is not a major factor</p> <p>Both groups showed similar stability of diagnosis</p>

ABA = Applied behaviour analysis; ADI = Autism diagnostic interview; ADI-R = Autism diagnostic interview-revised; ADOS = Autism diagnostic observation schedule; ASD = Autism spectrum disorder; BSID-R = Bayley scales of infant development-revised; C = Control group; CBCL = Child behaviour check list; DSM-IV = Diagnostic and statistical manual, version IV; EIBI = Early intensive behavioral intervention; ESDM = The early start denver model; I = Intervention group; IBT = Intensive behavioral therapy; ICD-10 = International classification of diseases and related health problems, version 10; IQ = Intelligence quotient; h = Hour; MSEL = Mullen: scales of early learning; n = Number of patients; ns = Non-significant; p = Probability coefficient; PDD-MRS = Pervasive developmental disorders in mental retardation scale; PPD-NOS = Pervasive developmental disorders – not otherwise specified; RCT = Randomised controlled trial; SD = Standard deviation; TEACCH = Treatment and education of autistic and communication handicapped children; UCLA = University of California, Los Angeles; VABS = Vineland adaptive behaviour scale; WPPSI-R = Wechsler preschool and primary scale of intelligence-revised

### 3.2.2 Anpassning av miljö och pedagogiska insatser

I detta avsnitt har vi utvärderat följande behandlingsmetoder:

- Treatment and Education of Autistic and Communication handicapped Children (TEACCH)
- Picture Exchange Communication System (PECS)
- Social skills training/Träning av social förmåga
- Datorbaserad träning
- Social stories/Sociala berättelser
- Seriesamtal
- KAT-kit
- Autism preschool program
- Early bird program
- Specialpedagogik, tydliggörande pedagogik (structured teaching) förutom som ett led i TEACCH-programmet ovan.

#### Evidensgraderade resultat

##### *Effekter på kärnsymtom*

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att avgöra om Treatment and Education of Autistic and Communication handicapped Children (TEACCH) ger symtomlindring med avseende på kärnsymtom hos personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om Picture Exchange Communication System (PECS) ger symtomlindring med avseende på kärnsymtom hos personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om träning av social förmåga ger symtomlindring med avseende på kärnsymtom hos personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att avgöra om datorbaserad träning ger symtomlindring med avseende på kärnsymtom hos personer med AST (⊕○○○).

##### *Effekter på associerade problem*

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (två kohortstudier) för att avgöra om Treatment and Education of Autistic and Communication handicapped Children (TEACCH) ger förbättrad adaptiv förmåga hos personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en kohortstudie) för att avgöra om Treatment and Education of Autistic and Communication handicapped Children (TEACCH) ger bättre kognition hos personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (tre studier med brister i studiekvalitet och samstämmighet) för att avgöra om datorbaserad träning ger förbättrad social förmåga hos personer med AST (⊕○○○).

##### *Övriga metoder*

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att avgöra effekten av följande metoder (⊕○○○):
  - Social stories/Sociala berättelser
  - Seriesamtal
  - KAT-kit
  - Autism preschool program
  - Early bird program
  - Specialpedagogik, tydliggörande pedagogik (structured teaching) förutom som ett led i TEACCH-programmet ovan.

## Sammanfattande resultattabeller

### TEACCH

**Tabell 3.2.7** Sammanfattande resultattabell. Effekt av TEACCH jämfört med ospecifikt träningsprogram hos pojkar med autistiskt syndrom vid uppföljning efter 3 år.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Adaptiv förmåga (mätt med VABS)	34 (1 kohortstudie)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [48]

TEACCH = Treatment and education of autistic and communication handicapped children; VABS = Vineland adaptive behavior scale

**Tabell 3.2.8** Sammanfattande resultattabell. Effekt av TEACCH jämfört med ospecifikt träningsprogram hos barn med AST vid uppföljning efter 6 månader.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Kognition (mätt med Merill-Palmer scale of mental test)	34 (1 kohortstudie)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [49]
Adaptiv förmåga (förändring mätt med HKBABS)	34 (1 kohortstudie)	Medel-skillnad I: 4,7 (30,4) p=ns C: -24,5 (33,6) p ≤ 0,01	⊕○○○	En studie [49]

HKBABS = Hong Kong based adaptive behavioral scales; I = Behandlingsgrupp (intervention); C = Kontrollgrupp (control)

### PECS

**Tabell 3.2.9** Sammanfattande resultattabell. Effekt av PECS jämfört med ingen behandling hos barn med AST.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Kärnsymtom (mätt med ADOS)	88 (1 RCT)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [50]

ADOS = Autism diagnostic observation schedule; PECS = Picture exchange communication system; RCT = Randomiserad kontrollerad undersökning

## Träning av social förmåga

**Tabell 3.2.10** Sammanfattande resultat tabell. Effekt av träning av social förmåga jämfört med väntelista hos barn med Aspergers syndrom vid uppföljning efter 5 månader.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt Medelvärde (SD)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Social förmåga (mätt med SSQ-P och ERSSQ)	34 (1 kohortstudie)	<u>SSQ-P</u> Före träning I: 25,30 (7,43) C: 23,16 (9,05) Efter träning I: 38,08 (9,84) C: 25,11 (7,91) Statistiskt signifikant skillnad mellan I och C efter träning till förmån för I  <u>ERSSQ</u> Före träning I: 39,78 (10,17) C: 39,64 (12,52) Efter träning I: 57,38 (13,40) C: 40,14 (10,69) Statistiskt signifikant skillnad mellan I och C efter träning till förmån för I	⊕○○○	En studie [51]

C = Kontrollgrupp (control); ERSSQ = Emotion regulation and social skills questionnaire; I = Behandlingsgrupp (intervention); SD = Standard deviation; SSQP = Social skills questionnaire parent version

## Frågor

1. Ger följande behandlingsmetoder symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos barn, ungdomar eller vuxna med AST:
  - Treatment and Education of Autistic and Communication handicapped Children (TEACCH)
  - Picture Exchange Communication System (PECS)
  - Social skills training/Träning av social förmåga
  - Datorstödd träning
  - Social stories/Sociala berättelser
  - Seriesamtal
  - KAT-kit
  - Autism preschool program
  - Early bird program
  - Specialpedagogik, tydliggörande pedagogik (structured teaching) förutom som ett led i TEACCH-programmet ovan.
2. Ger någon av behandlingsmetoderna ovan biverkningar eller oönskade effekter?

## Inklusionskriterier

Inklusionskriterierna finns angivna tidigare i Kapitel 3.2.

## Resultat av litteratursökningen och urval av studier

Se flödesschema Figur 3.2.1. Vi har inkluderat två studier för TEACCH, en studie var för PECS respektive träning av social förmåga och tre studier för datorstödd träning.

### Faktaruta 3.2.2 Anpassning av miljö och pedagogiska insatser.

#### **Treatment and Education of Autistic and Communication handicapped Children (TEACCH)**

TEACCH är ett program som skapades under sent 1960-tal av Eric Schopler och medarbetare [52]. Programmet innebär en anpassning av miljön och pedagogiska insatser inriktade på kommunikation och sociala färdigheter såsom strukturerade inlärningssituationer, organisation av miljön och användande av tydliga visuella ledtrådar för att minska kommunikationssvårigheter. Även beteendeterapeutisk metodik är inkorporerad. Metoden bygger på ett nära samarbete mellan anhöriga och professionella och att flera yrkeskategorier samverkar.

#### **Picture Exchange Communication System (PECS)**

PECS är skapat av Bondy och medarbetare år 2001 för att utveckla basal kommunikation hos barn och används vid olika former av funktionsnedsättning [53]. Metoden används bl a vid autistiskt syndrom utan språk. Också barn på låg utvecklingsnivå har förutsättningar att delta genom att visa eller sträcka sig efter bilder eller föremål. Vid starten inriktning på något konkret som barnet är motiverat att be om. Barnet styr genom att välja ut och lämna över bild eller föremål och är inte beroende av att en mottagare ser vad man tecknar eller pekar på. Kommunikationssystemet kan vidareutvecklas till användning av många bilder och kan innefatta också svar på frågor och kommentarer (i begränsad omfattning).

#### **Träning av social förmåga**

Det är många olika färdigheter som krävs vid socialt samspel – från basal kommunikation med ögonkontakt, tonläge och turtagning till avancerad förståelse av underliggande budskap, t ex sarkasm. Till de grundläggande svårigheterna vid autismspektrumtillstånd hör oförmåga att lära in sociala färdigheter på ett intuitivt sätt och träning behövs. Detta gäller också vid normal/god begåvning.

Viktiga praktiska hjälpmedel är sociala berättelser (social stories) och seriesamtal. Sociala berättelser används för att ge personer med autistiskt syndrom den information de saknar för att kunna förstå och interagera på ett bra sätt i en social situation [54]. För att utarbeta väl fungerande berättelser krävs analys av personens beteende, bakomliggande orsaker och miljö [55]. Seriesamtal kan tydliggöra ett socialt förlopp med enkla teckningar och text.

Faktarutan fortsätter på nästa sida

### Faktaruta 3.2.2 fortättning

#### **Datorstödd träning**

Det finns många fördelar med att använda datorprogram vid social träning. Arbete med dator har allmänt hög status hos barn och ungdomar, program kan anpassas individuellt och flexibelt, intryck från olika sinnen kan integreras. För personer med AST kan datorprogram vara till extra stor hjälp genom överskådlighet och förutsägbarhet. Möjlighet finns att träna socialt samspel på ett för personen tryggt sätt (t ex genom avatarer, personer/djur som kan interagera med programanvändaren).

### Beskrivning av studier och resultat

#### **TEACCH (Tabell 3.2.11)**

1. Ger TEACCH symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos barn, ungdomar eller vuxna med AST?

I två icke-randomiserade studier med kontrollgrupp, framkom begränsade framsteg för barn som deltagit i TEACCH-program jämfört med andra insatser [48,49].

2. Ger TEACCH biverkningar eller önskade effekter?

Inga studier har kunnat inkluderas.

#### **Picture Exchange Communication System (PECS) (Tabell 3.2.12)**

1. Ger PECS symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos barn, ungdomar eller vuxna med AST?

I en randomiserad kontrollerad studie med totalt 84 barn studerade Howlin och medarbetare effekten av utbildning och handledning i PECS till lärare och föräldrar [50]. Barnen som hade fått tillgång till PECS visade signifikant fler initiativ till kommunikation efter interventionen jämfört med barnen i jämförelsegruppen. Skillnaden kvarstod inte vid uppföljning.

2. Ger PECS biverkningar eller önskade effekter?

Inga studier har kunnat inkluderas.

### **Träning av social förmåga (Tabell 3.2.13)**

1. Ger träning av social förmåga symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos barn, ungdomar eller vuxna med AST?

Beaumont och medarbetare utförde en randomiserad kontrollerad studie med väntelistekontroller [51]. En grupp på 18 barn fick ett träningsprogram som inkluderade datorspel i grupp, föräldraträning och information till lärare. Efter träningen noterade man framsteg enligt föräldraskattning och ett test av förmågan att hantera känslomaterial i denna grupp, jämfört med en lika stor grupp som fick vänta på insatserna.

2. Ger träning av social förmåga biverkningar eller önskade effekter? Inga studier har kunnat inkluderas.

### **Datorstödd träning (Tabell 3.2.14)**

Personer med AST visar nedsatt uppmärksamhet inför ansikten och ansiktsuttryck (speciellt vad gäller ögonen). Ett par forskargrupper har utarbetat program för att förbättra igenkännandet av känslor. Program för "mind reading" är utarbetat av Golan och medarbetare [56]. Vid träning används förmågan att systematisera kunskap som ofta finns hos personer med AST. I en modifierad version används metoden på små barn med förhoppning att tidig intervention ska visa sig ha bättre effekt. Leksaksbilar (the transporters) får mänskliga ansiktsuttryck samtidigt som de följer tydliga överskådliga regler med liten variation [56], (www.thetransporters.com). I en randomiserad studie från år 2010 fick 20 barn i åldern 4–8 år denna träning med stöd från föräldrarna under fyra veckor. Barnen gjorde tydliga framsteg i att uppmärksamma och tyda känslouttryck jämfört med 19 barn med AST som inte fick någon intervention [56].

Tanaka och medarbetare valde ut en grupp som hade tydliga svårigheter att tyda ansiktsuttryck. I en randomiserad studie fick 42 personer träning med speciellt utformade datorspel i 20 timmar och man såg positiv förändring jämfört med en grupp på 37 barn som inte fick någon intervention [57].

I en randomiserad kontrollerad studie av Hopkins och medarbetare försökte man skapa ett mer naturalistiskt program för träning av igenkännande av ansikten och känslouttryck med hjälp av avatrar (som interagerar i dataprogrammet) [58]. Antalet deltagare var 49. Träningen hade positiv effekt på dessa färdigheter och gav också framsteg i social förmåga enligt föräldraskattning och observation.

2. Ger datorstödd träning biverkningar eller önskade effekter? Inga studier har kunnat inkluderas.

### **Övriga behandlingsmetoder**

För följande behandlingsmetoder finns inga studier som uppfyller inklusionskriterierna och som är av minst medelhög studiekvalitet:

- Social stories/Sociala berättelser
- Seriesamtal
- KAT-kit
- Autism preschool program
- Early bird program
- Specialpedagogik, tydliggörande pedagogik (structured teaching) förutom som ett led i TEACCH-programmet.

### **Övriga studier som inte ingår i de evidensbaserade resultaten TEACCH**

Ozonoff och medarbetare publicerade år 1998 en studie där insatser enligt TEACCH under fyra månader hade tydligt god effekt jämfört med en kontrollgrupp [59]. Artikelnen uppfyller inte kriterierna för att inkluderas i den aktuella genomgången pga att man använt ett annat diagnossystem.

Van Bourgondien och medarbetare beskrev hur ett TEACCH-baserat boendeprogram för en grupp på sex personer med medelsvår–svår utvecklingsstörning och autistiskt syndrom hade god effekt på beteende och funktion jämfört med en grupp på 20 personer som hade en annan form av boende [60]. Studiens kvalitet betraktas som låg pga oklarheter kring tillvägagångssättet vid diagnostiseringen.



Gerber och medarbetare jämförde två boendeprogram för vuxna med svår autism och utvecklingsstörning. Tjugo personer fick en TEACCH-baserad verksamhet med strukturerad miljö samt tillgång till kommunikationsträning med PECS efter behov [61]. En jämförelsegrupp på 11 personer fick andra och varierande insatser. Vid bedömning efter två år (eller längre) hade den första gruppen signifikant minskade beteendeproblem och förbättrad livskvalitet.

Welterlin och medarbetare beskrev ett program för hembaserad träning av barn i åldern 2–3 år med autistiskt syndrom. En terapeut träffade barnet och föräldrarna under en och en halv timme per vecka i 12 veckor. Föräldrarna fick en alltmer aktiv roll i träningen av barnet [62]. I denna rapport ingår en randomiserad kontrollerad studie inkluderade 10 barn, som var slumpmässigt utvalda att få träning direkt. Gruppen jämfördes med en matchad kontrollgrupp som först fick en period på väntelista före träningsperiod. Dessutom analyserades utvecklingen hos sex enskilda barn (3 matchade par), så kallad single subject design, med varierande starttid för träning. Vid denna analys noterades tydligt positiv effekt av träningen. På gruppnivå kunde man inte notera några signifikanta skillnader i utvecklingsnivå efter träningen.

### ***Picture Exchange Communication System (PECS)***

Få studier är publicerade som använder PECS och de studier som finns är framför allt fallstudier. Den randomiserade kontrollerade studien av Howlin och medarbetare visade på positiv effekt direkt efter handledning till lärare och föräldrar i PECS-metodik, men inte någon skillnad mot kontrollgrupp på längre sikt [50]. Ytterligare randomiserade studier är utförda av Yoder och medarbetare [63–65]. Barn som fick PECS-träning under sex månader använde fler ord jämfört med annan grupp som fått träning som var mer inriktad på turtagning och lek. Sex månader efter avslutad intervention fanns inte längre någon skillnad (framsteg i båda grupperna). Studien har låg kvalitet pga osäkerhet om hur AST-diagnosen ställdes.

### ***Träning av social förmåga***

Olika metoder har beskrivits för att förmedla sociala färdigheter på ett systematiskt sätt med träning individuellt och/eller i grupp. Få kontrollerade studier är publicerade (översikter t ex [66–68]). Hjälpmedel som har använts är bl a sociala berättelser, modeller för hjälp av jämnåriga kamrater, videospelningar och kognitiv beteendeterapi. Lopata och medarbetare har i en randomiserad kontrollerad studie visat positiva effekter av sex veckor med daglig social träning i en grupp på 18 barn jämfört med 18 barn på väntelista [69]. De studerade effekten av insatsen genom en kombination av skattningsformulär och direkt bedömning av barnets förmågor. Viss oklarhet kring diagnostiken gör att artikeln anses ha låg kvalitet.

### ***Datorstödd träning***

Träning med hjälp av datorprogram används i flera studier. I en studie på vuxna kunde man visa neurofysiologiskt spårbar effekt efter datorstödd träning [70]. För att ha effekt som social träning bör programmen vara möjliga att anpassa individuellt och kunna användas inte bara i undervisningssituation i skolan utan också i hemmet och på fritiden. Svårigheter med generalisering finns vid den här formen av träning liksom vid annan intervention [58,71].

Ramdoss och medarbetare har i två översiktsartiklar gått igenom datorstödd träning där träningen hade som syfte att förbättra kommunikation och underlätta läsinlärning för barn med AST [72,73]. De beskriver lovande resultat men att behov finns av ytterligare studier.

### ***Sammanfattning och diskussion***

Det vetenskapliga underlaget är otillräckligt för nytta och risk med TEACCH, PECS, träning av social förmåga, datorstödd träning, sociala berättelser, seriesamtal, KAT-kit, autism preschool program, early bird program och specialpedagogik (tydliggörande pedagogik förutom som ett led i TEACCH).

Det finns många metoder som är inriktade på anpassning av miljön och pedagogiska insatser för personer med autistiskt syndrom. Metoderna

har stor spridning i skola och habilitering och upplevs för det mesta positivt, t ex att bemötande som bygger på förståelse för en persons svårigheter kan underlätta situationen för personen i fråga. Ett habiliteringsprogram för personer med AST är ofta sammansatt av dessa olika metoder. Det vetenskapliga underlaget är sparsamt för de olika metoderna och i lika hög grad för den samlade habiliteringsinsatsen. Betydande kunskapsluckor finns.

**Table 3.2.11 TEACCH.**

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Panerai et al 2009 [48] Italy	<u>Design</u> CT  <u>Aim</u> To compare, over a period of 3 years, the effectiveness of three different educational approaches addressed to children with autism and severe mental retardation - a TEACCH program in a residential center, a TEACCH program at home and mainstream schools, and a non-specific program	<u>Diagnosis</u> According to DSM-IV-TR, CARS (from moderate to severe autism level), ADI-R (over cut-off for AD)  <u>No of participants</u> 34  <u>Gender</u> 34 boys  <u>Age</u> Primary school age (mean 9 years, SD 2)  <u>IQ</u> Mean mental age in months I1: 20.4 (SD 6.9) I2: 20.6 (SD 9.5) C: 23.7 (SD 10.5)  <u>Other</u> Evaluated at least for a 3-year period with repeated PEP-R and VABS	I1: R-TEACCH, a TEACCH program implemented in a residential center. n=11  I2: NS-TEACCH, a TEACCH program implemented at home and at mainstream schools, natural setting TEACCH. Included parent training. n=13  C: INSP, inclusive nonspecific approach, education in mainstream schools. n=10	<u>Assessments</u> At baseline and after 3 years  <u>Drop-outs</u> Only children with 3 years of follow-up are included in the study. The number of children originally treated is not reported	Evaluation after 3 years compared to baseline  <u>Adaptive functioning</u> <u>VABS composite scale:</u> I1 and I2: Increased level (p=0.02) C: No increase I1 vs I2: ns I1 and I2 vs C: ns  <u>Other</u> PEP-R: Cognitive performances scale: I1 > C (p=0.034), other scales ns Imitation, cognitive performances, and composite scales, developmental age: I2 > C (p<0.005)	Moderate  Services on the basis of applications by parents. Assessments made as part of respective program, blind to the purpose of the study  Positive effect on many areas of the PEP-R, especially for the TEACCH program in natural settings

The table continues on the next page

Table 3.2.11 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Tsang et al 2007 [49] China	<u>Design</u> CT (children randomly allocated to treatment)  <u>Aim</u> To evaluate the Chinese version of the TEACCH program on the learning abilities of pre-school child- ren with autism	<u>Diagnosis</u> Formal diagnose of PDD according to DSM-IV  <u>No of participants</u> 34  <u>Gender</u> 29 boys, 5 girls  <u>Age</u> 3–5 years  <u>IQ</u> I: Mean 60 (SD 11) C: Mean 74 (SD 18)	I: 7 hours of TEACCH training per day. n=18  C: More varied training, not TEACCH. n=16	<u>Assessments</u> At baseline, after 6 and 12 months  <u>Drop-outs</u> I: No drop-outs C: All completed the 6 months assessment, 2/16 the 12 months assessment	Evaluation after 6 months compared to pre-treatment (controlling for age, IQ, and pretest scores)  <u>Adaptive functioning</u> <i>HKBABS composite scale:</i> I had less progress than C (I<C; p: <0.05) Mean difference: I: 4.7 (30.4), p=ns C: -24.5 (33.6), p ≤0.01  <u>Cognition</u> Merrill Palmer: I vs C: ns  <u>Other</u> PEP-R, Chinese version, Composite scale: I vs C: ns	Moderate  I tested also after 12 months of intervention with positive results compared to pretest

AD = Aspergers disorder; ADI-R = Autism diagnostic interview-revised; C = Control group; CARS = Childhood autism rating scale; CT = Controlled trial; DSM-IV = Diagnostic and statistical manual, version IV; DSM-IV-TR = Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth edition, text revision; HKBABS = Hong Kong based adaptive behavioral scales; I = Intervention group; IQ = Intelligence quotient; n = Number of patients; ns = non-significant; p = Probability coefficient; PDD = Pervasive developmental disorders; PEP-R = Psycho-educational profile revised; SD = Standard deviation; TEACCH = Treatment and education of autistic and communication handicapped children; VABS = Vineland adaptive behaviour scales

**Table 3.2.12 PECS.**

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study Quality Comments
Howlin et al 2007 [50] United Kingdom	<p><u>Design</u> RCT. A 3-arm randomised controlled trial</p> <p><u>Aim</u> To determine if expert guidance to teachers in special- ist school settings in the use of PECS led to increases in spontaneous com- munication, PECS use and speech in non-verbal children with ASD</p>	<p><u>Diagnosis</u> Formal clinical diagnosis of autism and to meet criteria for autism or autism spectrum dis- order on the ADOS-G</p> <p><u>No of participants</u> At start 88 children in 18 classes</p> <p><u>Gender (final group)</u> I1: boys n=21, girls n=5 I2: boys n=27, girls n=3 C: boys n=25, girls n=3</p> <p><u>Age</u> 4–11 years; mean 6.9 years</p>	<p>I1: Immediate treatment group. PECS workshop, 13 hours, for teachers, support staff, speech and language therapists and parents. 6 half- day school-based training with expert consultant over 5 months. n=30</p> <p>I2: Delayed treatment group. Treatment as above. n=30 (+ one child at time 2)</p> <p>C: No treatment. n=29</p>	<p><u>Assessments</u> At baseline (time 1), after treatment of I1 (time 2), and after treatment of I2 (time 3)</p> <p><u>Drop-outs (time 3)</u> I1: n=5 I2: n=7 C: n=1</p>	<p><u>Behaviour/observation</u> ADOS-G Communication and reciprocal social interaction. Directly after treatment: ns</p> <p>Videotape of snack-time sessions in classroom (mean 11.1 min) Frequencies of child communication initiations: At time 2: I1&gt;C (p &lt;0.05) At time 3: I2&gt;C (p &lt;0.05) At time 3: I1 vs C: ns</p> <p>Frequencies of using PECS symbols: At time 2: I1&gt;C (p &lt;0.001) At time 3: I2&gt;C (p &lt;0.001) At time 3: I1 vs C: ns</p> <p>Frequencies of speech: ns</p> <p><u>Language</u> EOWPVT: ns BPVS: ns</p>	<p>Moderate</p> <p>A pragmatic intervention trial. The researchers were not blinded to group allocation but totally independent of the intervention itself. A clearly positive effect directly after treatment. This effect not maintain- ed in the group with additional follow-up period in comparison to group without specific guidance. Treatment fidelity not assessed</p>

ADOS-G = Autism diagnostic observation schedule-generic; ASD = Autism spectrum disorder; BPVS = British picture vocabulary scales; C = Control group; EOWPVT = Expressive one word picture vocabulary test; I = Intervention group; IQ = Intelligence quotient; n = Number of patients; ns = Non-significant; p = Probability coefficient; PECS = Picture exchange communication system; RCT = Randomised controlled trial

**Table 3.2.13 Social skills.**

Author Year Reference Country	Study design	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Beaumont et al 2008 [51] Australia	<u>Design</u> RCT, waitlist controls  <u>Aim</u> To investigate the effectiveness of a multi-com- ponent social skills intervention for children with Asperger syndrome	<u>Diagnosis</u> An Asperger syndrome diagnosis confirmed using DSM-IV-TR criteria  <u>No of participants</u> 49  <u>Gender</u> 44 boys, 5 girls  <u>Age</u> 7.5–11 years  <u>IQ</u> >85	I: The Junior Detective Training Program with four components: group training of social skills, parent training, teacher handouts, a computer game. Start with parent information, children and parents then had 7 weekly sessions. follow-up session after 6 weeks.  n=26  C: Waitlist group; then treatment as in I. n=23	<u>Assessments</u> At baseline, post- treatment/postwaitlist and after follow-up for 6 weeks + for both groups follow-up 5 months after com- pletion of treatment  <u>Drop-outs</u> At 5 months post- intervention: I: n=1 C: n=2	<u>Questionnaires</u> SSQ-P (parent form) Pretreatment: I: 25.30 (7.43) C: 23.16 (9.05) Posttreatment: I: 38.08 (9.84) C: 25.11 (7.91)  <u>ERSSQ (parent rating)</u> Pretreatment: I: 39.78 (10.17) C: 39.64 (12.52) Posttreatment: I: 57.38 (13.40) C: 40.14 (10.69)  For SSQ-P and ERSSQ: I: Improvement from pre-to post-treatment (p <0.001) C: no significant improvement Improvement compared to baseline: I>C (significant difference)  <u>Other</u> Test of Emotion management strate- gies (the tests “James” and “Dylan”). I: Improvement from pre-to post- treatment (p <0.001). C: No significant improvement: I>C (significant difference)  Improvements compared to baseline maintained 5 months after treatment (p <0.001)	Moderate  No description of the randomisation process. Waitlist controls

C = Control group; DSM-IV-TR = Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth edition, text revision; ERSSQ = Emotion regulation and social skills questionnaire; I = Intervention group; IQ = Intelligence quotient; p = Probability coefficient; RCT = Randomised controlled trial; SSQP = Social skills questionnaire parent version

**Table 3.2.14** Computer-based training.

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Golan et al 2010 [56] United Kingdom	<p><u>Design</u> RCT (partly); three groups matched for sex, age and verbal ability. Random assignment to I and C1</p> <p><u>Aim</u> To assess whether independent use of computer-based training with an animated series, the Transporters, improves emotion recognition and contextual understanding of emotions in children with autism spectrum conditions, aged 4–7 years</p>	<p><u>Diagnosis</u> I + C1: ASD-diagnosis in specialist centres using DSM-IV criteria</p> <p>I: Diagnosis confirmed using the ADI-R and the CAST</p> <p>C1: Diagnosis confirmed using the CAST</p> <p>C2: Children with typical development; below cut-off for ASD on the CAST</p> <p><u>No of participants</u> 57</p> <p><u>Gender</u> I: 15 boys, 5 girls C1: 15 boys, 4 girls C2: 12 boys, 6 girls</p> <p><u>Age</u> 5.4–6.2 years</p> <p><u>IQ</u> All in mainstream schools</p>	<p>I: Parents given the intervention series and DVD guide to use with their child at home. Children asked to watch at least three training episodes per day over a period of 4 weeks. n=20</p> <p>C1 and C2: No intervention except standard school curriculum. n (C1)=19, n (C2)=18</p>	<p><u>Assessments</u> Baseline (time 1) and after 4 weeks (time 2)</p> <p><u>Drop-outs</u> I: n=0 C1: n=1 C2: n=0</p>	<p><u>Other</u> Emotion vocabulary test</p> <p>Situation-Facial Expression Matching, generalisation Level 1 (familiar situations) Level 2 (novel situations with the Transporters characters) Level 3 (distant generalisations with human non-Transporters faces)</p> <p>At time 1: On all four tasks, C2 significantly better than I and C1; no differences between I and C1</p> <p>At time 2: I: Significant improvement on the four tasks (p &lt; 0.001 for all tests); performance at the level of C2 C1: No significant improvement C2: No difference</p>	<p>Moderate</p> <p>Randomization procedure not described</p> <p>Not possible to distinguish between the effects of the intervention on its own and the effects of parent tutoring</p>

The table continues on the next page

Table 3.2.14 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Hopkins et al 2011 [58] USA	<u>Design</u> RCT  <u>Aim</u> To examine 1) The effect of a computer-based social skills training program on children's emotion and facial recognition skill development, 2) The impact of the intervention on social behaviours in the natural environment	<u>Diagnosis</u> ASD according to DSM-IV, confirmed with the CARS  <u>No of participants</u> 49 completed  <u>Gender</u> 44 boys, 5 girls  <u>Age</u> 6 years and 3 months, 15 years and 1 month  <u>IQ</u> >70 (HFA): n=24 <70 (LFA): n=25	I: Use of a social skills training pro- gram, the FaceSay software, at school with the assistance of investigator for 10–25 minutes twice a week over a period of 6 weeks, a total of 12 ses- sions. n=13 HFA, 11 LFA  C: Use of drawing software for child- ren at school with the assistance of investigator twice a week for 10–25 minutes per session over 6 weeks, a total of 12 sessions. n=11 HFA, 14 LFA	<u>Assessments</u> Baseline and post intervention  <u>Drop-outs</u> n=2 excluded from originally 51 enrolled	<u>Behaviour/observation</u> Social Skills Observation (for two 5-min periods during school recess; blinded assessment) LFA: I>C (p <0.05)  <u>Questionnaires:</u> SSRS (parent-report questionnaire) LFA: I>C (p <0.01) HFA: I>C (p <0.001)  <u>Other</u> Emotion recognition (photographs and schematic drawings): LFA: I>C (p <0.05) HFA: I>C (p <0.001)  Facial recognition The Benton Facial Recognition test (short form): LFA: No significant difference HFA: I>C (p <0.01)	Moderate  The FaceSay contains three different games with realistic avatars designed to teach children specific social skills. The children with ASD enjoyed the programs. Not pos- sible to tell if the skills were generalised to real settings

The table continues on the next page



Table 3.2.14 continued

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Tanaka et al 2010 [57] Canada and USA	<p><u>Design</u> RCT (randomisation stratified by mental age above or below 8 years and diagnosis autistic disorder vs other ASD)</p> <p><u>Aim</u> To assess whether computer-based training will improve face processing abilities in children with autism</p>	<p><u>Diagnosis</u> ASD diagnosis confirmed with ADI-R and ADOS-G</p> <p><u>No of participants</u> 79</p> <p><u>Gender</u> I: 34 boys, 8 girls C: 28 boys, 9 girls</p> <p><u>Age</u> I: 10.5 (3.8) years C: 11.4 (3.7)</p> <p><u>IQ</u> I: 93.6 (22.1) C: 95.9 (23.4)</p>	<p>I: The Let's Face It! Intervention for an average of 20.2 hours over an average period of 19.1 weeks n=42</p> <p>C: Waitlist condition n=19</p>	<p><u>Assessments</u> Baseline and after intervention</p> <p><u>Drop-outs</u> No reported drop-outs</p>	<p><u>Other</u> The Let's Face It! Skills Battery: Subtest for Parts/Whole identity: I&gt;C (p=0.003), other subtests ns</p>	<p>Moderate</p> <p>Measurable improvement after a relatively short training period</p>

ADI-R = Autism diagnostic interview-revised; ADOS-G = Autism diagnostic observation schedule-generic; ASD = Autism spectrum disorder; C = Control group; CARS = Childhood autism rating scale; CAST = Childhood autism spectrum test; DSM-IV = Diagnostic and statistical manual, version IV; HFA = High functioning autism; I = Intervention group; IQ = Intelligence quotient; LFA = Low functioning autism; n = Number of patients; ns = Non significant; p = Probability coefficient; RCT = Randomised controlled trial; SSRS = Social skills rating system

### 3.2.3 Psykologiska och psykoterapeutiska insatser

#### Bakgrund

Flera former av psykoterapi har tidigare använts vid AST, men enligt de aktuella litteratursökningarna är forskningen numera helt inriktad på kognitiv beteendeterapi (KBT) och modifieringar av den. Insatser som bygger på beteendeanalys (ABA, Applied Behaviour Analysis) finns som tidig intervention vid autistiskt syndrom (Avsnitt 3.2.1) men kan också vara del i omhändertagandet vid alla åldrar och utvecklingsnivåer.

Beteendeterapeutiskt baserad träning kan finnas med för att underlätta vid ett speciellt problem även om huvudinsatsen är strukturerad pedagogik och anpassningar av miljön.

#### Evidensgraderade resultat

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (två studier med brister i studiekvalitet och samstämmighet) för att avgöra om kognitiv beteendeterapi ger symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om kognitiv beteendeterapi i kombination med risperidon ger bättre effekt än risperidon, mätt i form av irritabilitet, hyperaktivitet och stereotypa beteenden med Aberrant Behavior Checklist (ABC) (⊕○○○).

#### Sammanfattande resultattabeller

**Tabell 3.2.15** Sammanfattande resultattabell. Effekt av KBT jämfört med väntelistekontroller hos barn med AST vid uppföljning efter 3 månader.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Social förmåga (mätt med SRS)	19 (1 RCT)	Medelvärde (SD) I: 89 (26,39) C: 110,30 (29,22) p <0,05	⊕○○○	En studie [74]

C = Kontrollgrupp (control); I = Behandlingsgrupp (intervention); RCT = Randomiserad kontrollerad undersökning; SRS = Social responsiveness scale

**Tabell 3.2.16** Sammanfattande resultattabell. Effekt av KBT jämfört med väntelistekontroller hos barn med Aspergers syndrom vid uppföljning efter 6 månader.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
llska (mätt med ChIA-P)	45 (1 RCT)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [75]

ChIA-P = Children's inventory of anger, parents form, RCT = Randomiserad kontrollerad undersökning

**Tabell 3.2.17** Sammanfattande resultattabell. Effekt av KBT i kombination med risperidon ger bättre effekt än enbart risperidon hos barn med AST och svåra beteendeproblem vid uppföljning efter 6 månader.

Effektmått (förändring mätt med ABC)	Antal patienter (antal studier)	Effekt	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Irritabilitet		I>C (p=0,01)		
Stereotypa beteenden		I>C (p=0,04)		
Hyperaktivitet	124 (1 RCT)	I>C (p=0,04)	⊕○○○	En studie [76]
Social tillbakadragenhet		Ingen statistiskt signifikant skillnad		

ABC = Aberrant behavior checklist; C = Kontrollgrupp (control); I = Behandlingsgrupp (intervention); p = Statistiskt signifikant; RCT = Randomised controlled trial

### Fråga

Ger kognitiv beteendeterapi eller kognitiv psykoterapi symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos personer med AST?

### Inklusionskriterier

Inklusionskriterierna finns angivna tidigare i Kapitel 3.2.

### Resultat av litteratursökningen och urval av studier

Se flödesschema Figur 3.2.1. Vi har inkluderat tre studier; en studie rörande effekt av KBT på kärnsymtom, en studie av effekt på ilske-reaktioner samt en studie som analyserar hur behov av medicinering påverkas av KBT.

### Faktaruta 3.2.3 Kognitiv beteendeterapi (KBT) och kognitiv psykoterapi (KPT)

Kognitiv beteendeterapi (KBT) och kognitiv psykoterapi (KPT) är samlingsnamn för psykoterapiformer med utgångspunkt i inlärningspsykologi och kognitiv psykologi. Terapin fokuserar på att förändra tankar och synen på sig själv i förhållande till andra, som sedan leder till att man kan ändra vanor och beteenden. På 2000-talet har den så kallade tredje vågens beteendeterapi vuxit fram, med terapiformer som acceptance and commitment therapy (ACT) och dialektisk beteendeterapi (DBT).

### Beskrivning av studier och resultat

#### *KBT och kärnsymtom (Tabell 3.2.18)*

I en studie har man undersökt möjligheten att påverka grundsymtomen på autistiskt syndrom genom KBT. Wood och medarbetare fann i en randomiserad kontrollerad studie att resultaten på ett föräldraskattningsformulär, Social Responsiveness Scale [77], förändrades efter en period med KBT. Det kan tolkas som att grundsymtomen vid autistiskt syndrom kan påverkas [74]. Studien har begränsningar i form av små studiegrupper (9 respektive 10 barn, jämförelsegruppen stod på väntelista och resultatet är begränsat till föräldrarapporter).

#### *KBT och ilska (Tabell 3.2.19)*

En forskargrupp har beskrivit effekten av KBT vid tendens till ilske-reaktioner hos barn med AST. I en randomiserad kontrollerad studie av Sofronoff och medarbetare undersöktes effekten av KBT för att behärska ilska hos barn med AST och hos barn med normal begåvning (ålder 10–14 år) [75]. Man såg en signifikant förbättring i test som mäter strategier att behärska ilska hos den grupp (n=24) som fått behandling, jämfört med den grupp som stod på väntelista (n=21).

#### *KBT och medicinering (Tabell 3.2.20)*

I en randomiserad studie av Aman och medarbetare undersöktes om tillägg av föräldraträning i beteendemodifikation gav ytterligare förbättring vid svåra beteendeproblem vid AST jämfört med enbart medi-

cinering [76]. Totalt deltog 124 barn i åldrarna 4–13 år. Sjuttiofem barn fick kombinerad KBT och medicinering, 55 fullföljde studien under 24 veckor. En grupp på 75 barn fick enbart medicinering, av dessa fullföljde 40 barn studien under 24 veckor. Insättning och titrering av medicinering med i första hand risperidon (i 12 fall ersatt av aripiprazol) skedde på ett systematiskt sätt och oberoende av KBT-behandlingen. Vid bedömning efter 24 veckor var beteendeproblemen signifikant mindre uttalade i gruppen med KBT-behandling i kombination med medicin enligt föräldraskattningarna. Denna grupp hade också lägre medicindos. Däremot fann man inte någon signifikant skillnad i en klinisk intervju inriktad på repetitivt beteende.

### ***Övriga studier som inte ingår i de evidensbaserade resultaten***

En omfattande gren av forskningen om beteendeterapi behandlar förloppet vid träning i enstaka fall eller i små grupper. Denna typ av rapport uppfyller inte inklusionskriterierna för vår genomgång. Frekvensen av ett beteende registreras under basala förhållanden och därefter noteras förändring efter en bestämd insats (ökad frekvens av positivt beteende och omvänt minskad förekomst, när det rör sig om ett oönskat beteende). Studieresultaten framställs ofta grafiskt och överskådligt, se exempel i studierna av Gale och medarbetare samt Girolametto och medarbetare [78,79].

Drahota och medarbetare fann att KBT under tre månader gav förbättring vad gäller dagliga aktiviteter och adaptiv förmåga i en grupp på 27 barn med autistiskt syndrom och ångesttillstånd med normal begåvning och jämfört med 23 i en jämförelsegrupp på väntelista [80].

Scahill och medarbetare presenterade år 2012 en studie [81], med metodik beskriven år 2009 av samma forskargrupp, Aman och medarbetare [76]. Barnen var i åldrarna 4–14 år, 75 barn fick en kombination av medicinering med risperidon och föräldrainsatser, 49 fick enbart medicinering. Studien pågick under 24 veckor. Resultatet var att båda grupperna blev förbättrade i avseende på adaptiv förmåga med viss men måttlig fördel för kombinationsprogrammet.

Frazier och medarbetare gjorde en retrospektiv genomgång av intervention vid aggressivt beteende hos ungdomar med AST. De fann att en kombination med medicinering gav ökad effektivitet av intensiv beteendebehandling i en oselektad klinisk grupp (n=32) [82].

Sung och medarbetare använde ett KBT-program för grupper av barn i Hong kong [83]. I en randomiserad kontrollerad studie deltog 36 barn i ett KBT-program och 34 barn i en jämförelsegrupp. Jämförelsegruppen fick också ett program med sociala aktiviteter och rekreation. Båda grupperna visade förbättring med minskade tecken på ångslan och utan signifikant skillnad mellan grupperna. Detta kan tolkas som att regelbunden och strukturerad aktivitet hade en positiv effekt i båda grupperna. I artikeln framförs också funderingar på att kanske också föräldrainsatser krävs för att KBT-program ska ha full effekt.

### **Sammanfattning och diskussion**

Det vetenskapliga underlaget är otillräckligt för att avgöra om KBT eller KPT ger symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos personer med AST.

Kognitiv beteendeterapi (KBT) används vid t ex depression och ångest hos personer utan funktionsnedsättningar. En modifierad form har utarbetats bl a av Attwood och medarbetare för att passa vid AST, t ex med strategier som inte kräver någon hög nivå av abstrakt språk, med användande av visuellt stöd och sociala berättelser samt med fokus på inläring av sociala färdigheter [84]. Det finns också rapporter som ger stöd för att metodiken kan vara till hjälp vid svårigheter som hör samman med AST, som vid irritation och ilska [75]. Möjligen kan också kärnsymtom påverkas och effekt av samtidig medicinering kan ökas med möjlighet att hålla nere medicindoserna [74,76]. Då det fortfarande endast finns få studier, är det angeläget med fortsatt forskning inom detta område.

**Table 3.2.18** CBT and core symptoms.

Author Year Reference Country	Study design	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Wood et al 2009 [74] USA	<p><u>Design</u> RCT with waitlist comparison group</p> <p><u>Aim</u> To evaluate the effect of a modified family focused CBT program on parent-reported core autism symptoms</p>	<p><u>Diagnosis</u> Research criteria for ASD (including use of the ADI-R and ADOS) and for separation anxiety disorder, social phobia, or obsessive compulsive disorder; 11 participants from study Wood et al 2009 [85] + 8 additional</p> <p><u>No of participants</u> 19</p> <p><u>Gender</u> 16 boys, 3 girls</p> <p><u>Age</u> 7–11 years</p> <p><u>IQ</u> &gt;70</p> <p><u>Other</u> No psychiatric medication or a stable dose</p>	<p>I: CBT (see Wood et al 2009 [85]). n=9</p> <p>C: Waitlist. n=10</p>	<p><u>Assessments</u> I: Baseline and post-treatment, n=9. Follow-up after 3 months, n=4</p> <p>C: Baseline and after 3 months</p> <p><u>Drop-outs</u> No drop-outs during treatment/waitlist period</p>	<p><u>Questionnaires</u> SRS total score Baseline: I: 113 (18.27) C: 116.40 (30.19) Post-treatment: I: 89 (26.39) C: 110.30 (29.22)</p> <p>Improvement I&gt;C (lower SRS total score) (p &lt;0.05)</p> <p>At follow-up 3 months after treatment 4/4 children had lower SRS-scores than at posttreatment. Suggesting that treatment gains had been maintained</p>	<p>Moderate</p> <p>Limitations of study: few participants + parent reports only + waitlist condition</p>

ADI-R = Autism diagnostic interview-revised; ADOS = Autism diagnostic observation schedule; ASD = Autism spectrum disorder; C = Control group; I = Intervention group; IQ = Intelligence quotient; n = Number of patients; p = Probability coefficient; RCT = Randomised controlled trial; SRS = Social responsiveness scale

**Table 3.2.19 CBT and anger.**

Author Year Reference Country	Study design	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Sofronoff et al 2007 [75] Australia	<u>Design</u> RCT with waitlist condition  <u>Aim</u> To evaluate the effectiveness of a CBT intervention for anger management in children with Asperger syndrome	<u>Diagnosis</u> Independent diagnosis of Asperger syndrome + semi-structured interview with parents to establish DSM-IV criteria + CAST-score >15  <u>No of participants</u> 45  <u>Gender</u> 43 boys, 2 girls  <u>Age</u> 10–14 years  <u>IQ</u> I: Mean 105 (22) C: Mean 109 (22)	I: CBT program in 6 group sessions for children, each for 2 h. Parallel parent groups. n=24  C: Waitlist condition. n=21	<u>Assessments</u> At baseline, post intervention or waitlist condition, and at follow-up after 6 weeks  <u>Drop-outs</u> No drop-outs	<u>Questionnaires</u> ChIA-P I: Difference between pre- and post intervention ( $p < 0.0001$ ); I compared to C ns  <u>Other</u> Dylan is being teased (measure of strategies to cope with anger, Attwood, 2004) [84] I: Significant increase in number of strategies between pre- and post intervention ( $p < 0.01$ ), maintained at 6 week follow-up ( $p < 0.05$ ); I > C at post intervention ( $p < 0.01$ )  I: Qualitative teacher reports (not blinded) of change in behaviour or ability to manage anger: Answer yes: n=16 Answer no: n=2	Moderate

C = Control group; CAST = Childhood autism spectrum test; CBT = Cognitive behavioural therapy; ChIA-P = Children's inventory of anger, parent form; DSM-IV = Diagnostic and statistical manual, version IV; h = Hour; I = Intervention group; IQ = Intelligence quotient; n = Number of patients; p = Probability coefficient; RCT = Randomised controlled trial

**Table 3.2.20 CBT and medication.**

Author Year Reference Country	Study design	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Aman et al 2009 [76] USA	<u>Design</u> RCT, multisite parallel-groups trial  <u>Aim</u> To test whether risperidone + parent training in behaviour management would be superior to risperidone alone in children with PDD and serious behaviour problems	<u>Diagnosis</u> PDD according to DSM-IV-TR clinical criteria verified by ADI-R  <u>No of participants</u> 124  <u>Gender</u> 105 boys, 19 girls  <u>Age</u> 4–13 years  <u>IQ</u> >35 or mental age >18 months	I + C: Risperidone treatment. If no positive response by week 8, risperidone was replaced with aripiprazole (for n=12)  I: Combination medication + manualised parent training, mean 10.9 sessions in 24 weeks. n=75  C: Medication only. n=49	<u>Assessments</u> Week 8, 16 and 24  <u>Drop-outs</u> I: n=11 during week 1–8, n=9 during week 9–24 (completed n=55)  C: n=3 during week 1–8, n=6 during week 9–24 (completed n=40)	<u>Questionnaires</u> <u>Parent ratings week 24</u> HSQ severity score (modified form) decline in I>C (p=0.006) ABC Irritability score decline in I>C (p=0.01) ABC stereotypic scores decline in I>C (p=0.04) ABC Hyperactivity scores decline in I>C (p=0.04)  ABC Social Withdrawal and Inappropriate Speech scale – ns  <u>Other</u> Clinicians ratings week 24: CYBOCS-PDD version ns  Dosage risperidone week 24: I<C (p=0.04)  Adverse effects (related to medication): ns	Moderate  This study referred to previous risperidone trials  The primary outcomes were parent ratings. The dosage of medication at post-treatment is an independent measure

ABC = Aberrant behavior checklist; ADI-R = Autism diagnostic interview-Revised; C = Control group; CYBOCS-PDD version = Children's Yale-Brown obsessive-compulsive scale-PDD version; DSM-IV-TR = Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth edition, text revision; ; HSQ = Home situations questionnaire; I = Intervention group; IQ = Intelligence quotient; n = Number of patients; ns = Non significant; p = Probability coefficient; PDD = Pervasive developmental disorders; RCT = Randomised controlled trial

### 3.2.4 Interventioner inriktade på kost

I detta avsnitt har vi utvärderat följande:

- Kostråd, exklusionsdiet, gluten- och kaseinfri diet
- Fettsyratillskott
- Vitamin B<sub>6</sub> och magnesium
- Vitamin B<sub>12</sub>
- Vitamin D
- Probiotika

#### Evidensgraderade resultat

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om gluten- och kaseinfri diet ger bättre effekt än kostråd hos barn med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om tillskott av omega-3 ger bättre effekt än placebo (safflorolja) hos barn med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om tillskott av omega-3 ger bättre effekt än hälsosam diet hos barn med autistiskt syndrom (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om tillskott av vitamin B<sub>12</sub> ger bättre effekt än placebo hos barn med autistiskt syndrom (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för nedanstående behandlingsmetoder för personer med AST (⊕○○○).
  - Vitamin B<sub>6</sub> och magnesium
  - Vitamin D
  - Probiotika.

### Sammanfattande resultattabeller

#### Gluten- och kaseinfri diet

**Tabell 3.2.21** Sammanfattande resultattabell. Effekt av gluten- och kaseinfri diet jämfört med kostråd till föräldrar hos barn med AST vid uppföljning efter 8 och 12 månader.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt Medelvärde	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Kärnsymtom (mätt med ADOS communication)	55 (1 RCT)	8 mån: 0,87 vs 1,07 (p=0,0022) I>C	⊕○○○	En studie [86]
Kärnsymtom (förändring mätt med ADOS social and repetitive score)	55 (1 RCT)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [86]
Social förmåga (mätt med GARS)	55 (1 RCT)	8 mån: 5,88 vs 6,34 12 mån: 5,38 vs 6,00 (p=0,0001) I>C	⊕○○○	En studie [86]
Kommunikation och stereotyp beteende (mätt med GARS)	55 (1 RCT)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [86]

ADOS = Autism diagnostic observation schedule; C = Kontrollgrupp; I = Behandlingsgrupp (intervention); I>C innebär att interventionsgruppen har färre AST-symtom än kontrollgruppen; GARS = Gilliam autism rating scale; p = Probability coefficient; RCT = Randomiserad kontrollerad undersökning



## Omega-3

**Tabell 3.2.22** Sammanfattande resultattabell. Effekt av omega-3 jämfört med placebo (safflorolja) hos barn med AST.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Kommunikation (förändring mätt med Peabody picture vocabulary test och Extensive vocabulary test)	27 (1 RCT)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [87]
Kärnsymtom (förändring mätt med ABC och BASC)	27 (1 RCT)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [87]
Kliniskt globalt intryck (mätt med CGI-I)	27 (1 RCT)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [87]

ABC = Aberrant behavior checklist; BASC = Behavioral assessment system for children; CGI-I = Clinical Global Impression of Improvement; RCT = Randomiserad kontrollerad undersökning

**Tabell 3.2.23** Sammanfattande resultattabell. Effekt av omega-3 jämfört med hälsosam diet hos barn med autistiskt syndrom.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Kärnsymtom (mätt med ADOS)	23 (1 RCT)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [88]

ADOS = Autism diagnostic observation schedule; RCT = Randomiserad kontrollerad undersökning

## Vitamin B12

**Tabell 3.2.24** Sammanfattande resultattabell. Effekt av vitamin B<sub>12</sub> hos barn med AST.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Kommunikation (förändring mätt med Peabody picture vocabulary test och MCDI)	30 (1 RCT)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [89]
Kärnsymtom (förändring mätt med ABC och CARS)	30 (1 RCT)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [89]
Globalt kliniskt intryck (mätt med CGI-I)	30 (1 RCT)	Ingen statistiskt signifikant skillnad	⊕○○○	En studie [89]

ABC = Aberrant behavior checklist; CARS = Childhood autism rating scale; CGI-I = Clinical Global Impression of Improvement; MCDI = MacArthur communicative developmental inventory; RCT = Randomiserad kontrollerad undersökning

## Frågor

1. Ger följande kost eller kosttillskott symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos personer med AST:

- Kostråd, exklusionsdiet, gluten- och kaseinfri diet
- Fettsyratillskott/omega-3-fettsyror
- Vitamin B<sub>6</sub> och magnesium
- Vitamin B<sub>12</sub>
- Vitamin D
- Probiotika

2. Finns det biverkningar associerade med ovanstående behandlingar?

### Faktaruta 3.2.4 Interventioner inriktade på kost.

#### **Kostråd/exklusionsdiet/gluten- och kaseinfri diet**

Bakom dietbehandling vid AST finns en hypotes, att personer med detta tillstånd har otillräcklig nedbrytning av proteinerna gluten, gliadin och kasein i tarmen samt ökad transport över tarmväggen av nedbrytningsprodukter i form av peptider. Hypotesen är att peptiderna förs via blodet till centrala nervsystemet och där påverkar utveckling och beteende. Hypotesen är inte bekräftad i vetenskapliga studier.

#### **Fleromättade fettsyror/omega-3-fettsyror**

Fleromättade fettsyror som omega-3 är viktiga beståndsdelar bl a i cellmembran i nervsystemet. Det finns misstankar om att bristande tillförsel via kosten till små barn kan påverka utvecklingen negativt och förhoppningen är att extra tillförsel kan minska symtom som t ex överaktivt beteende. Många barn med AST får omega-3-preparat som kosttillskott.

#### **Vitamin B<sub>6</sub> och magnesium**

Vitamin B<sub>6</sub>, pyridoxin, har vital betydelse för ämnesomsättningen. Behandling med höga doser B<sub>6</sub> uppgavs i flera studier på 1970- och 1980-talen ha effekt mot en rad olika symtom hos personer med autistiskt syndrom. För att minska sidoeffekterna använder man kombinationsbehandling med magnesium.

#### **Vitamin B<sub>12</sub>**

B<sub>12</sub> är en annan vitamin som har viktig funktion i cellernas ämnesomsättning. Det har också använts för att försöka påverka symtombilden vid autistiskt syndrom.

#### **Vitamin D**

Vitamin D har betydelse för många processer i kroppen inklusive för DNA-reparation; teorier finns om att brist på D-vitamin kan bidra till uppkomst av autistiskt syndrom.

#### **Probiotika**

Probiotika används för att återställa eller utveckla tarmens system av mikrober. Det är en typ av preparat som ofta ingår i den alternativa behandlingen vid AST, med hypotesen att annorlunda tarmfunktion har betydelse för symtombilden.

### Beskrivning av studier och resultat inklusive tabeller

#### **Gluten- och kaseinfri diet (Tabell 3.2.25)**

*Ger gluten- och kaseinfri diet symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos barn, ungdomar eller vuxna med AST?*

En randomiserad kontrollerad studie av Whiteley och medarbetare från Danmark, England samt Norge gav, enligt en föräldraskattning, intryck av att behandlingen har positiv effekt [86]. Möjligheten att dra slutsatser påverkades negativt av stort bortfall. Vid bedömning efter 12 månader hade 12 av ursprungligen 38 barn i gruppen med diet avbrutit sin behandling.

#### **Omega-3-fettsyror (Tabell 3.2.26)**

*Ger tillskott av omega-3-fettsyror symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos barn, ungdomar eller vuxna med AST?*

Bent och medarbetare studerade biverkningar och effekt vid tillförsel av totalt 1 300 mg omega-3-fettsyror (därför eicosapentanoic acid (EPA) 700 mg och docosahexanoic acid (DHA) 460 mg) under 12 veckor till barn med AST i åldern 3–8 år (n=13) [87]. De noterade inte några svåra bieffekter och inte heller någon signifikant förändring i hyperaktivitet eller andra symtom enligt föräldraskattningar och klinisk bedömning jämfört med den grupp som fick placebo (n=12).

Johnson och medarbetare behandlade i en randomiserad studie 10 barn med docosahexanoic acid (DHA), 400 mg per dag, under tre månader [88]. Tretton barn ingick i jämförelsegruppen. De fann ingen positiv effekt av behandlingen och inte heller någon skillnad mellan grupperna vid observation eller enligt föräldrars skattning.

Författarna till båda artiklarna ovan bedömer att deras barngrupper var alltför små för att säkert kunna påvisa eller utesluta effekt av behandlingen.

### **Vitamin B<sub>12</sub> (Tabell 3.2.27)**

*Ger tillskott av vitamin B<sub>12</sub> symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos barn, ungdomar eller vuxna med AST?*

I en pilotstudie genomförde Bertoglio och medarbetare en dubbelblind randomiserad studie där 30 barn med AST behandlades med vitamin B<sub>12</sub> i sex veckor och med placebo i sex veckor [89]. Man kunde inte notera några signifikanta skillnader vid beteendeskattning under perioderna med B<sub>12</sub> respektive placebo.

#### **Övrigt**

Inga studier som uppfyllde inklusionskriterierna kunde identifieras avseende behandling med vitamin B<sub>6</sub> och magnesium, vitamin D eller probiotika.

Nye och medarbetare gjorde en systematisk litteraturgenomgång om kombinationsbehandling med vitamin B<sub>6</sub> och magnesium [90]. De fann inget vetenskapligt stöd för att behandlingen hade effekt vid AST.

### **Övrigt som inte ingår i de evidensgraderade resultaten**

#### ***Exklusionsdiet, gluten- och kaseinfri diet***

Knivsberg och medarbetare beskrev effekten av gluten- och kaseinfri kost i en randomiserad studie, där 10 barn fick diet och 10 barn utgjorde jämförelsegrupp [91,92]. Diagnosen var ställd av oberoende experter, men utan uppgift om vilka diagnoskriterier som använts. Det gör att studien inte uppfyller inklusionskriterierna för vår genomgång. En strukturerad intervju med föräldrarna visade på en signifikant minskning av tecknen på autistiskt syndrom och förbättring av icke-verbal kognitiv förmåga i gruppen som fått dietbehandling jämfört med den andra gruppen. Däremot fanns ingen signifikant skillnad i språkutvecklingen. Författarna bedömde att resultaten var lovande men att det fanns behov av att genomföra en studie med fler barn.

Effektmåtten vid dietbehandling består i hög grad av att föräldrar skattar barnens beteende i olika formulär. Ett studieupplägg med föräldragrupper som själva söker sig till en studie och som inte är blindade vid sin skattning minskar studieresultatens tillförlitlighet. Elder och medarbetare visade i en randomiserad studie att det är möjligt att genomföra

en dietstudie på ett sätt som är blindat också för familjen [93]. Innan studien avslutades blev föräldrarna tillfrågade vilken kost de trodde att respektive barn fått under viss period. Föräldrar till fem barn gissade rätt, i två fall hade föräldrarna ingen åsikt medan föräldrar till sex barn tog fel. Det framkom ingen skillnad i beteende eller symtom på autistiskt syndrom efter sex veckor med diet eller placebo, inte heller skillnad i nivå på peptider i urinen. Seung och medarbetare analyserade videospelningar av en leksituation med barn och föräldrar. De fann ingen förändring under studien i barnens kommunikation. Detsamma gällde för den grupp på sju barn vars föräldrar såg framsteg och för de sex där föräldrar inte uppfattade någon förändring [94].

Företrädare för dietbehandling framför som hypotes, att barn med autistiskt syndrom har otillräcklig nedbrytning av proteinerna gluten, gliadin och kasein i tarmen, och att detta kan avspeglas som avvikande peptidmönster i urinen. Cass och medarbetare kunde inte påvisa någon sådan avvikelse vid en undersökning av urinprover från 65 barn med autistiskt syndrom och med en jämförelsegrupp på 158 barn [95]. I studien blev urinprov undersökta med massspektrometri. Denna forskargrupp drar slutsatsen, att det inte fanns stöd för att använda peptidmönstret i urinen som markör för autistiskt syndrom. Le Couter och medarbetare kom fram till samma resultat i sin studie [96].

Munasinghe och medarbetare har i en randomiserad studie behandlat 43 barn med Peptizyde [97]. Det är en kombination av proteolytiska enzymer som bryter ner proteiner i tarmen. Hypotesen är att barn genom detta ska tåla kost bättre och få minskade kostberoende symtom på AST. Studien kunde inte påvisa någon skillnad i symtombilden under behandling i tremånadersperioder med enzympreparatet jämfört med placebo.

I en systematisk översikt av forskning kring gluten- och kaseinfri diet som bygger på litteratursökning som är genomförd fram till april 2007, fann Millward och medarbetare [98] enbart tre artiklar att studera [91–93]. Materialet bedömdes vara för heterogent för att tillåta en metaanalys och slutsatsen var att det inte fanns vetenskapligt stöd för att behandling med gluten- och kaseinfri diet hade effekt. Ytterligare

en randomiserad studie är publicerad och är inkluderad i vår utvärdering (Tabell 3.2.25).

### ***Fleromättade fettsyror/omega-3-fettsyror***

I en översiktsartikel av Bent och medarbetare blev slutsatsen att det vetenskapliga underlaget är otillräckligt för att kunna säga något om effekten av fleromättade fettsyror vid AST [99]. I denna översikt ingick en enda randomiserad kontrollerad studie [100]. I studien ingick totalt 13 deltagare, och trenden var en förbättring av AST-symtom vid behandling. Skillnaderna var dock inte statistiskt signifikanta. Sedan dess är ytterligare två randomiserade kontrollerade studier publicerade och har inkluderats i den här utvärderingen (Tabell 3.2.26). James och medarbetare har i en Cochrane-rapport kommit fram till samma slutsats som vår översikt, dvs att det idag inte finns stöd i litteraturen till att behandling med omega-3-fettsyror har effekt vid AST [101]. De kommenterar att studier pågår med ett större antal deltagare.

### ***Vitaminer och andra kosttillskott***

Många barn med AST får omfattande kosttillskott. Kunskapsluckorna är stora vad gäller effekt och eventuella biverkningar. Vi fann endast en studie som uppfyllde inklusionskriterierna; en studie av B<sub>12</sub>-behandling (Tabell 3.2.27).

I en retrospektiv, ”naturalistisk” fall–kontrollstudie har Mehl-Madrona och medarbetare jämfört en grupp individer, vars föräldrar önskat behandling på alternativt sätt, med en grupp vars föräldrar önskat sedvanlig medicinering [102]. Fyrtiofyra individer, huvudsakligen barn, behandlades med kosttillskott som innefattande alla kända vitaminer och ett brett spektrum av mineraler och spårämnen. De jämfördes, med så långt möjligt, matchade personer som fått en individuellt inställd medicinering. I båda grupperna såg man tydliga framsteg med samma minskning i poängtal vid bedömning med CARS (Childhood Autism Rating Scale). Man kunde notera vissa fördelar för gruppen som behandlats med kosttillskott mätt med andra skattningsskalor, t ex hade beteendeproblemen minskat i något högre grad enligt föräldraskattningar och det fanns färre rapporter om bieffekter såsom viktuppgång och trötthet. Författarna beskriver att man försökte undvika bias men

att bedömningen inte var blindad och att det var omöjligt att bedöma hur stor betydelse skillnaderna i föräldrarnas engagemang hade för den uppmätta effekten.

Adams och medarbetare publicerade en dubbelblindad randomiserad studie av vitamin- och mineraltillskott under tre månader, till totalt 141 barn och vuxna med autistiskt syndrom [103]. Studiens kvalitet begränsas av att diagnoserna inte var verifierade. Det framkom ingen signifikant skillnad mellan grupperna som fått tillskott respektive placebo vad gällde förändring i tre olika föräldraskattningar av symtombild, vilka gjordes före och efter perioden på tre månader. Däremot noterades mer positivt resultat i behandlingsgruppen än i placebogruppen på en fjärde typ av skattningsformulär. Det fylldes i efter avslutad studie och föräldrarna skulle då gradera en eventuell förändring. På 53 barn i ålder 5–16 år gjordes laboratorieanalyser (blod- och urinprover) före och efter studien och nivåer av olika ämnen jämfördes med motsvarande från en grupp barn utan utvecklingsavvikelse. Författarna noterade att gruppen som helhet hade lägre nivåer än jämförelsegruppen på flera biokemiska markörer vilka blev mer normala efter tiden med tillskott. De påpekade att variationen bland personerna med autistiskt syndrom var stor och att en undergrupp kan ha haft betydande nutritionsproblem och mer tydlig nytta av tillskott till kosten.

### **Sammanfattning och diskussion**

Detta avsnitts systematiska litteraturgenomgång har utvärderat interventioner inriktade på kost och biokemi som används för personer med AST. Av samtliga granskade publikationer har endast ett fåtal uppfyllt inklusionskriterierna och av dessa är det fyra studier som har uppnått medelhög studie kvalitet [86–89]. Vi har inkluderat studier för gluten- och kaseinfri diet (en studie) [86], omega-3 (en studie i jämförelse med placebo i form av safflorolja och en studie i jämförelse med hälsosam diet) [87,88] och vitamin B<sub>12</sub> (en studie) [89]. Detta innebär att det saknas vetenskapligt underlag för bedömning av metoderna.

**Table 3.2.25 Exclusion diet.**

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Whiteley et al 2010 [86] United Kingdom, Denmark, Norway	<u>Design</u> RCT with waitlist comparison group. Randomisation stratified for age and VABS com- posite score  <u>Aim</u> To evaluate the effect of gluten- and casein-free diet on the developmental outcome in children with ASD	<u>Diagnosis</u> Previous diagnose of ASD according to ICD-10 (ADOS and ADI-R completed)  <u>No of participants</u> 73 intended to treat, 55 remaining after 12 months, 35 after 24 months  <u>Gender</u> I: Males 21, females 5 C: Males 28, females 1  <u>Age</u> 4 years–10 year and 11 months  <u>IQ</u> Developmental age >24 months	I: Strict gluten- and casein-free diet. n=38  C: Non-diet group for 12 months, strict gluten- and casein-free diet during months 12 to 24. n=34	<u>Follow up period</u> 24 months  <u>Drop-outs</u> n=73 available for randomisation, 1 drop-out before randomisation  <u>Drop-outs during the first 12 months:</u> I: 11/38 (incl. 4 children because lack of effect) + 1 excluded. C: 4/34 + 1 excluded  <u>Drop-out months 12–24.</u> I: n=8 C: n=12	Assessment at 12 months, difference between groups (I: n=26; C: n=29)  <u>Observation</u> ADOS communication score: I>C (p=0.0022) ADOS social and repetitive scores: ns  <u>Questionnaires (parent reports)</u> GARS social score: I>C (p=0.0001) GARS communication and stereo- typed behaviour: ns  VABS communication and social score: ns VABS daily living: I>C (p=0.02)  For group C (n=17), comparison of assessments at 12 and 24 months (12 months without, 12 months with diet): ADOS, GARS social, VABS, ADHD inattention: no significant changes GARS communication and stereo- typed behaviour: improvement (p=0.03 and 0.02, respectively)	Moderate  Except for the ADOS, outcome data consisted of parent reports (not blinded)  Large drop-out rate; no intended- to-treat-analysis performed

ADHD = Attention deficit hyperactivity disorder; ADI-R = Autism diagnostic interview-Revised; ADOS = Autism diagnostic observation schedule; ASD = Autism spectrum disorder; C = Control group; GARS = Gilliam autism rating scale; I = Intervention group; ICD-10 = International classification of diseases and related health problems, version 10; IQ = Intelligence quotient; n = Number of patients; ns = Non significant; p = Probability coefficient; RCT = Randomised controlled trial; VABS = Vineland adaptive behaviour scales

**Table 3.2.26 Omega 3 fatty acids.**

Author Year Reference Country	Study design	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study Quality Comments
Bent et al 2011 [87] USA	<u>Design</u> RCT  <u>Aim</u> To determine the feasibility and initial safety and efficacy of omega-3 fatty acids for the treatment of hyperactivity and core symptoms in children with ASD	<u>Diagnosis</u> A diagnosis of ASD established by ADOS, SCQ, DSM-IV-TR  <u>No of participants</u> n= 27 randomised  <u>Gender</u> I: Males 13, females 1 C: Males 11, females 2  <u>Age</u> 3–8 years  <u>IQ</u> Non-verbal IQ >50	I: Omega-3 fatty acids 650 mg (including EPA 350 mg and DHA 230 mg) given twice daily for 12 weeks.  n=13  C: Placebo packets with safflower oil twice daily for 12 weeks.  n=12	<u>Assessments</u> Baseline and post-treatment  <u>Drop-outs</u> I: n=1 C: n=1	<u>Questionnaires</u> (completed by parents) ABC: ns BASC: ns  <u>Communication</u> Peabody Picture Vocabulary Test: ns Expressive Vocabulary Test: ns  <u>Other</u> CGI-I: ns  <u>Side effects</u> No serious adverse events; no differences between I and C	Moderate  A pilot study with a relatively small sample size
Johnson et al 2010 [88] USA	<u>Design</u> RCT, pilot study  <u>Aim</u> To investigate the effects of PUFA supplement compared to a healthy low sugar diet	<u>Diagnosis</u> Children with autism, diagnosis based on DSM-IV, ascertained by ADOS  <u>No of participants</u> 23  <u>Gender</u> Not reported  <u>Age</u> I: Mean age 44.7 months (SD 7.63) C: Mean age 38.7 months (SD 8.48)	I: Treatment with the PUFA DHA, omega-3 fatty acid, 400 mg per day for 3 months.  n=10  C: Healthy diet attention control group.  n=13	<u>Assessments</u> Baseline and after 3 months  <u>Drop-outs</u> No drop-outs are reported	<u>Observation/Behaviour</u> Observation during ADOS: ns  <u>Questionnaires</u> CBCL, externalizing factor: improvement for I>C (p=0.027)  CBCL, affective factor: improvement for C>I (p=0.023)  <u>Cognition</u> Mullen's Scales of Early Learning: ns	Moderate  A pilot study with a relatively small sample size

ABC = Aberrant behavior checklist; ADOS = Autism diagnostic observation schedule; ASD = Autism spectrum disorder; BASC = Behavioral assessment system for children; C = Control group; CBCL = Child behavior checklist; CGI-I = Clinical global impression of improvement; DHA = Docosahexanoic acid; DSM-IV = Diagnostic and statistical manual, version IV; DSM-IV-TR = Diagnostic and statistical manual of mental disorders,

fourth edition, text revision; EPA = Eicosapentanoic acid; I = Intervention group; IQ = Intelligence quotient; n = Number of patients; ns = Non significant; p = Probability coefficient; PUFA = Polyunsaturated fatty acid; RCT = Randomised controlled trial; SD = Standard deviation; SCQ = Social communication questionnaire;

**Table 3.2.27** B<sub>12</sub> treatment.

Author Year Reference Country	Study design Aim	Population characteristics	Intervention	Follow up period Drop-out rate	Main results	Study quality Comments
Bertoglio et al 2010 [89] USA	<u>Design</u> RCT, double blind, placebo-controlled, cross-over study  <u>Aim</u> To determine whether methyl B <sub>12</sub> supplements improve behavioural symptoms of autism	<u>Diagnosis</u> Autism according to DSM-IV-TR criteria and ADOS. If diagnostic questions, also ADI-R  <u>No of participants</u> 30  <u>Gender</u> Males 28, females 2  <u>Age</u> 3–8 years  <u>IQ</u> Non-verbal IQ >49	12-week study, either I for 6 weeks followed by C (n=13) or C for 6 weeks followed by I (n=17)  I: Treatment with methyl B <sub>12</sub> , 64.5µg/kg, subcutaneous injec- tion administrated by parents every 3 days  C: Placebo (saline) administrated as I above	<u>Assessments</u> Baseline, 6 weeks and 12 weeks  <u>Drop-out</u> No drop-outs	<u>Communication</u> PPVT-III: ns MCDI: ns  <u>Cognition</u> Stanford Binet: ns  <u>Questionnaires</u> PIA-CV: ns ABC: ns CBCL: ns  <u>Other</u> CARS: ns CGI-I: ns  <u>Side effects</u> No serious adverse events  <u>Other</u> Responders (defined) I: 9 subjects C: 3 subjects	Moderate  Not exactly clear how the statistics was performed. The authors reported that data are analyzed using only those who had placebo first in the placebo group (n=17 out of the 30 total)

ABC = Aberrant behavior checklist; ADI-R = Autism diagnostic interview-revised; ADOS = Autism diagnostic observation schedule; C = Control group; CARS = Childhood autism rating scale; CBCL = Child behavior checklist; CGI-I = Clinical global impression-improvement; DSM-IV-TR = Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth edition, text revision; I = Intervention group; IQ = Intelligence quotient; MCDI = MacArthur communication developmental inventory; n = Number of patients; ns = Non significant; p = Probability coefficient; PIA-CV = Parent interview for autism-clinical; PPVT-III = Peabody picture vocabulary test-third edition; RCT = Randomised controlled trial

### 3.2.5 Övriga interventioner

#### Bakgrund

Många personer med AST beskriver annorlunda upplevelser av sinnesstimuli och många visar avvikelser i motoriken, t ex i form av fascination inför sinnesstimuli och stereotyp motoriskt beteende. Denna kunskap är utgångspunkt för utveckling av en rad olika metoder för behandling av olika symtom. Vissa insatser ansluter till kunskap som gäller för alla oberoende av funktionsnedsättning – t ex att fysisk aktivitet kan ge förbättrat allmäntillstånd. Dessutom finns teorier om att bakomliggande avvikelser i hjärnans funktion kan påverkas genom olika sinnesstimuli och att därigenom symtombilden vid AST kan ändras på ett mera genomgripande sätt. Under senare år har det också framkommit förhoppningar att kunna förändra hjärnans funktion genom neurofysiologisk metodik.

I det här avsnittet behandlas:

- Sensoriskt-motoriska interventioner som sensorisk integrationsterapi (sensory integration therapy)
- Musikterapi
- Transkraniell magnetstimulering (TMS)
- Deep brain stimulation (DBS), vagus nerve stimulation (VNS)

#### Faktaruta 3.2.5 Sensoriskt-motoriska interventioner och interventioner med neurofysiologisk metodik.

##### **Sensorisk integrationsterapi**

Den teoretiska bakgrunden till sensorisk integrationsterapi (sensory integration; SI) är tanken att det går att utveckla förbättrad integration av den information som en individ får från sinnesorganen genom att utsätta honom eller henne för kontrollerade sensoriska stimuli. Genom att nervsystemet får ett bättre modularat sätt att ta hand om information från omgivningen kan individen enligt denna teori utveckla ett mer ändamålsenligt beteende [104].

##### **Musikterapi**

Aktiviteter där musik ingår kan ge möjlighet till kommunikation och interaktion, träning att dela intresse, imitera, improvisera – samtidigt kan det komma in aspekter av sensorisk träning och av att använda starka sidor inom perceptionen för utveckling av andra områden [105].

##### **Transkraniell magnetstimulering (TMS)**

Transkraniell magnetstimulering (TMS) är en neurofysiologisk metod där man med repetitiv stimulering med magnetfält utanför centrala nervsystemet kan förändra funktionen i cortex, t ex öka inhibitionen. Förhoppningar finns att man med TMS ska kunna påverka symtomen vid AST [106].

##### **Deep brain stimulation (DBS), vagus nerve stimulation (VNS)**

Deep brain stimulation (DBS) innebär en elektrisk stimulering av cellkärnor i hjärnan. Det är en neurokirurgisk teknik som används för att påverka motoriska funktionsstörningar (som vid Parkinsons sjukdom) och vid vissa neuropsykiatriska tillstånd (som svåra tvångssyndrom). Vagus nerve stimulation (VNS), en elektrisk stimulering av vagusnerven, används vid terapistolerant epilepsi.



## Evidensgraderade resultat

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för nedanstående behandlingsmetoder för personer med AST (⊕○○○).
  - Sensoriskt-motoriska interventioner som sensorisk integrations-terapi (sensory integration therapy)
  - Musikterapi
  - Transkraniell magnetstimulering (TMS)
  - Deep brain stimulation (DBS), vagus nerve stimulation (VNS)

## Frågor

*Ger följande interventioner inriktade på sensorisk-motorisk funktion och neurofysiologi symtomlindring med avseende på kärnsymtom och/eller associerade problem hos personer med AST?*

- Sensoriskt-motoriska interventioner som sensorisk integrationsterapi (sensory integration therapy)
- Musikterapi
- Transkraniell magnetstimulering (TMS)
- Deep brain stimulation (DBS), vagus nerve stimulation (VNS)

## Inklusionskriterier

Inklusionskriterierna finns angivna i Avsnitt 3.2.6.

## Resultat av litteratursökningen och urval av studier

Inga studier har kunnat inkluderas.

## Beskrivning av studier och resultat

Inga studier uppfyller inklusionskriterierna och är av minst medelhög studiekvalitet.

### *Sensorisk-motorisk intervention*

Massage används vid AST med tanken att det har en lugnande och organiserande effekt på centrala nervsystemet (CNS). I en systematisk översikt sammanfattar Lee och medarbetare att det finns trend för positiv effekt av massage som komplettering till annan terapi men att antalet studier är lågt och med för få deltagare samt att risken för bias är stor [107].

I en randomiserad kontrollerad studie av Pfeiffer och medarbetare jämfördes SI-träning med en finmotoriskt inriktad träning till grupper med 20 respektive 17 barn [108]. Författarna uppfattade att denna pilotstudie visade framkomlig väg för fortsatt forskning om SI och att det också fanns positiva effekter i form av minskad frekvens av manér/stereotyp beteende i gruppen som fick SI-träning. Dock fanns det ingen skillnad i andra utfallsmått.

Lang och medarbetare genomförde en systematisk genomgång av litteratur om SI publicerad fram till våren 2011 [109]. De visade tydligt att det inte fanns någon evidens för att metoden hade effekt vid AST. De påpekade att en del forskare ser en risk att SI-träning på sikt kan ha negativa effekter på barnens utveckling. Genom beteendeproblem kan barnen få uppmärksamhet och tillgång till aktiviteter som är lugnande och enkla (som att gunga). Insatser som inte är funktionella kan ta tid i anspråk och förhindra mer konstruktiv träning.

### *Musikterapi*

Gold och medarbetare sammanfattade år 2006 litteraturen om musikterapi fram till juli 2004 [110]. Resultat från studier med totalt 24 deltagare gav visst stöd för att kommunikationen kan påverkas i positiv riktning. Vi har inte hittat någon senare publicerad litteratur som uppfyller inklusionskriterierna.

I en svensk studie såg Lundqvist och medarbetare positiv effekt av vibroakustisk musik (musik med vibrationer) på självdestruktivt beteende och andra beteendeproblem hos en grupp personer med utvecklingsavvikelse [111]. Rapporten uppfyllde inte inklusionskriterierna för diagnostik. Alla deltagare i studien hade mental retardation och 10 av de 20 deltagarna hade en diagnos inom autismspektrum.

## Sammanfattning och diskussion

Vetenskapligt underlag saknas för sensoriskt-motoriska interventioner, musikterapi, TMS, DBS och VNS vid AST.

## Referenser

1. Helt M, Kelley E, Kinsbourne M, Pandey J, Boorstein H, Herbert M, Fein D. Can children with autism recover? If so, how? *Neuropsychol Rev* 2008;18:339-66.
2. Chawarska K, Klin A, Paul R, Macari S, Volkmar F. A prospective study of toddlers with ASD: short-term diagnostic and cognitive outcomes. *J Child Psychol Psychiatry* 2009;50:1235-45.
3. Szatmari P, Bryson S, Duku E, Vaccarella L, Zwaigenbaum L, Bennett T, Boyle MH. Similar developmental trajectories in autism and Asperger syndrome: from early childhood to adolescence. *J Child Psychol Psychiatry* 2009;50:1459-67.
4. Barn- och ungdomspsykiatrins metoder, En nationell inventering. *Socialstyrelsen*; 2009.
5. Aldred C, Green J, Adams C. A new social communication intervention for children with autism: pilot randomised controlled treatment study suggesting effectiveness. *J Child Psychol Psychiatry* 2004;45:1420-30.
6. Green J, Charman T, McConachie H, Aldred C, Slonims V, Howlin P, et al. Parent-mediated communication-focused treatment in children with autism (PACT): a randomised controlled trial. *Lancet* 2010;375:2152-60.
7. Cohen H, Amerine-Dickens M, Smith T. Early intensive behavioral treatment: replication of the UCLA model in a community setting. *J Dev Behav Pediatr* 2006;27:S145-55.
8. Magiati I, Charman T, Howlin P. A two-year prospective follow-up study of community-based early intensive behavioural intervention and specialist nursery provision for children with autism spectrum disorders. *J Child Psychol Psychiatry* 2007;48:803-12.
9. Remington B, Hastings RP, Kovshoff H, degli Espinosa F, Jahr E, Brown T, et al. Early intensive behavioral intervention: outcomes for children with autism and their parents after two years. *Am J Ment Retard* 2007;112:418-38.
10. Howard JS, Sparkman CR, Cohen HG, Green G, Stanislaw H. A comparison of intensive behavior analytic and eclectic treatments for young children with autism. *Res Dev Disabil* 2005;26:359-83.
11. Eikeseth S, Smith T, Jahr E, Eldevik S. Outcome for children with autism who began intensive behavioral treatment between ages 4 and 7: a comparison controlled study. *Behav Modif* 2007;31:264-78.
12. Kasari C, Freeman S, Paparella T. Joint attention and symbolic play in young children with autism: A randomized controlled intervention study. *J Child Psychol Psychiatry* 2006;47:611-20.
13. Kasari C, Gulsrud AC, Wong C, Kwon S, Locke J. Randomized controlled caregiver mediated joint engagement intervention for toddlers with autism. *J Autism Dev Disord* 2010;40:1045-56.
14. Landa RJ, Holman KC, O'Neill AH, Stuart EA. Intervention targeting development of socially synchronous engagement in toddlers with autism spectrum disorder: A randomized controlled trial. *J Child Psychol Psychiatry* 2011;52:13-21.
15. Oosterling I, Visser J, Swinkels S, Rommelse N, Donders R, Woudenberg T, et al. Randomized controlled trial of the focus parent training for toddlers with autism: 1-year outcome. *J Autism Dev Disord* 2010;40:1447-58.
16. Lovaas OI. Behavioral treatment and normal educational and intellectual functioning in young autistic children. *J Consult Clin Psychol* 1987;55:3-9.
17. McEachin JJ, Smith T, Lovaas OI. Long-term outcome for children with autism who received early intensive behavioral treatment. *Am J Ment Retard* 1993;97:359-72; discussion 73-91.
18. Eikeseth S, Smith T, Jahr E, Eldevik S. Intensive behavioral treatment at school for 4- to 7-year-old children with autism. A 1-year comparison controlled study. *Behav Modif* 2002;26:49-68.
19. Dawson G, Rogers S, Munson J, Smith M, Winter J, Greenson J, et al. Randomized, controlled trial of an intervention for toddlers with autism: the Early Start Denver Model. *Pediatrics* 2010;125:e17-23.
20. Peters-Scheffer N, Didden R, Mulders M, Korzilius H. Low intensity behavioral treatment supplementing preschool services for young children with autism spectrum disorders and severe to mild intellectual disability. *Res Dev Disabil* 2010;31:1678-84.
21. Zachor DA, Ben-Itzhak E, Rabinovich A-L, Lahat E. Change in autism core symptoms with intervention. *Res Autism Spectr Disord* 2007;1:304-17.
22. Zachor DA, Itzhak EB. Treatment approach, autism severity and intervention outcomes in young children. *Res Autism Spectr Disord* 2010;4:425-32.
23. Wieder S, Greenspan SI. Climbing the symbolic ladder in the DIR model through floor time/interactive play. *Autism* 2003;7:425-35.
24. Williams KR. The Son-Rise Program intervention for autism: prerequisites for evaluation. *Autism* 2006;10:86-102.
25. Mazurek MO, Kanne SM, Miles JH. Predicting improvement in social-communication symptoms of autism spectrum disorders using retrospective treatment data. *Res Autism Spectr Disord* 2012;6:535-45.
26. Hayward D, Eikeseth S, Gale C, Morgan S. Assessing progress during treatment for young children with autism receiving intensive behavioural interventions. *Autism* 2009;13:613-33.
27. Rickards AL, Walstab JE, Wright-Rossi RA, Simpson J, Reddihough DS. A randomized, controlled trial of a home-based intervention program for children with autism and developmental delay. *J Dev Behav Pediatr* 2007;28:308-16.
28. Rickards AL, Walstab JE, Wright-Rossi RA, Simpson J, Reddihough DS. One-year follow-up of the outcome of a randomized controlled trial of a home-based intervention programme for children with autism and developmental delay and their families. *Child Care Health Dev* 2009;35:593-602.

29. Sallows GO, Graupner TD. Intensive behavioral treatment for children with autism: four-year outcome and predictors. *Am J Ment Retard* 2005;110:417-38.
30. Smith IM, Koegel RL, Koegel LK, Openden DA, Fossum KL, Bryson SE. Effectiveness of a novel community-based early intervention model for children with autistic spectrum disorder. *Am J Intellect Dev Disabil* 2010;115:504-23.
31. Bryson SE, Koegel RL, Koegel LK, Openden D, Smith IM, Nefdt N. Large scale dissemination and community implementation of Pivotal Response Treatment: Program description and preliminary data. *Res Pract Persons Severe Disab* 2007;32:142-53.
32. Wong VC, Kwan QK. Randomized controlled trial for early intervention for autism: a pilot study of the Autism 1-2-3 Project. *J Autism Dev Disord* 2010;40:677-88.
33. Fernell E, Hedvall Å, Westerlund J, Höglund-Carlsson L, Eriksson M, Barnevik-Olsson M, et al. Early intervention in 208 Swedish preschoolers with autism spectrum disorder. A prospective study. *Res Dev Disabil* 2011;32:2092-101.
34. Eikeseth S, Klintwall L, Jahr E, Karlsson P. Outcome for children with autism receiving early and intensive behavioral intervention in mainstream preschool and kindergarten settings. *Res Autism Spectr Disord* 2012;6:829-35.
35. Kovshoff H, Hastings RP, Remington B. Two-year outcomes for children with autism after the cessation of early intensive behavioral intervention. *Behav Modif* 2011;35:427-50.
36. Kaale A, Smith L, Sponheim E. A randomized controlled trial of preschool-based joint attention intervention for children with autism. *J Child Psychol Psychiatry* 2012;53:97-105.
37. Diggle TTJ, McConachie HHR. Parent-mediated early intervention for young children with autism spectrum disorder. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 2002, Issue 2. Art. No.: CD003496. DOI: 10.1002/14651858.CD003496.
38. Jocelyn LJ, Casiro OG, Beattie D, Bow J, Kneisz J. Treatment of children with autism: a randomized controlled trial to evaluate a caregiver-based intervention program in community day-care centers. *J Dev Behav Pediatr* 1998;19:326-34.
39. Smith T, Groen AD, Wynn JW. Randomized trial of intensive early intervention for children with pervasive developmental disorder. *Am J Ment Retard* 2000;105:269-85.
40. Reichow B, Wolery M. Comprehensive synthesis of early intensive behavioral interventions for young children with autism based on the UCLA young autism project model. *J Autism Dev Disord* 2009;39:23-41.
41. Warren J, Veenstra-Vanderweele Z, Stone W, Bruzek JL, Nahmias AS, Foss-Feig JH, et al. Therapies for children with autism spectrum disorders. Nashville: Vanderbilt Evidence-based Practice Center Nashville, TN under Contract No. 290-2007-10065-1.) AHRQ Publication No. 11-EHC029-EF. Rockville, MD: Agency for Healthcare Research and Quality. April 2011. Available at: [www.effectivehealthcare.ahrq.gov/reports/final.cfm](http://www.effectivehealthcare.ahrq.gov/reports/final.cfm); 2011.
42. Makrygianni MK, Reed P. A meta-analytic review of the effectiveness of behavioural early intervention programs for children with autistic spectrum disorders. *Res Autism Spectr Disord* 2010;4:577-93.
43. Eldevik S, Hastings RP, Hughes JC, Jahr E, Eikeseth S, Cross S. Using participant data to extend the evidence base for intensive behavioral intervention for children with autism. *Am J Intellect Dev Disabil* 2010;115:381-405.
44. Stoelb M, Yarnal R, Miles J, Takahashi TN, Farmer JE, McCathren RB. Predicting responsiveness to treatment of children with autism: a retro-spective study of the importance of physical dysmorphology. *Focus Autism Other Dev Disabilities* 2004;19:66-77.
45. Peters-Scheffer N, Didden R, Korzilius H, Sturmey P. A meta-analytic study on the effectiveness of comprehensive ABA-based early intervention programs for children with Autism Spectrum Disorders. *Res Autism Spectr Disord* 2011;5:60-9.
46. Eldevik S, Hastings RP, Hughes JC, Jahr E, Eikeseth S, Cross S. Meta-analysis of Early Intensive Behavioral Intervention for children with autism. *J Clin Child Adolesc Psychol* 2009;38:439-50.
47. Drew A, Baird G, Baron-Cohen S, Cox A, Slonims V, Wheelwright S, et al. A pilot randomised control trial of a parent training intervention for pre-school children with autism. Preliminary findings and methodological challenges. *Eur Child Adolesc Psychiatry* 2002;11:266-72.
48. Panerai S, Zingale M, Trubia G, Finocchiaro M, Zuccarello R, Ferri R, Elia M. Special education versus inclusive education: the role of the TEACCH program. *J Autism Dev Disord* 2009;39:874-82.
49. Tsang SK, Shek DT, Lam LL, Tang FL, Cheung PM. Brief report: application of the TEACCH program on Chinese preschool children with autism – Does culture make a difference? *J Autism Dev Disord* 2007;37:390-6.
50. Howlin P, Gordon RK, Pasco G, Wade A, Charman T. The effectiveness of Picture Exchange Communication System (PECS) training for teachers of children with autism: a pragmatic, group randomised controlled trial. *J Child Psychol Psychiatry* 2007;48:473-81.
51. Beaumont R, Sofronoff K. A multi-component social skills intervention for children with Asperger syndrome: the Junior Detective Training Program. *J Child Psychol Psychiatry* 2008;49:743-53.
52. Mesibov G, Shea V, Schopler E. *The TEACCH Approach to Autism Spectrum Disorders*. New York: Springer Science + Business Media; 2005.
53. Bondy A, Frost L. The picture exchange communication system. *Behav Modif* 2001;25:725-44.
54. Gray CA. Social stories and comic strip conversations with students with Asperger syndrome and high-functioning autism. In: *Asperger syndrome or high-functioning*

- autism? New York: Plenum Press; 1998. p. 167-98.
55. Kokina A, Kern L. Social Story interventions for students with autism spectrum disorders: a meta-analysis. *J Autism Dev Disord* 2010;40:812-26.
56. Golan O, Ashwin E, Granader Y, McClintock S, Day K, Leggett V, Baron-Cohen S. Enhancing emotion recognition in children with autism spectrum conditions: an intervention using animated vehicles with real emotional faces. *J Autism Dev Disord* 2010;40:269-79.
57. Tanaka JW, Wolf JM, Klaiman C, Koenig K, Cockburn J, Herlihy L, et al. Using computerized games to teach face recognition skills to children with autism spectrum disorder: the Let's Face It! program. *J Child Psychol Psychiatry* 2010;51:944-52.
58. Hopkins IM, Gower MW, Perez TA, Smith DS, Amthor FR, Casey Wimsatt F, Biasini FJ. Avatar assistant: Improving social skills in students with an ASD through a computer-based intervention. *J Autism Dev Disord* 2011;41:1543-55.
59. Ozonoff S, Cathcart K. Effectiveness of a home program intervention for young children with autism. *J Autism Dev Disord* 1998;28:25-32.
60. Van Bourgondien ME, Reichle NC, Schopler E. Effects of a model treatment approach on adults with autism. *J Autism Dev Disord* 2003;33:131-40.
61. Gerber F, Bessero S, Robbiani B, Courvoisier DS, Baud MA, Traoré MC, et al. Comparing residential programmes for adults with autism spectrum disorders and intellectual disability: outcomes of challenging behaviour and quality of life. *J Intellect Disabil Res* 2011;55:918-32.
62. Welterlin A, Turner-Brown LM, Harris S, Mesibov G, Delmolino L. The home TEACCHing program for toddlers with autism. *J Autism Dev Disord* 2011; 1-9.
63. Yoder P, Stone WL. A randomized comparison of the effect of two prelinguistic communication interventions on the acquisition of spoken communication in preschoolers with ASD. *J Speech Lang Hear Res* 2006;49:698-711.
64. Yoder P, Stone WL. Randomized comparison of two communication interventions for preschoolers with autism spectrum disorders. *J Consult Clin Psychol* 2006;74:426-35.
65. Yoder PJ, Lieberman RG. Brief report: randomized test of the efficacy of picture exchange communication system on highly generalized picture exchanges in children with ASD. *J Autism Dev Disord* 2010;40:629-32.
66. Cappadocia MC, Weiss JA. Review of social skills training groups for youth with Asperger Syndrome and High Functioning Autism. *Res Autism Spectr Disord* 5:70-78.
67. Kagohara DM. Is video-based instruction effective in the rehabilitation of children with autism spectrum disorders? *Dev Neurorehabil* 2010;13:129-40.
68. Wang P, Spillane A. Evidence-based social skills interventions for children with autism: A meta-analysis. *Educ Train Dev Disabil* 2009;44:318-42.
69. Lopata C, Thomeer ML, Volker MA, Toomey JA, Nida RE, Lee GK, et al. RCT of a manualized social treatment for high-functioning autism spectrum disorders. *J Autism Dev Disord* 2010;40:1297-310.
70. Faja S, Webb SJ, Jones E, Merkle K, Kamara D, Bavaro J, et al. The effects of face expertise training on the behavioral performance and brain activity of adults with high functioning autism spectrum disorders. *J Autism Dev Disord* 2012;42:278-93.
71. Ohrstrom P. Helping autism-diagnosed teenagers navigate and develop socially using e-learning based on mobile persuasion. *International Review of Research in Open and Distance Learning* 2011;12: 54-71.
72. Ramdoss S, Lang R, Mulloy A, Franco J, O'Reilly M, Didden R, Lancioni G. Use of computer-based interventions to teach communication skills to children with autism spectrum disorders: A systematic Review. *J Behav Educ* 2011;20:55-76.
73. Ramdoss S, Mulloy A, Lang R, O'Reilly M, Sigafoos J, Lancioni G, et al. Use of computer-based interventions to improve literacy skills in students with autism spectrum disorders: A systematic review. *Res Autism Spectr Disord* 2011; 5:1306-18.
74. Wood JJ, Drahota A, Sze K, Van Dyke M, Decker K, Fujii C, et al. Brief report: effects of cognitive behavioral therapy on parent-reported autism symptoms in school-age children with high-functioning autism. *J Autism Dev Disord* 2009;39:1608-12.
75. Sofronoff K, Attwood T, Hinton S, Levin I. A randomized controlled trial of a cognitive behavioural intervention for anger management in children diagnosed with Asperger syndrome. *J Autism Dev Disord* 2007;37:1203-14.
76. Aman MG, McDougle CJ, Scahill L, Handen B, Arnold LEA, Johnson C, et al. Medication and parent training in children with pervasive developmental disorders and serious behavior problems: Results from a randomized clinical trial. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 2009;48:1143-54.
77. Constantino JN. Social responsiveness scale (SRS): Western Psychological Services; 2005.
78. Gale CM, Eikeseth S, Rudrud E. Functional assessment and behavioural intervention for eating difficulties in children with autism: A study conducted in the natural environment using parents and ABA tutors as therapists. *J Autism Dev Disord* 2011;41:1383-96.
79. Girolametto L, Sussman F, Weitzman E. Using case study methods to investigate the effects of interactive intervention for children with autism spectrum disorders. *J Commun Disord* 2007;40:470-92.
80. Drahota A, Wood JJ, Sze KM, Van Dyke M. Effects of cognitive behavioral therapy on daily living skills in children with high-functioning autism and concurrent anxiety disorders. *J Autism Dev Disord* 2011;41:257-65.
81. Scahill L, McDougle CJ, Aman MG, Johnson C, Handen B, Bearss K, et al. Effects of risperidone and parent training on adaptive functioning in children with pervasive developmental disorders and serious behavioral problems. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 2012;51:136-46.
82. Frazier TW, Youngstrom EA, Haycock T, Sinoff A, Dimitriou F,

- Knapp J, Sinclair L. Effectiveness of medication combined with intensive behavioral intervention for reducing aggression in youth with autism spectrum disorder. *J Child Adolesc Psychopharmacol* 2010;20:167-77.
83. Sung M, Ooi YP, Goh TJ, Pathy P, Fung DSS, Ang RP, et al. Effects of cognitive-behavioral therapy on anxiety in children with autism spectrum disorders: A randomized controlled trial. *Child Psychiatry Hum Dev* 2011;42:634-49.
84. Attwood T. Cognitive behaviour therapy for children and adults with Asperger's syndrome. *Behav Change* 2004;21:147-61.
85. Wood JJ, Drahota A, Sze K, Har K, Chiu A, Langer DA. Cognitive behavioral therapy for anxiety in children with autism spectrum disorders: a randomized, controlled trial. *J Child Psychol Psychiatry* 2009;50:224-34.
86. Whiteley P, Haracopos D, Knivsberg AM, Reichelt KL, Parlar S, Jacobsen J, et al. The ScanBrit randomised, controlled, single-blind study of a gluten- and casein-free dietary intervention for children with autism spectrum disorders. *Nutr Neurosci* 2010;13:87-100.
87. Bent S, Bertoglio K, Ashwood P, Bostrom A, Hendren RL. A pilot randomized controlled trial of omega-3 fatty acids for autism spectrum disorder. *J Autism Dev Disord* 2011;41:545-54.
88. Johnson CR, Handen BL, Zimmer M, Sacco K. Polyunsaturated fatty acid supplementation in young children with autism. *J Dev Phys Disabil* 2010;22:1-10.
89. Bertoglio K, Jill James S, Deprey L, Brule N, Hendren RL. Pilot study of the effect of methyl B12 treatment on behavioral and biomarker measures in children with autism. *J Altern Complementary Med* 2010;16:555-60.
90. Nye C, Brice A. Combined vitamin B6-magnesium treatment in autism spectrum disorder. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 2005, Issue 4. Art. No.: CD003497. DOI: 10.1002/14651858.CD003497.pub2.
91. Knivsberg AM, Reichelt KL, Høien T, Nodland M. A randomised, controlled study of dietary intervention in autistic syndromes. *Nutr Neurosci* 2002;5:251-61.
92. Knivsberg A-M, Reichelt K-L, Høien T, Nødland M. Effect of a dietary intervention on autistic behavior. *Focus Autism Other Dev Disab* 2003;18:247-56.
93. Elder JH, Shankar M, Shuster J, Theriaque D, Burns S, Sherrill L. The gluten-free, casein-free diet in autism: results of a preliminary double blind clinical trial. *J Autism Dev Disord* 2006;36:413-20.
94. Seung H, Rogalski Y, Shankar M, Elder J. The gluten- and casein-free diet and autism: Communication outcomes from a preliminary double-blind clinical trial. *J Med Speech Lang Pathol* 2007;15:337-45.
95. Cass H, Gringras P, March J, McKendrick I, O'Hare AE, Owen L, Pollin C. Absence of urinary opioid peptides in children with autism. *Arch Dis Child* 2008;93:745-50.
96. Le Couter A, Trygstad O, Evered C. Infantile autism and urinary excretion of peptides and protein-associated peptide complexes. *J Autism Dev Disord* 1988;18:181-90.
97. Munasinghe SA, Oliff C, Finn J, Wray JA. Digestive enzyme supplementation for autism spectrum disorders: a double-blind randomized controlled trial. *J Autism Dev Disord* 2010;40:1131-8.
98. Millward C, Ferriter M, Calver SJ, Connell-Jones GG. Gluten- and casein-free diets for autistic spectrum disorder. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 2008, Issue 2. Art. No.: CD003498. DOI: 10.1002/14651858.CD003498.pub3.
99. Bent S, Bertoglio K, Hendren RL. Omega-3 fatty acids for autistic spectrum disorder: A systematic review. *J Autism Dev Disord* 2009;39:1145-54.
100. Amminger GP, Berger GE, Schafer MR, Klier C, Friedrich MH, Feucht M. Omega-3 fatty acids supplementation in children with autism: a double-blind randomized, placebo-controlled pilot study. *Biol Psychiatry* 2007;61:551-3.
101. James S, Montgomery P, Williams K. Omega-3 fatty acids supplementation for autism spectrum disorders (ASD). *Cochrane Database of Systematic Reviews* 2011, Issue 11. Art. No.: CD007992. DOI: 10.1002/14651858.CD007992.pub2.
102. Mehl-Madrona L, Leung B, Kennedy C, Paul S, Kaplan BJ. Micro-nutrients versus standard medication management in autism: a naturalistic case-control study. *J Child Adolesc Psychopharmacol* 2010;20:95-103.
103. Adams JB, Audhya T, McDonough-Means S, Rubin RA, Quig D, Geis E, et al. Effect of a vitamin/mineral supplement on children and adults with autism. *BMC Pediatr* 2011;11:111
104. Baranek GT. Efficacy of sensory and motor interventions for children with autism. *J Autism Dev Disord* 2002;32:397-422.
105. Lim HA. Effect of 'Developmental speech and language training through music' on speech production in children with autism spectrum disorder. *J Music Ther* 2010;47:2-26.
106. Baruth JM, Casanova MF, El-Baz A, Horrell T, Mathai G, Sears L, Sokhadze E. Low-frequency repetitive transcranial magnetic stimulation modulates evoked-gamma frequency oscillations in autism spectrum disorder. *J Neurother* 2010;14:179-94.
107. Lee MS, Kim JI, Ernst E. Massage therapy for children with autism spectrum disorders: a systematic review. *J Clin Psychiatry* 2011;72:406-11.
108. Pfeiffer BA, Koenig K, Kinnealey M, Sheppard M, Henderson L. Effectiveness of sensory integration interventions in children with autism spectrum disorders: a pilot study. *Am J Occup Ther* 2011;65:76-85.
109. Lang R, O'Reilly M, Healy O, Rispoli M, Lydon H, Streusand W, et al.

Sensory integration therapy for autism spectrum disorders: A systematic review. Res Autism Spectr Dis 2012;6:1004-18.

110. Gold C, Wigram T, Elefant C. Music therapy for autistic spectrum disorder. Cochrane Database of Systematic Reviews 2006, Issue 2. Art. No.:

CD004381. DOI: 10.1002/14651858.CD004381.pub2.

111. Lundqvist L-O, Andersson G, Viding J. Effects of vibroacoustic music on challenging behaviors in individuals with autism and developmental disabilities. Res Autism Spectr Dis 2009;3:390-400.

### 3.3 Läkemedelsbehandling med risperidon vid AST

#### Slutsats

- ❑ **Läkemedelsbehandling med risperidon minskar allvarliga beteendestörningar som aggressivitet och självdestruktivt beteende hos personer med autismspektrumtillstånd.** Hos barn med autistiskt syndrom ger korttidsbehandling (2 månader) med risperidon en begränsat bättre effekt än placebo på svåra beteendestörningar som social tillbakadragenhet, hyperaktivitet och stereotypa beteenden. En vanlig biverkning är viktuppgång.

#### Bakgrund

Idag finns det inte något specifikt läkemedel utvecklat mot bristande social samspelefförståelse och bristande verbal och icke-verbal kommunikation vid autismspektrumtillstånd (AST). Läkemedelsbehandling vid AST används för behandling av utagerande beteenden av olika slag och för att dämpa stereotypa beteenden. I första hand används andra generationens antipsykotiska läkemedel (SGA). I denna läkemedelsgrupp finns för närvarande bara risperidon registrerat hos Läkemedelsverket för behandling av allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom.

#### Evidensgraderade resultat

##### Effekt

##### *Barn och ungdomar*

- Det finns måttligt starkt vetenskapligt underlag för att korttidsbehandling (2 månader) med risperidon, i jämförelse med placebo, ger bättre effekt i form av förbättringar avseende social tillbakadragenhet, hyperaktivitet och stereotypa beteenden mätt med Aberrant Behavior Checklist (ABC) hos barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom (⊕⊕⊕○).
- Det finns begränsat vetenskapligt underlag för att korttidsbehandling (2 månader) med risperidon, i jämförelse placebo, ger begränsat bättre effekt i form av förbättringar avseende irritabilitet och olämpligt

språk mätt med Aberrant Behavior Checklist (ABC) hos barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom (⊕⊕○○).

- Det finns begränsat vetenskapligt underlag för att risperidon, i jämförelse med placebo, ger bättre effekt i form av förbättringar mätt med globalt kliniskt intryck (CGI) hos barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom (⊕⊕○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för bedöma om behandling med risperidon av barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom ger bättre effekt än placebo avseende kärnsymtom mätt med Childhood Autism Rating Scale (CARS) (⊕○○○).

#### Vuxna

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om behandling med risperidon, i jämförelse med placebo, ger bättre effekt i form av förbättringar avseende globalt kliniskt intryck (CGI) hos vuxna med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom (⊕○○○).

### Biverkningar

#### Barn och ungdomar

- Det finns måttligt starkt vetenskapligt underlag för att risperidon, i jämförelse med placebo, ger en viktuppgång (cirka 2 kg) hos barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom (⊕⊕⊕○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att risperidon, i jämförelse med placebo, ger ökad somnolens (nedsatt vakenhetsgrad) hos barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom<sup>1</sup> (⊕○○○).

<sup>1</sup> Det är visat på andra patientgrupper att denna typ av läkemedel ger biverkningar.

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om risperidon, i jämförelse med placebo, inte ger ökad risk för extrapyramidala biverkningar hos barn och ungdomar med allvarliga beteendestörningar vid autistiskt syndrom (⊕○○○).

#### Vuxna

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (en studie) för att avgöra om risperidon, i jämförelse med placebo, ger biverkningar hos vuxna med allvarliga beteendestörningar vid AST (⊕○○○).

**Tabell 3.3.1** Sammanfattande resultattabell. Effekt av behandling med risperidon jämfört med placebo.

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt (95% KI)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
<b>Effekt</b>				
Irritabilitet (förändring mätt med ABC)	178 (2 RCT)	Skillnad i medelvärde -8,09 (12,99;3,19)	⊕⊕○○	Oprecisa data* (-1) Studiekvalitet <sup>a</sup> (-1) [1,2]
Socialt tillbakadragen (förändring mätt med ABC)	178 (2 RCT)	Skillnad i medelvärde -3,00 (5,03;0,97)	⊕⊕⊕○	Studiekvalitet <sup>a</sup> (-1) [1,2]
Hyperaktivitet (förändring mätt med ABC)	178 (2 RCT)	Skillnad i medelvärde -8,98 (-12,01;5,94)	⊕⊕⊕○	Studiekvalitet <sup>a</sup> (-1) [1,2]
Stereotypa beteenden (förändring mätt med ABC)	178 (2 RCT)	Skillnad i medelvärde -1,71 (-2,41;0,45)	⊕⊕⊕○	Studiekvalitet <sup>a</sup> (-1) [1,2]

Tabellen fortsätter på nästa sida

Tabell 3.3.1 fortsättning

Effektmått	Antal patienter (antal studier)	Effekt (95% KI)	Vetenskapligt underlag	Kommentarer Referens
Olämpligt språk (förändring mätt med ABC)	178 (2 RCT)	Skillnad i medelvärde -1,93 (-3,79;0,07)	⊕⊕○○	Oprecisa data** (-1) Studiekvalitet <sup>a</sup> (-1) [1,2]
Globalt kliniskt intryck (CGI)	208 (3 RCT)	RR 4,83 (2,21;10,59)	⊕⊕○○	Oprecisa data*** (-1) Studiekvalitet <sup>a</sup> (-1) [1-3]
Kärnsymtom (förändring mätt med CARS)	40 (1 RCT)	20% förbättring	⊕○○○	En studie [4]
<b>Biverkningar</b>				
Viktökning	179 (2 RCT)	+1,78 kg (1,15;2,41)	⊕⊕⊕○	Studiekvalitet <sup>a</sup> (-1) [1,2]

<sup>a</sup> Oklar redovisning av den valbara populationen före randomisering. Inga powerberäkningar redovisade. Stort bortfall (356).

\* I<sup>2</sup>=78%

\*\* I<sup>2</sup>=76%

\*\*\* I<sup>2</sup>=43%

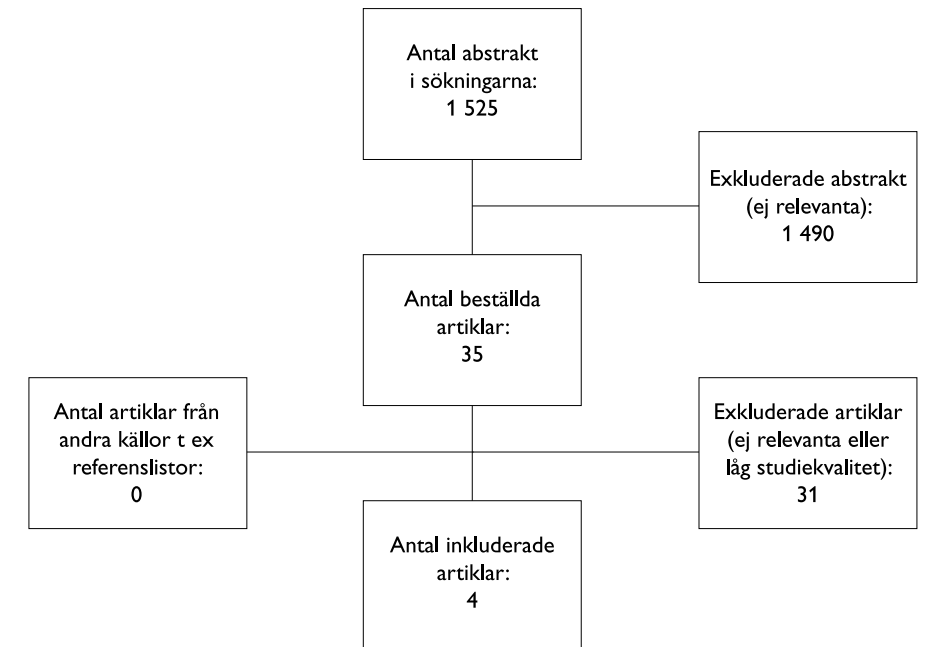
ABC = Aberrant behavior checklist; CGI = Clinical global impression; KI = Konfidensintervall; RCT = Randomiserad kontrollerad undersökning

## Frågor

1. Ger behandling med risperidon, jämfört med placebobehandling, symtomlindring avseende allvarlig beteendestörning hos personer med AST?
2. Vilka biverkningar får personer med AST vid behandling med risperidon, jämfört med placebobehandling?

## Metod för litteratursökning och urval av studier

Sökningarna som redovisas i Bilaga 1 på SBU:s webbplats [www.sbu.se/215](http://www.sbu.se/215) gav 1 525 abstrakt. Flödesschemat i Figur 3.3.1 sammanställer det totala antalet abstrakt, antalet artiklar som beställdes i fulltext och antalet artiklar som slutligen inkluderades i granskningen.



Figur 3.3.1 Flödesschema för litteratursökning och granskningsprocess.



## Resultat av litteratursökningen

Vuxna med autistiskt syndrom inkluderades i en randomiserad kontrollerad studie där behandling med risperidon jämfördes med placebo [3]. Utfallet mättes bl a med Aberrant Behavior Checklist<sup>2</sup> (ABC) och Clinical Global Impression-Improvement<sup>3</sup> (CGI-I) [5]. Uppföljningstiden var 12 veckor. Åtta av 14 patienter i behandlingsgruppen uppnådde signifikant behandlingseffekt jämfört med ingen av de 16 patienterna i placebogrupper. Det var främst med avseende på stereotyp beteende och aggressivt utagerade beteende. Behandlingsgruppen visade en tydlig allmän klinisk förbättring jämfört med placebogrupper enligt CGI-I. Studien ingår som en av flera delstudier publicerad av forskargruppen RUPP (Research Units on Pediatric Psychopharmacology autism network) [3]. Även studien av McCracken och medarbetare ingår i denna nätverksgrupp [1].

En randomiserad kontrollerad multicenterstudie, där risperidon jämfördes med placebo, följdes efter åtta veckor av en öppen studie under fyra månader [1]. Patientgruppen var barn och ungdomar med autistiskt syndrom i åldern 5–17 år och alla hade en mental utvecklingsnivå motsvarande åtminstone 18 månaders ålder. Utfallsmått var enligt ABC och CGI-I [6]. Behandlingsgruppen uppnådde signifikant bättre effekt enligt ABC med avseende på irritabilitet, hyperaktivitet och stereotypa beteenden och enligt CGI-I vad gäller allmänt förbättrat kliniskt intryck jämfört med placebo. Frekvensen biverkningar var signifikant högre, främst viktökning, för behandlingsgruppen jämfört med placebogrupper.

<sup>2</sup> The Aberrant Behavior Checklist (ABC) är en skattningsskala utvecklad för att mäta beteendeproblem hos barn och vuxna med mental retardation från 6 till 54 års ålder. Skattningsskalan består av 58 frågor fördelade på delskalorna: 1 irritabilitet och agitation, 2 letargi och social tillbakadragenhet, 3 stereotypt beteende, 4 hyperaktivitet och dålig följsamhet samt 5 olämpligt tal.

<sup>3</sup> Clinical Global Impression-Improvement (CGI-I) är en 7-gradig skattningsskala för övergripande klinisk bedömning av psykiskt status före och efter en intervention: 1 väldigt mycket förbättrad, 2 mycket förbättrad, 3 lite förbättrad; 4 ingen förändring, 5 lite försämrad, 6 mycket försämrad eller 7 väldigt mycket försämrad.

En kanadensisk randomiserad kontrollerad multicenterstudie jämförde risperidonbehandling med placebo [2]. Patientgruppen utgjordes av barn med autistiskt syndrom i åldern 5–12 år. Utfallsmått var bl a enligt ABC, CGI-Change och CGI-C. De som hade behandlats med risperidon uppnådde signifikant bättre utfall enligt ABC med avseende på irritabilitet och hyperaktivitet samt allmänt förbättrat kliniskt intryck enligt (CGI-C). De hade dock signifikant fler biverkningar jämfört med de placebobehandlade barnen.

Risperidon jämfördes med placebo i en dubbelblind randomiserad kontrollerad studie från Indien [4]. Utfallsmått var Childhood Autism Rating Scale (CARS) och Children's Global Assessment Scale (C-GAS). Efter sex månader hade barnen i försöksgruppen signifikant bättre utfall enligt båda skattningsskalorna jämfört med de placebobehandlade barnen. Det fanns inga signifikanta skillnader avseende biverkningar.

### Syntes av resultat

Tre av de inkluderade studierna ingår även i en systematisk Cochrane-översikt [7]. I översikten finns metaanalyser för effektmått ABC [1,2], CGI [1–3] och viktuppgång [1–3]. Vi har valt att använda resultaten från dessa metaanalyser eftersom de baseras på samma studier som vi har inkluderat (Tabell 3.3.1). I metaanalysen för CGI är det viktigt att notera att man har lagt samman studier på barn [1,2] med studier på vuxna [3]. Den fjärde studien har använt andra effektmått och kan därför inte läggas samman med övriga studier [4].

## Diskussion

Tre studier tillämpar till viss del samma utfallsmått, dvs ABC [1–3]. Ett gemensamt resultat för samtliga tre studier är att risperidon förefaller ha en statistiskt signifikant men begränsad effekt på svåra beteendestörningar. Den fjärde studien [4] tillämpar andra utfallsmått och är därför svårare att jämföra med de tre förstnämnda studierna [1–3]. Resultatet går emellertid i samma riktning, dvs att risperidon ger en viss signifikant effekt jämfört med placebo.

Biverkningar av risperidon, främst viktökning (+1,78 kg), redovisas i de tre studierna med likartade utfallsmått [1–3], medan den längre studien (6 månader) från Indien inte anger några biverkningar alls [4]. Tre publicerade systematiska översikter bekräftar emellertid den ökade risken för viktökning hos barn och ungdomar vid intag av risperidon [8–10].

Ovan redovisade resultat av litteratursökningen kan jämföras med en tidigare publicerad systematisk litteraturöversikt från Cochrane [7], som också inkluderar de tre studierna med likartade utfallsmått [1–3]. I rapporten konstateras att endast ett fåtal studier motsvarade uppställda inklusionskriterier, att utfallsmåtten var delvis olika och att studierna var små. Slutsatsen enligt Cochrane-rapporten är ändå att det finns viss evidens för effekt av risperidon främst på irritation, stereotyp beteende och hyperaktivitet.

En publicerad systematisk översikt från USA [11], baserad på samma originalstudier som de inkluderade i Cochrane-rapporten [7], bekräftar de resultat som Cochrane Collaboration anger.

**Table 3.3.2 Treatment with risperidone.**

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Drop-outs	Intervention method Number of individuals	Control method Number of individuals	Results	Study quality
McCracken et al (network) 2002 [1] USA	To examine the safety and efficacy of atypical antipsychotic agents in children with autism	Randomised double-blind placebo-controlled trial, 2 months, followed by an open-label treatment for 4 months  Children 5–17 years of age with autistic disorders and mental age of at least 18 months  Boys in total were 82 out of 101  University clinics  Drop-out initially due to refusals from the patients' physicians, n=21	Risperidone 0.5 to 3.5 mg daily dose. n=49	Placebo. n=52	<u>Differences from baseline:</u> Irritability subscale of ABC, decrease from 26.2 to 11.3 vs 25.5 to 21.8 (p <0.001). Other subscales of ABC all had significant differences at 8 weeks. Clinical Global Impressions-improvements +75.5% vs 11.5%  <u>Adverse events</u> Weight increase in kg 2.7 vs 0.8 (p <0.001) Most adverse events were mild and self-limited	Moderate
McDougle et al 1998 [3] USA	To determine the safety and short-term efficacy of risperidone for the treatment of adults with autistic disorder and pervasive developmental disorders (PDD)	12 weeks double-blind placebo-controlled RCT  31 adults of which 17 with autistic disorder  9 women out of 31 adults  University clinics  1 drop-out from risperidone group	Risperidone 2.9 mg daily dose. n=14	Placebo. n=16	CGI-I: Responders to treatment 8 out of 14 vs 0 out of 16 (p <0.002) Risperidone was superior to placebo as regards Reducing repetitive behaviour (p <0.001), Aggression (p <0.001) Anxiety (p <0.02) Depression (p <0.03) Irritability (p <0.01) Overall behavioural symptoms of autism (p <0.02)  No extra pyramidal effects, cardiac events or seizures from risperidone	Moderate

The table continues on the next page

Table 3.3.2 continued

Author Year Reference Country	Aim	Study design Population characteristics Setting Drop-outs	Intervention method Number of individuals	Control method Number of individuals	Results	Study quality
Nagaraj et al 2006 [4] India	To study the efficacy and safety of risperidone in young children with autism without any predefined symptom subgroup	6 months treatment of placebo-controlled double-blind RCT  Children 2 to 9 years  40 children, of which 34 were boys  Advanced pediatric centre of University clinic  1 drop-out	Risperidone starting with 0.5 mg daily orally and increased after 2 weeks to 1 mg daily. n=19	Placebo starting with 0.5 mg daily orally and increased after 2 weeks to 1 mg daily. n=20	<u>CARS</u> At least 20% improvement from baseline for 12/19 vs 0/20 (p <0.001)  <u>CGAS</u> At least 20% improvement from baseline for 17/19 vs 2/20 (p <0.035)  Side effects consisted of increased appetite and of improved eating habits for 17/19 of the risperidone group	Moderate
Shea et al 2004 [2] Canada	To evaluate the efficacy and safety of Risperidone for the treatment of behavioural symptoms in children with autistic and other pervasive development disorders (PDD)	8 weeks double-blind parallel-group placebo-controlled multicentre RCT  Children 5–12 years  Male were 61 out of 79  7 investigational sites  1 drop-out	Risperidone oral solution 1.0 mg/mL administered at 0.01 mg/kg/day at start, and maximum of 0.06 mg/kg/day. n=40	Placebo oral solution 1.0 mg/mL administered at 0.01 mg/kg/day at start. n=39	Risperidone group vs placebo group, ABC irritability subscale decreased more for treatment than placebo (p >0.05), and for the hyperactivity/non-compliance subscale (p <0.001)  Risperidone was well tolerated but somnolence (72.5%) and upper respiratory tract infection (37.5%) were frequent	Moderate

ABC = Aberrant behavior checklist; CARS = Childhood autism rating scale; CGAS = Childrens global assessment scale; CGI-I = Clinical global impression-improvement; n = Number of patients; p = Probability coefficient; RCT = Randomised controlled trial

## Referenser

1. McCracken JT, McGough J, Shah B, Cronin P, Hong D, Aman MG, et al. Risperidone in children with autism and serious behavioral problems. *N Engl J Med* 2002;347:314-21.
2. Shea S, Turgay A, Carroll A, Schulz M, Orlik H, Smith I, Dunbar F. Risperidone in the treatment of disruptive behavioral symptoms in children with autistic and other pervasive developmental disorders. *Pediatrics* 2004;114:e634-41.
3. McDougle CJ, Holmes JP, Carlson DC, Pelton GH, Cohen DJ, Price LH. A double-blind, placebo-controlled study of risperidone in adults with autistic disorder and other pervasive developmental disorders. *Arch Gen Psychiatry* 1998;55:633-41.
4. Nagaraj R, Singhi P, Malhi P. Risperidone in children with autism: randomized, placebo-controlled, double-blind study. *J Child Neurol* 2006;21:450-5.
5. Aman MG, Singh NN, Stewart AW, Field CJ. The aberrant behavior checklist. *Psychopharmacol Bull* 1985;21:845-9.
6. Guy W. Clinical global impression. Rockville, MD: National Institute of Mental Health; 1976. (DHEW Publ No ADM 76-338).
7. Jesner OS, Aref-Adib M, Coren E. Risperidone for autism spectrum disorder. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 2007, Issue 1. Art. No.: CD005040. DOI: 10.1002/14651858.CD005040.pub2.
8. De Hert M, Dobbelaere M, Sheridan EM, Cohen D, Correll CU. Metabolic and endocrine adverse effects of second-generation antipsychotics in children and adolescents: A systematic review of randomized, placebo controlled trials and guidelines for clinical practice. *Eur Psychiatry* 2011;26:144-58.
9. Maayan L, Correll CU. Weight gain and metabolic risks associated with antipsychotic medications in children and adolescents. *J Child Adolesc Psychopharmacol* 2011; 21:517-35.
10. McPheeters ML, Warren Z, Sathe N, Bruzek JL, Krishnaswami S, Jerome RN, Veenstra-Vanderweele J. A systematic review of medical treatments for children with autism spectrum disorders. *Pediatrics* 2011;127:e1312-21.
11. Warren J, Veenstra-Vanderweele Z, Stone W, Bruzek JL, Nahmias AS, Foss-Feig JH, et al. Therapies for children with autism spectrum disorders. Nashville: Vanderbilt Evidence-based Practice Center Nashville, TN under Contract No. 290-2007-10065-L.) AHRQ Publication No. 11-EHC029-EF. Rockville, MD: Agency for Healthcare Research and Quality. April 2011. Available at: [www.effectivehealthcare.ahrq.gov/reports/final.cfm](http://www.effectivehealthcare.ahrq.gov/reports/final.cfm); 2011.

## 4. Systematisk litteraturoversikt – Organisation inom psykiatri med fokus på AST

---

### Slutsats

- ❑ Det behövs studier av hur vården och samhällets insatser bäst bör organiseras och samordnas för personer med autismspektrumtillstånd.

### Evidensgraderade resultat

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma om primärvården/första linjens vård är likvärdigt med vård inom den specialiserade psykiatri för personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma om specialiserade rehabiliterings-/habiliteringsverksamheter är bättre än rehabilitering/habilitering inom befintliga organisationsstrukturer för personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma om stödinsatser till personalen eller strukturella hjälpmedel till organisationen förbättrar diagnostik och behandling av personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att bedöma om organisationsformer som aktivt använder kommunikation med modern teknik (datorer, mobiltelefon etc) är bättre än organisationsformer som inte bygger på sådan kommunikation för personer med AST (⊕○○○).

## Bakgrund

Vi har valt att se på frågan om organisation i betydelsen ”hur vården och samhällets insatser är organiserade” för personer med autismspektrumtillstånd. Det handlar då om både yttre förhållanden och det sammanhang i vilket samhället tillhandahåller utredning, behandling, rehabilitering och stöd. I detta kan inkluderas följande:

- Vem som är huvudman
- Hur vården finansieras
- Ledning och styrning
- Vilken vårdgren eller specialitet som har uppdraget
- Vilken typ av lagstiftning som reglerar verksamheterna
- Vilka kompetenser och yrkeskategorier som finns
- Var insatserna sker och i vilken form (i öppen- eller slutenvård, på institution, i frivilliga former eller med tvång, grad av specialisering, om insatserna sker i ett större eller mindre sammanhang, om de sker direkt med patienten, individuellt eller i grupp, via internet eller med eller utan tekniska hjälpmedel).

Samhället lägger ner stora resurser för att hitta och genomföra effektiva organisationer, dvs organisationer som på ett kostnadseffektivt sätt ger goda behandlingsresultat. I nuläget är dock organisationerna i stor utsträckning utformade på andra grunder som t ex historiska eller administrativa eller hämtade från helt skilda verksamhetsområden som t ex bilindustrin.

Samhället och människors vardag har förändrats mycket under senare årtionden och vi vet att det ställer nya krav på utformningen av våra system. Personerna själva och deras anhöriga är kunnigare idag och önskemålen om delaktighet större än tidigare. Hur vi ska tillhandahålla vård och stödinsatser och med vilka metoder är av stor vikt. Sveriges lagstiftning och den uppdelning i olika huvudmän som finns påverkar förutsättningarna för arbetssätt och metodanvändning (Faktaruta 4.1).

De insatser som ges till personer med AST styrs av ett antal olika lagar. Dessa lagar är av olika typ vilket ger olika verksamheter olika förutsättningar. Hälso- och sjukvården har inte rättighetslagstiftning och

besluten kan inte överklagas till skillnad mot socialtjänsten. Inom hälso- och sjukvården finns däremot större krav på legitimerad personal än inom socialtjänsten.

**Faktaruta 4.1** Lagstiftning som styr vård och stödinsatser för personer med AST.

**Hälso- och sjukvårdslag (1982:763)**, HSL, är en ramlag som klargör landstingens (och i vissa fall kommunens) ansvar för olika delar av sjukvården och skyldighet att erbjuda medborgarna vård. Den anger mål för hälso och sjukvården och krav på god vård.

**Lag om psykiatrisk tvångsvård (1991:1128)**, LPT, kompletterar HSL med bestämmelser som reglerar möjligheten att ge psykiatrisk vård mot personens vilja och som kan vara förenat med frihetsberövande och vissa tvångsåtgärder.

**Lag om rättspsykiatrisk vård (1991:1129)**, LRV, kompletterar HSL och LPT med särskilda bestämmelser för personer som har begått brott och behöver psykiatrisk vård. Den innehåller föreskrifter om psykiatrisk vård som är förenad med frihetsberövande och annat tvång (tvångsvård).

**Socialtjänstlag (2001:453)**, SoL, är en ramlag som klargör medborgarnas rättigheter till ekonomiskt och socialt stöd och om de skyldigheter som kommunerna har i förhållande till de människor som vistas i kommunen. De stöd och hjälpinsatser som ges enligt socialtjänstlagen kallas bistånd. Kommunen har ett särskilt ansvar för vissa grupper som barn och unga och personer med funktionshinder.

**Lagen med särskilda bestämmelser om vård av unga (1990:52)**, LVU, är en lag som kompletterar Socialtjänstlagen och reglerar vissa situationer när kommunen kan omhänderta barn och ungdomar utan medgivande av den unge eller vårdnadshavare.

**Lagen om vård av missbrukare i vissa fall (1988:870)**, LVM, kompletterar Socialtjänstlagen och reglerar när personer med missbruk får vårdas utan medgivande. Det är en lag som kompletterar socialtjänstlagen när den som ska vårdas inte frivilligt medverkar till behandling.

*Faktarutan fortsätter på nästa sida*

#### Faktaruta 4.1 fortsättning

**Lag om stöd och service till vissa funktionshindrade (1993:387)**, LSS, är en rättighetslag som ska garantera personer med omfattande och varaktiga funktionshinder goda levnadsvillkor, att de får den hjälp de behöver i det dagliga livet och att de kan påverka vilket stöd och vilken service de får. Den ger vissa grupper, (t ex personer med utvecklingsstörning, autism eller autismliknande tillstånd, personer med varaktiga psykiska funktionshinder och betydande svårigheter) rätt till vissa specificerade insatser.

**Skollag (2010:800)**, i skollagen regleras elevhälsan och klargör att eleverna ska ha tillgång till skolläkare, skolsköterska, psykolog och kurator inom elevhälsan samt att rektor är ansvarig för att barns behov av särskilt stöd utreds.

Samverkan med det omgivande samhället, inklusive organisationens status påverkar också hur väl organisationen kan genomföra sina uppgifter.

Varje organisation utformas utifrån de förutsättningar som råder då den bildas. Under tidens gång förändras de ofta eftersom kunskaperna ökar, attityder förändras och samhället ställer andra krav. Det innebär att en organisation successivt måste utvecklas och förändras, vilket kan innebära slitningar i organisationen. Kanske personalsammansättningen behöver vara annorlunda och personalens kompetens anpassas till de nya uppgifterna.

Under de senaste decennierna har det skett en närmast explosiv kunskapsutveckling kring neuropsykiatriska funktionshinder som AST. Det har inneburit en successiv attitydförändring avseende utredning och behandling, från ett huvudsakligen psykoterapeutiskt synsätt till att även integrera medicinska/biologiska kunskaper. Det har medfört förändrade krav på de verksamheter som ger insatser och en kraftigt ökad efterfrågan på utredning och behandling. Många personer som har diagnostiserats sent i livet har utvecklat svåra psykiatriska och sociala problem. En tidig upptäckt av AST och med rätt insatt behandling och stöd, skulle kunna förebygga utveckling av komplikationer i form av allvarlig psykisk ohälsa och sociala problem. Centrala frågor för beslutsfattare är hur vården bäst ska organiseras för att möjliggöra tidig diagnostik och för att få veta vilken typ av vård och stöd som behövs.

## Faktaruta 4.2 Organisationer som är aktuella för samhällets insatser för personer med AST.

### Landstinget

#### *Barnhälsovården med barnvårdscentraler (BVC)*

BVC skapades för att stödja barns fysiska hälsa och leds av sjuksköterskor i första ledet. Deras uppdrag har vidgats till att omfatta psykosocial hälsa och de har tillgång till läkare och psykologer, ibland även andra yrkeskategorier som arbetsterapeuter, sjukgymnaster och logopedier. Uppdraget gäller barn från födelsen tills de börjar i skolan. BVC är en viktig instans för att hitta barn med utvecklingsstörning, autistiskt syndrom och andra svåra utvecklingsavvikelse. Störningar i språkutvecklingen kan vara ett tecken på avvikelser och i stort sett alla barn genomgår en av de två språkutvecklingstest som används vid 2,5 eller 3 års ålder. På vissa ställen har man infört en femårskontroll som avser fånga upp lättare utvecklingsavvikelse som inte hittats tidigare inför skolstarten.

#### *Primärvård/barnmedicinska mottagningar/logopediavdelningar*

Många barn med AST har även andra problem, som motorikstörning, sömnstörning, aptitregleringsproblem och språkstörning som de kan söka för inom olika somatiska kliniker. Vissa barnkliniker har utredningsteam riktade mot AST och ADHD.

#### *Barn och ungdomspsykiatri (BUP)*

BUP:s uppdrag är ofta allmänt formulerat som att genom utredning, behandling och konsultation främja barnens och deras familjers psykiska hälsa. Vad som ingår i BUP:s uppdrag varierar mellan olika landsting, särskilt i vilken utsträckning det enbart är en specialistverksamhet eller även tar omhand lindrigare tillstånd. Utredning av AST sköts ofta på BUP, men i vissa landsting sköts det av barnmedicin eller barn och ungdomshabilitering. På några ställen finns så kallade lokala basteam eller andra samverkansformer med deltagande av olika verksamheter inom kommun och landsting.

*Faktarutan fortsätter på nästa sida*

## Faktaruta 4.2 fortsättning

### *Barn och ungdomshabiliteringen*

Barn och ungdomshabiliteringen har i uppdrag att ge insatser till barn med funktionsnedsättningar av olika slag. Där finns en specialistverksamhet med uppdrag kring personer med mer allvarlig problematik och ofta hänvisas till regleringen i Lag om stöd och service till vissa funktionshindrade (LSS) och de personkretsar som är beskrivna där. Grupp 1 i LSS innefattar utvecklingsstörning och autistiskt syndrom. Grupp 3 i LSS kan ibland komma ifråga för barn med AST, men det krävs i regel flera allvarliga tilläggs-handikapp. Insatserna består av råd och stöd och ofta föräldra- och anhörigutbildningsinsatser. Behandlingsinsatser direkt riktade till funktionsnedsättningen anses också höra till uppdraget, men andra behandlingsinsatser som behövs för sekundära psykiatriska symtom hamnar ofta i en gräzon mellan barnhabiliteringen och BUP. Organisationen har många yrkeskategorier som psykologer, sjukgymnaster, logopedier, arbetsterapeuter, socionomer, specialpedagoger och läkare.

### *Vuxenpsykiatri*

Både utredning och behandling av AST är en relativt ny företeelse för vuxenpsykiatri och där viljan, kunskapen och kompetensen varierar stort i landet. I de flesta landsting finns specialiserade neuropsykiatriska enheter och ibland rena utredningsteam. Den stora efterfrågan har lett till långa väntetider för utredning.

### *Vuxenhabilitering*

Från 18 års ålder (ibland från 16) har vuxenhabiliteringen samma typ av ansvar som barn och ungdomshabiliteringen, men skillnaden är att det inte på alla ställen finns läkare inom verksamheten. Verksamhetens uppdrag är tydligare inriktat på personer med omfattande funktionsnedsättningar.

*Faktarutan fortsätter på nästa sida*



## Faktabruta 4.2 fortsättning

### Kommun

#### Elevhälsan

Varje skola måste ha ett elevhälsovårdsteam under ledning av rektor. Ofta finns skolsköterska, skolpsykolog (särskilt för de yngre barnen) och kurator (ofta för de äldre) samt skolläkartimmar. Skolläkare och skolsköterska arbetar med stöd av HSL, de övriga enligt skollagen. Eftersom alla barn går i skolan är detta team ytterst viktigt för att fånga upp barn med misstänkt AST. Ibland gör skolan en basutredning själva, ibland remitteras barnen till BUP. För barn med AST har skolan en mycket viktig roll för att se till att barnets behov av särskild pedagogik tillgodoses och att det får stöd i att bygga upp goda relationer till sina kamrater. Elevhälsan har en viktig roll i skolans ansvar att motverka kränkande särbehandling. Det handlar då om att både förhindra att barn med särskilda behov utsätts men också utsätter andra för kränkningar och negativa upplevelser.

#### Socialtjänstens individ-och familjeomsorg

Socialtjänsten ger råd och stöd samt beviljar bistånd till barn, ungdomar och familjer. Föräldrastöd av olika typer och utbildningsprogram, kontaktfamilj, kontaktperson, stöd i hemmet och vardagen är exempel på öppenvårdsinsatser. När det inte räcker till pga föräldrasvikt eller den unges eget beteende kan det bli aktuellt med heldygnsvård och placering i familjehem, Hem för vård och boende (HVB) eller på någon enhet inom Statens Institutionsstyrelse. För vuxna med funktionshinder finns även i allmänhet en särskild enhet inom socialtjänsten, som ibland kan bli aktuell för vuxna med AST.

#### Socialtjänstens enheter för funktionshinder och LSS-enheter

För familjer med barn med autistiskt syndrom kan ibland socialförvaltningens LSS-enhet ge stöd i form av stödfamilj, korttidsboende eller kontaktperson för äldre barn. Äldre barn med svåra beteendeproblem kan ibland behöva särskilt boende. Vuxna med behov av stöd i boendet eller för att klara vardagen kan få detta av socialtjänsten. Personer med omfattande funktionsnedsättningar kan ansöka om insatser enligt LSS.

#### Övriga

Andra organisationer som kan behöva ge särskild hjälp och stöd åt vuxna med AST är t ex företagshälsovård, arbetsförmedling, försäkringskassa, Statens institutionsstyrelse (SiS) och kriminalvården.

## Frågor

De frågor som ingick i projektet var:

- Finns det vetenskapligt stöd för att vård inom primärvården/första linjens vård ger likvärdiga resultat med vård inom den specialiserade psykiatrin med eller utan subspecialisering för personer med AST?
- Finns det vetenskapligt stöd för att specialiserade rehabiliterings-/habiliteringsverksamheter ger bättre resultat än rehabilitering/habilitering inom befintliga organisationsstrukturer för personer AST med eller utan utvecklingsstörning?
- Finns det vetenskapligt stöd för att strukturerade insatser som utbildning och kompletterande stöd till en befintlig vårdorganisation förbättrar diagnostik och behandling?
- Finns det vetenskapligt stöd för att organisationsformer som bygger på kommunikation med modern teknik (datorer, mobiltelefon etc) ger bättre resultat än med organisationsformer som inte bygger på sådan kommunikation?

## Inklusionskriterier

Vi inkluderade kontrollerade studier i fulltext samt systematiska översikter på engelska eller skandinaviska språk.

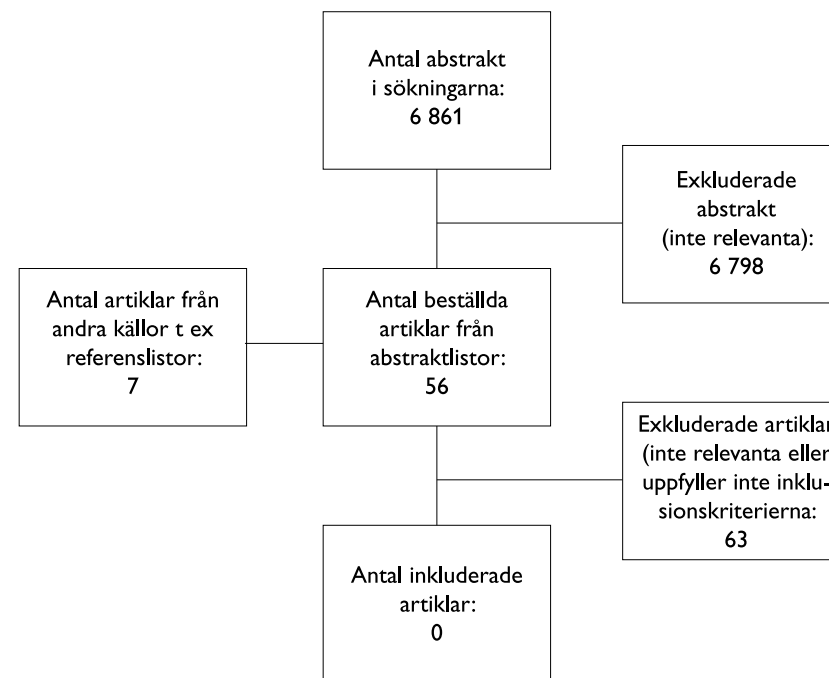
<b>Population</b>	Barn och vuxna med AST. Vi accepterade studier där deltagarna hade eller saknade samtidig utvecklingsstörning eller missbruk.
<b>Intervention</b>	Organisationsformer relevanta för svenska förhållanden. Interventionen jämförs med befintliga eller alternativa organisationsformer.
<b>Utfall</b>	Skattning av funktion eller sjukdomsgrad: livskvalitet, patientnöjdhet, kostnadseffektivitet, patienters och anhörigas upplevelse, sysselsättning, kontinuitet och skolresultat.

## Kvalitetskriterier

Som framgår av Kapitel 2 använde vi granskningsmallar för att bedöma studiekvaliteten, Bilaga 2 ([www.sbu.se/215](http://www.sbu.se/215)). För kontrollerade studier använde vi checklistan som utvecklats av EPOC inom Cochrane Collaboration ([www.cochrane.org](http://www.cochrane.org)).

## Urval av studier

Sökstrategierna redovisas i Bilaga 1 på SBU:s webbplats ([www.sbu.se/215](http://www.sbu.se/215)). Sökningarna som omfattade både ADHD och AST gav 6 861 abstrakt (Figur 4.1). Av 63 studier som lästes i fulltext uppfyllde inte någon av studierna inklusionskriterierna. Orsaker till att studier exkluderades var att de inte undersökte vår fråga, de hade annat effektmått, annan population eller hade fel publikationstyp, att de var översiktsartiklar eller dubbelpubliceringar.



Figur 4.1 Flödesschema över litteratursökning och granskningsprocess.

## Resultat av granskningen

### Vård inom första linjens vård (allmän barnmottagning) jämfört med vård inom den specialiserade psykiatrin med eller utan subspecialisering

Vi kunde inte identifiera några studier som uppfyllde inklusionskriterierna.

### Specialiserade rehabilitering/habiliteringsverksamheter jämfört med rehabilitering/habilitering inom befintliga organisationsstrukturer

Vi kunde inte identifiera några studier som uppfyllde inklusionskriterierna.

## Värde av stödinsatser till personalen eller strukturella hjälpmedel till organisationen

Vi kunde inte identifiera några studier som uppfyllde inklusionskriterierna.

## Organisationsformer som bygger på kommunikation med modern teknik (datorer, mobiltelefon etc) jämfört med organisationsformer som inte bygger på sådan kommunikation

Vi kunde inte identifiera några studier som uppfyllde inklusionskriterierna.

## Diskussion

Det vetenskapliga underlaget vad gäller organisation av vården för AST är i hög grad ett outforskat fält. Inga studier har kunnat inkluderas.

Vi har i diskussionen tagit upp artiklar som var intressanta för våra frågeställningar, trots att de inte var randomiserade kontrollerade studier som uppfyllde våra inklusionskriterier eller höll tillräcklig kvalitet. De tar dock upp aspekter som är viktiga att reflektera över när det gäller organisationsfrågor.

Rowlandson och medarbetare har rapporterat om organisationen ”Oak House” som bestod av samordnad service inkluderande flera olika professioner på Isle of Wight [1]. Servicens uppdrag var att bedöma behov och insatser för barn (5–18 år) med komplexa behov och deras familjer. Syftet var att utveckla en kombinerad process av att diagnostisera barn med AST samt att samordna lämpliga interventioner i deras skolmiljö, i deras familjer samt i kommunen. Av de 19 000 elever som fanns på Isle of Wight blev 392 barn diagnostiserade med ADHD och med en samsjuklighet såsom autistiskt syndrom, språksvårigheter, tics och dyspraxi. Oak House är skattat högt av användarna och 85 procent är nöjda med verksamheten, vilket är stor skillnad mot tidigare skattningar.

Detta kan stödja värdet av att bygga upp specialiserade team för personer med AST. Det förefaller lättare för en ny organisation att tillägna sig ett

nytt arbetssätt och även att bli mer tillgänglig till det omgivande samhället än att förändra en tidigare organisation.

Vi fann inga studier som handlar om effekter av organisationsformer som bygger på kommunikation med modern teknik (datorer, mobiltelefon etc). Däremot fann vi en systematisk översikt om organisationer som erbjöd informations- och kommunikationsteknologier (IKT) ”tele practice” till personer med AST och deras föräldrar eller lärare [2]. Syftet med översikten var att klargöra vilka möjliga tekniker som finns och samtidigt också peka ut viktiga forskningsområden. Frågans intresse väcks bl a utifrån den brist av behandlare och specialister som finns och IKT:s möjligheter att nå ut till många personer samt tillgängligheten av IKT. Översikten inkluderade åtta studier med totalt 46 informanter i åldern 2–11 år. Diagnosen autistiskt syndrom hade 91 procent. De IKT-interventioner som genomfördes i de olika studierna var t ex att lärare, terapeuter eller föräldrar implementerade beteendeträning i flera steg, träning av kommunikation eller hade en konsultativ roll/funktion gentemot behandlare på andra sjukhus eller enheter. Konsulterna var i de flesta fall specialister/forskare som arbetade på universitet. Sju av studierna rapporterade att interventionen hade gått att genomföra. Slutsatserna i denna översikt var att IKT verkade lovande men att det behövdes mer forskning och framför allt jämförelser mellan IKT-interventioner och IRL(in real life)-interventioner.

## Referenser

1. Rowlandson PH, Smith C. An inter-agency service delivery model for autistic spectrum disorders and attention deficit hyperactivity disorder. *Child Care Health Dev* 2009;35:681-90.
2. Boisvert M, Lang R, Andrianopoulos M, Boscardin ML. Telepractice in the assessment and treatment of individuals with autism spectrum disorders: A systematic review. *Dev Neurorehabil* 2010;13:423-32.

## 5. Systematisk litteraturoversikt – Patientens delaktighet vid AST

---

### Slutsats

- **Delaktigheten för personer med autismspektrumtillstånd och deras anhöriga behöver förbättras. Deras egna uppfattningar om vård och skola bör efterfrågas i större utsträckning.** Idag kan personer med autismspektrumtillstånd och deras anhöriga uppleva stigmatisering, social isolering, otillräckliga kunskaper hos vård- och skolpersonal, resursbrist och maktlöshet. Tidig diagnostik kan motverka stigmatisering. Det är viktigt att bristande delaktighet inte hindrar vårdens och skolans strävan att nå god kommunikation och kontakt. Det är också viktigt att rikta särskild uppmärksamhet till syskon, som annars kan få svårigheter med sociala relationer och ibland även utsättas för skrämmande och våldsamt beteende. Den vetenskapliga kunskapen kring betydelsen av delaktighet vid autismspektrumtillstånd kan förbättras avsevärt.

Patienter med AST har villkor och uppfattningar om vård och behandling som är så nära förknippade med anhörigas och personalens syn och villkor, att det är naturligt att även studera deras uppfattningar om patientens vård. Därtill visade det sig att många studier i sin design ofta inkluderar personal och anhöriga, ibland med och ibland utan patienter. På det sättet blir patienternas villkor belysta på ett mer indirekt vis. Ett särskilt fokus i detta kapitel är hur patienterna aktivt medverkar i sin vård; hur de är delaktiga i beslut och avgöranden. Vilka möjligheter har man att påverka sin egen vårds utformning och genomförande?

## Evidensgraderade resultat

- Det finns vetenskapligt stöd för att personer med AST upplever osäker identitet och ensamhet. Många saknar materiellt och emotionellt stöd och resurser, samhörighet och acceptans efterlyses.
- Det vetenskapliga stödet är otillräckligt för att bedöma hur personer med AST uppfattar sina möjligheter till delaktighet i utredning och behandling.
- Det finns vetenskapligt stöd för att personer med AST och deras föräldrar upplever otillräckliga kunskaper hos personal inom vård och skola samt att resurser och stöd är alltför begränsade. Föräldrar och syskon involveras ibland på ett sätt som kan leda till oenigheter i familjen.
- Det finns vetenskapligt stöd för att personer med AST, deras syskon och föräldrar upplever att det finns stigmatiseringsproblem och att dessa motverkas av en tidig diagnos.
- Det finns vetenskapligt stöd för att anhöriga och professionella vårdare till personer med AST upplever resursbrist, stress, sorg och maktlöshet, men också en ökad medkänsla och ansvarsmedvetenhet.

Tabell 5.1–5.11 beskriver de olika temanivåerna och studieunderlaget.

## Tredje nivåns tema: Personernas osäkra omständigheter påkallar samhällets resurser och förståelse

**Tabell 5.1** Andra nivåns tema: Osäker identitet och självinsikt.

Andra nivåns tema: Osäker identitet och självinsikt [1]	Länder Studiekvalitet Antal studier (antal informanter)	Beskrivning
<i>Första nivåns teman</i> Värdighet; söker mönster för identifiering	Kanada  1 medelhög kvalitet  1 (60)	Personer med Aspergers syndrom är angelägna om att bli accepterade som de är, samtidigt som de söker sin rätta identitet och saknar självinsikt. De anser att samhället inte är anpassat efter dem

**Tabell 5.2** Andra nivåns tema: Värdighet, tolerans och emotionellt stöd saknas.

Andra nivåns tema: Värdighet, tolerans och emotionellt stöd saknas [1,2]	Länder Studiekvalitet Antal studier (antal informanter)	Beskrivning
<i>Första nivåns teman</i> Materiellt och emotionellt stöd behövs (ungdomar). Mer tolerans	Storbritannien, Kanada  2 medelhög kvalitet  2 (70)	Personer med Aspergers syndrom önskar att de blir betraktade som normala individer. Ungdomar med AST önskar välkommande attityder, stöd för ökad självkänsla, samhörighet och självständighet

**Tabell 5.3** Andra nivåns tema: Ensamhet, begränsat stöd, såväl materiellt som psykosocialt.

<b>Andra nivåns tema: Ensamhet, begränsat stöd såväl materiellt som psykosocialt [1–3]</b>	<b>Länder Studiekvalitet Antal studier (antal informanter)</b>	<b>Beskrivning</b>
<i>Första nivåns tema</i> Mer tolerans. Materiellt och emotionellt stöd behövs (ungdomar). Psykosociala och fysiska villkor behöver utvecklas (vuxna). Ensamhet, kontaktlöshet, når inte fram	USA, Kanada, Storbritannien  3 medelhög kvalitet  3 (88)	Ungdomar med AST leker helst ensamma, har ett torftigt språk och sociala svårigheter i skolan. De önskar sig bättre lokaler, bra kommunikation och kunnig personal. Vuxna med AST/Aspergers syndrom önskar instruktion om sociala koder

### Tredje nivåns tema: Otillräckliga förutsättningar och påfrestande förhållanden för den som har AST, men det finns hopp om förbättringar

**Tabell 5.4** Andra nivåns tema: Brister i utbildning, personella och materiella resurser.

<b>Andra nivåns tema: Brister i utbildning, personella och materiella resurser [2,4]</b>	<b>Länder Studiekvalitet Antal studier (antal informanter)</b>	<b>Beskrivning</b>
<i>Första nivåns teman</i> Kunskapsluckor och tidsbrist hos läkare. Stöd saknas (personellt, materiellt)	USA, Storbritannien  2 medelhög kvalitet  2 (24)	Barnläkare behöver bättre utbildning om AST, men det saknas tid, träning och resurser. De borde vara mer uppmärksamma. Studenterna önskar lämpliga lokaler, mentorer, bra kommunikation och kunnig personal

**Tabell 5.5** Andra nivåns tema: Kontroverser, turbulens och oenigheter, men också viss samsyn.

Andra nivåns tema: Kontroverser, turbulens och oenigheter, men också viss samsyn [1,5,6]	Länder Studiekvalitet Antal studier (antal informanter)	Beskrivning
<i>Första nivåns teman</i> Oenigheter, föräldrar och barn. Personer med AST/Asperger invänder mot majoritetens uppfattning om att AST är en sjukdom. Samsyn, anhöriga och personal. Lättnad med tveksamhet. Ogillande överlag, men enstaka områden positiva	Sverige, Belgien, Kanada  3 medelhög kvalitet  3 (314)	Personer med Aspergers syndrom vänder sig mot diagnos, läkemedel och konventionellt språkbruk. De anser att omgivningen är handikappande. Det finns missnöje över långa väntetider för utbildning och stöd, personalens kunskaper brister. De är missnöjda över informationen om diagnosen, stödet, utbildningen och tillgången till AST-anpassat stöd. Personer med Aspergers syndrom är bekymrade över framtida behov. Men de är också nöjda med dialog, individuella program, professionell kunskap och kontinuitet om de involveras i processen

**Tabell 5.6** Andra nivåns tema: Hopp om förbättringar för barn och syskon, bättre kommunikation och ökad involvering av föräldrarna, samt pauser för kraftansamling.

Andra nivåns tema: Hopp om förbättringar för barn och syskon, bättre kommunikation och ökad involvering av föräldrarna, samt pauser för kraftansamling [7–11]	Länder Studiekvalitet Antal studier (antal informanter)	Beskrivning
<i>Första nivåns teman</i> Stödgrupper är viktiga. Förbättringar i sikte. Syskon blandas in. Föräldrarna vill bli mer involverade. Kontakten och relationen är nödvändig. Pauser behövs, motstånd kan övervinnas	Australien, Sverige, USA  5 medelhög kvalitet  5 (57)	Syskon till personer med AST känner stort ansvar och medkänsla men också rädsla och osäkerhet. De har svårt med externa relationer. Syskonens osäkerhet är en viktig faktor vid föräldrarnas beslut att flytta en person med AST till ett vårdhem. Föräldrar till barn med AST anser sig behöva ta ledningen och förhandla om utbildningsstrukturen. De understryker kommunikationens betydelse inför olika förflyttningar och inser förståelsens betydelse. Förflyttningarna bör vara behovsprövade och välplanerade för såväl årliga som dagliga förändringar. Mödrar till barn med AST värdesätter egen tid, planering, delat ansvar, kunskap som ger kraft, glädjeämnen i livet och att "lätta på hindren"

## Tredje nivåns tema: Utsatthet och kamp för acceptans

**Tabell 5.7** Andra nivåns tema: Viktigt med diagnos och stöd.

Andra nivåns tema: Viktigt med diagnos och stöd [1,7]	Länder Studiekvalitet Antal studier (antal informanter)	Beskrivning
<i>Första nivåns teman</i> Tolerans och stöd. Diagnos som skydd	Australien, Kanada  2 av medelhög kvalitet  2 (76)	Föräldrar till barn med AST beskriver att stigmatisering motverkas av en diagnos. Stigmatisering är en fruktad konsekvens av AST och det är därför viktigt för föräldrarna att få en diagnos som legitimerar familjens särprägel. Personer med Aspergers syndrom vill bli accepterade som de är men önskar samtidigt stödfunktioner

**Tabell 5.8** Andra nivåns tema: Föräldrarna känner sorg och vanmakt och oroar sig för syskonen.

Andra nivåns tema: Föräldrarna känner sorg och vanmakt och oroar sig för syskonen [3,8]	Länder Studiekvalitet Antal studier (antal informanter)	Beskrivning
<i>Första nivåns teman</i> Socialt utsatta syskon. Utsatta mödrar	Sverige, USA  2 av medelhög kvalitet  2 (32)	Familjer som har barn med AST blir starkt påverkade av barnens opålitliga och ibland destruktiva beteende. Syskon kan få störda relationer till omgivningen och vågar inte ta hem kamrater. Mödrar till barn med AST menar att det är viktigt att försöka "lätta på hindren för att överleva". Det är viktigt att försöka se positivt på situationen

## Tredje nivåns tema: Från utsatthet till ökad livserfarenhet

**Tabell 5.9** Andra nivåns tema: Förväntningar motsvaras inte.

Andra nivåns tema: Förväntningar motsvaras inte [4]	Länder Studiekvalitet Antal studier (antal informanter)	Beskrivning
<i>Första nivåns teman</i> Arbete med knappa möjligheter	USA  1 av medelhög kvalitet  1 (14)	Läkare beskriver sig som förespråkare, koordinatörer och remitterare snarare än terapeuter. De upplever både resurs- och kunskapsbrister och får ofta uppdraget av föräldrar att behandla beteendestörningar, vilket de inte anser vara deras uppgift. Föräldrarna känner sig stressade

**Tabell 5.10** Andra nivåns tema: Önskade krav ger frustration och utveckling.

Andra nivåns tema: Önskade krav ger frustration och utveckling [5,7-10]	Länder Studiekvalitet Antal studier (antal informanter)	Beskrivning
<i>Första nivåns teman</i> Föräldrar emotionellt påverkade, både bedrövelse och ny tillit. Familjen blir utsatt. Syskonen sårbara. Föräldrarollen stimulerar till växt och ökat ansvar. Ökad ansvarsmedvetenhet	Australien, Sverige, USA  5 av medelhög kvalitet  5 (56)	Föräldrar till barn med AST känner sorg, maktlöshet, isolering och utmattning, men också hopp om förbättring och ändrade attityder till andra som har det svårt. Livet förändras med andras kännedom om diagnosen, men också via ökade kunskaper. De kan uppleva stigmatisering men lyckas genom att sprida kunskap om AST motverka detta. Föräldrar till barn med AST anser att de måste ta ansvar för förflyttningar på barnens villkor. Efterhand har de lärt sig strategier för att identifiera, observera och upptäcka signaler



**Tabell 5.11** Andra nivåns tema: Omvärdering av personliga attityder.

Andra nivåns tema: Omvärdering av personliga attityder [5,9–11]	Länder Studiekvalitet Antal studier (antal informanter)	Beskrivning
<i>Första nivåns teman</i> Föräldrar emotionellt påverkade, både bedrövelse och ny tillit. Föräldrarollen stimulerar till växt och ökat ansvar. Ökad ansvarsmedvetenhet. Mödrar omvärderar livssituationen	Sverige, USA 4 av medelhög kvalitet 4 (37)	Föräldrar till barn med AST anser att de måste ta ansvar för att barnets intresse sätts i första hand vid förflyttningar. Mödrar till barn med AST lär sig att värdesätta egen tid, planera, dela ansvar och skaffa sig kunskap. De värdesätter glädjeämnen i livet och kan "lätta på hindren"

## Frågor

- Hur uppfattar patienter med autismspektrumtillstånd (AST) den vård och behandling de får och deras möjlighet till delaktighet?
- Hur ser patienter, anhöriga och personal på sina respektive relationer under behandlingen?
- Hur upplever patienter, anhöriga och personal att omgivningen ser på patienterna?
- Hur ser anhöriga och vårdpersonal på sig själva?

## Inklusionskriterier och avgränsningar

Följande kriterier fastställdes för urval av studier:

- Populationer** Patienter oavsett ålder med diagnostiserat AST och/eller anhöriga/närstående till denna grupp. I de fall där studiepopulationen innefattade flera diagnoser, ställde vi som krav att minst 70 procent av studiepopulationen skulle bestå av patienter med AST eller anhöriga/närstående till dessa patienter. Även vårdpersonalens och lärares perspektiv har tagits med i de fall där detta förekommit i inkluderade studier.
- Interventioner** Inga avgränsningar gjordes vad gäller interventioner. All form av behandling togs med (psykosocial behandling, läkemedelsbehandling mm). Även familjeaspekter har tagits med.
- Språk** Enbart artiklar författade på engelska, tyska eller skandinaviska språk beaktades.
- Tid** Endast studier publicerade efter år 1995 har tagits med.
- Stu-di-e-stor-lek** Inga fallstudier inkluderades, men i övrigt sattes ingen nedre gräns för antal informanter/patienter/försökspersoner.
- Övrigt** Studier där diagnosen inte var klart definierad exkluderades, liksom när bortfallet var stort eller när patientens röst inte specifikt uttrycktes.

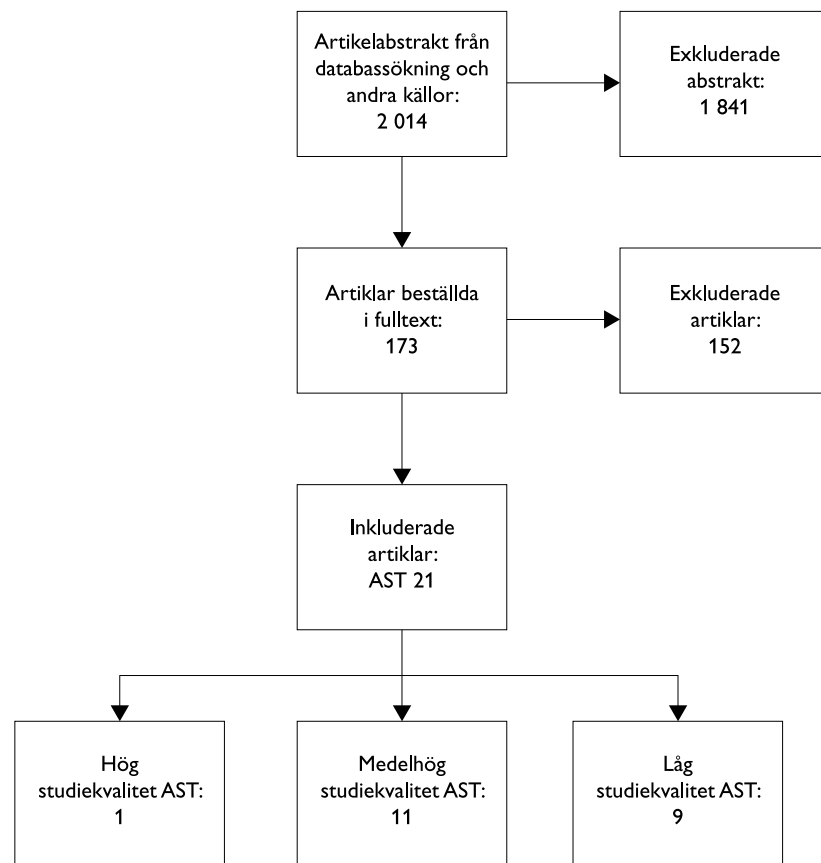
## Resultat av litteratursökningen och urval av studier

I Figur 5.1 redovisas litteraturflödet. Den vanligaste orsaken till exklusion av fulltextartiklar var att patientpopulationen inte var klart definierad (minst 70 procent av patienterna skulle ha AST). Andra skäl var en ofullständig eller oklar redovisning av urval eller att analysen och datainsamlingen inte var klart rapporterad.

## Kvalitativ analysmetod

### Beskrivning av studier och resultat, inklusive tabeller

Inga systematiska översikter framkom i sökningen, 21 studier kunde slutligen inkluderas (Figur 5.1). Nio studier bedömdes ha låg kvalitet och tabellerades inte (se under rubriken ”Studier med låg kvalitet”). Av de 12 tabellerade studierna har fyra använt fenomenologisk metod. De övriga har använt kvalitativ innehållsanalys.



Figur 5.1 Litteratursökning – AST<sup>1</sup>.

<sup>1</sup> Antalet beställda abstrakt inkluderar både ADHD/AST och schizofreni. Antalet beställda artiklar i fulltext inkluderar både ADHD/AST.

Samtliga ingående studier kunde med dessa utgångspunkter sedan ordnas enligt fyra olika ämnesområden:

1. **Patientens perspektiv.** Personens egen uppfattning om sin vård/behandling: [1–3]
2. **Relationen mellan patient, anhöriga och personal/vårdgivare,** studier som speglar hur dessa grupper ser på patientens vård och sina inbördes roller: [1–11].
3. **Allas perspektiv på patientens situation; stigma/diskriminering,** om upplevelsen av omgivningens syn på patienter med AST, deras anhöriga och vårdpersonal: [1,5,7,8,11].
4. **Anhörigas och vårdgivares perspektiv på sig själva,** studier som belyser förändringar, coping, stress: [1,4–11].

**Tabell 5.12** Första, andra och tredje nivåns teman som ett resultat av analysen.

Referens	Första nivåns tema	Andra nivåns tema	Tredje nivåns tema
[1]	Värdighet; söker mönster för identifiering	Osäker identitet och självinsikt	Personernas osäkra omständigheter påkallar samhällets resurser och förståelse
[2] [1]	Materiellt och emotionellt stöd behövs (ungdomar) Mer tolerans	Värdighet, tolerans och emotionellt stöd saknas	
[1] [2] [3]	Mer tolerans Materiellt och emotionellt stöd behövs (ungdomar) Psykosociala och fysiska villkor behöver utvecklas (vuxna). Ensamhet, kontaktlöshet når inte fram	Ensamhet, begränsat stöd, såväl materiellt som psykosocialt	
[4] [3] [2]	Kunskapsluckor och tidsbrist hos läkare Önskar ordnad verksamhet. Behov av praktisk och social planering Stöd saknas (personellt, materiellt)	Brister i utbildning, personella och materiella resurser	Otillräckliga förutsättningar och påfrestande förhållanden för den som har AST, men det finns hopp om förbättringar
[1] [5] [6]	Personer med AST/Asperger invänder mot majoritetens uppfattning om att AST är en sjukdom. Oenigheter föräldrar och barn. Samsyn anhöriga och personal. Lättnad med tveksamhet Ogillande överlag, men enstaka områden positiva	Kontroverser, turbulens och oenigheter, men också viss samsyn	
[7] [8] [9] [10] [11]	Stödgrupper är viktiga Förbättringar i sikte. Syskon blandas in Föräldrarna vill bli mer involverade Kontakten och relationen är nödvändig Pauser behövs, motstånd kan övervinnas	Hopp om förbättringar för barn och syskon, bättre kommunikation och ökad involvering av föräldrarna, samt pauser för kraftansamling	
[7] [1] [8] [11]	Diagnos som skydd Tolerans och stöd Socialt utsatta syskon Utsatta mödrar	Viktigt med diagnos och stöd Föräldrarna känner sorg och vanmakt och oroar sig för syskonen	Utsatthet och kamp för acceptans

Tabellen fortsätter på nästa sida

**Tabell 5.12** fortsättning

Referens	Första nivåns tema	Andra nivåns tema	Tredje nivåns tema
[4]	Arbete med knappa möjligheter	Förväntningar motsvaras inte	
[5]	Föräldrar emotionellt påverkade, både bedrövelse och ny tillit		
[7]	Familjen blir utsatt		
[8]	Syskonen sårbara	Oönskade krav ger frustration och utveckling	Från utsatthet till större livserfarenhet
[9]	Föräldrarollen stimulerar till växt och ökat ansvar		
[10]	Ökat ansvarsmedvetenhet.		
[5]	Föräldrar emotionellt påverkade, både bedrövelse och ny tillit		
[9]	Föräldrarollen stimulerar tillväxt och ökat ansvar		
[10]	Ökat ansvarsmedvetenhet	Omvärdering av personliga attityder	
[11]	Mödrar omvärderar livssituationen.		

## Beskrivning av studier och resultat inklusive tabeller

### Ämnesområde 1: Patientens perspektiv

- Det finns vetenskapligt stöd för att personer med AST upplever osäker identitet och ensamhet. Många saknar materiellt och emotionellt stöd och resurser, samhörighet och acceptans efterlyses.

**Tabell 5.13** Tredje nivåns tema.

Tredje nivåns tema	Andra nivåns teman
Personens osäkra omständigheter påkallar samhällets resurser och förståelse	Osäker identitet och självinsikt [1]
	Värdighet, tolerans och emotionellt stöd saknas [1,2]
	Ensamhet, begränsat stöd, såväl materiellt som psykosocialt [1–3]

**Tabell 5.14** Första nivåns teman.

Första nivåns teman	Beskrivningar	Studier
Värdighet; söker mönster för identifiering	Personer med Aspergers syndrom lyfter fram sin stolthet och acceptans, Internet är viktigt för identiteten, de söker kända förebilder. De kallar sig själva <i>Aspies</i> och motsätter sig att tillståndet betraktas som en sjukdom. De är lyckliga med vilka de är och anser att deras eventuella lidande är inbyggt i samhället och inte i dem själva  De opponerar sig mot konventionellt språkbruk och saknar enligt föräldrarna självinsikt och normativa förväntningar. På internet finns en stark och proaktiv <i>Aspie</i> -lobby som namnger kända personer med denna diagnos	[1]

Tabellen fortsätter på nästa sida

**Tabell 5.14** fortsättning

Första nivåns teman	Beskrivningar	Studier
Ensamhet, kontaktlöshet, när inte fram	Vuxna med AST/Aspergers syndrom upplever social isolering, svårigheter att ta kontakt och att kommunicera, längtan efter intimitet och social kontakt. Personer med AST/Aspergers syndrom har sällan vänner och använder ofta livfulla metaforer i språket, men vet inte hur man tar kontakt med andra. När man ändå försökt ta kontakt skapar detta ångest. Många vill gärna försöka skapa och utveckla sina sociala nätverk	[3]
Mer tolerans	Personer med Aspergers syndrom argumenterar mot att tillståndet betraktas som en sjukdom och önskar att de accepteras som de är. På sikt vill ungdomar med Aspergers syndrom bli betraktade som normala individer	[1]
Materiellt och emotionellt stöd behövs (ungdomar)	Ungdomar med AST önskar sig lämpliga lokaler, mentorer, bra kommunikation, goda kunskaper hos personalen, mer personal, välkomnande attityder, noggrannhet, arbete för ökad självkänsla, samhörighet, självständighet och livskunskap. Ungdomar med AST önskar utveckla ökad självkänsla, bli socialt inkluderade, mer självständiga och organiserade samt få livskunskap	[2]
Psykosociala och fysiska villkor behöver utvecklas (vuxna)	Vuxna med AST/Aspergers syndrom vill ha riktade, strukturerade och gemensamma aktiviteter med indelning i smågrupper och med rollmodeller. De vill ha alternativa kommunikationsmöjligheter samt efterlyser rak kommunikation och instruktion om sociala koder  De önskar få planera och ge utlopp för sina kreativa och improviserade idéer och önskar fysiska aktiviteter utomhus. Andlighet och religion kan vara en förmedlande länk. De behöver få vara sig själva, mötas av en tålig och omtänksam attityd med tolerans och respekt. De behöver stöd att initiera sociala kontakter	[3]

## Kommentar till analysen

Analysen baserar sig på tre olika studier av medelhög kvalitet; en från Kanada [1], en från Storbritannien [2] och en från USA [3].

Personer med Aspergers syndrom kallar sig själva *Aspies* och motsätter sig att AST ska betraktas som en sjukdom som ska medicineras bort. De är nöjda med vilka de är och anser att deras eventuella lidande är inbyggt i samhället och inte i dem själva. De opponerar sig mot konventionellt språkbruk och saknar enligt föräldrarna både självinsikt och normgivande förväntningar. På internet finns en stark och proaktiv ”Aspie-lobby” som namnger kända personer med denna diagnos.

Ungdomar med AST har en positiv attityd till familjelivet och saknar insikt om tillståndets sociala påverkan på familjen. Ungdomarnas syn kontrasterar med familjens. Familjen ser hur ungdomarna helst leker ensamma, har ett torftigt språk och sociala svårigheter i skolan.

Vuxna med AST/Aspergers syndrom upplever social isolering, svårigheter att ta kontakt och att kommunicera. De längtar efter intimitet och social kontakt. Dessa personer har sällan vänner och använder ofta livfulla metaforer i sitt språk, men vet inte hur man tar kontakt med andra och när de ändå försöker skapar detta ångest. Många vill gärna försöka utveckla sina sociala nätverk.

På sikt vill ungdomar med Aspergers syndrom bli betraktade som normala individer. De önskar utveckla ökad självkänsla, självständighet och livskunskap, samt bli mer organiserade och socialt inkluderade.

I dessa teman ingår tre kategorier: **Osäker identitet och självinsikt; Värdighet, tolerans och emotionellt stöd saknas; samt Ensamhet, begränsat stöd, såväl materiellt som psykosocialt.**

De intervjuade representerar olika åldrar och kommer från olika länder och från i huvudsak tre grupper; en grupp som hävdar sin integritet och anser att det är omgivningen som har fel uppfattning om deras kompetens, en barn- och ungdomsgrupp med god insikt om sin situation

samt en tredje grupp som består av vuxna som kan redogöra för sina upplevelser samt därtill föräldrar och barnläkare.

Nedanstående redovisning inkluderar citat som är typiska för dessa i analysen beskrivna andra nivåns teman.

## Osäker identitet och självinsikt

Personer med Aspergers syndrom lyfter fram sin stolthet och acceptans. Internet är viktigt för identiteten, där de söker kända förebilder.

*”Once I discovered myself as an Aspie, I became overjoyed and delighted in my self-discovery. Up until the mid-forties, my life was confusing and misunderstood.” [1]*

## Värdighet, tolerans och emotionellt stöd saknas

Personer med Aspergers syndrom argumenterar mot medicinering och önskar bli accepterade som de är.

*”One could say, I suppose, that I’m willing to attack ‘ideas’ – like the idea that autism should be treated as a disease, and considering autism to be ‘a set of negative behaviors,’ even the idea that autistic people are ‘special’ in some way (more ‘beautiful’, more ‘innocent’, etc). But I don’t attack people, and I’m not ‘at anyone’s throat.’” [1]*

Ungdomar med AST önskar anpassade lokaler, mentorer, bra kommunikation, kunnig personal, mer personal, välkomnande attityder, noggrannhet, arbete för ökad självkänsla, samhörighet, självständighet och livskunskap.

*”Coming here, I remember coming to [the school], and we were absolutely gob-smacked at the range of services; the numbers of student/staff ratios that existed. It was just great and it was just a sea-change in terms of our expectations.” [2]*

## Ensamhet, begränsat stöd, såväl materiellt som psykosocialt

Vuxna med AST/Aspergers syndrom upplever social isolering och svårigheter.

*"I'm not very outgoing on my own, in terms of taking the initiative." [3]*

Vuxna med AST/Aspergers syndrom vill ha riktade, strukturerade och gemensamma aktiviteter med indelning i smågrupper. De vill ha rollmodeller och alternativa kommunikationsmöjligheter samt efterlyser rak kommunikation och instruktion om sociala koder. De önskar få planera och ge utlopp för sina idéer. De önskar fysiska aktiviteter, gärna utomhus.

*"I dealt with my [social] frustration by starting up with the physical fitness thing." [3]*

De behöver få vara sig själva, mötas av en tålig och omtänksam attityd med tolerans och respekt samt stöd att initiera sociala kontakter.

## Ämnesområde 2: Relationen mellan patient, anhöriga och personal/vårdgivare

- Det finns vetenskapligt stöd för att personer med AST upplever otillräckliga kunskaper hos personalen inom vården och inom skolan samt att resurser och stöd är alltför begränsade. Föräldrar och syskon involveras ibland på ett sätt som kan leda till oenigheter i familjen.

Tabell 5.15 Tredje nivåns tema.

Tredje nivåns tema	Andra nivåns tema
Otillräckliga förutsättningar och påfrestande förhållanden för den som har AST, men det finns hopp om förbättringar	Brister i utbildning, personella och materiella resurser [2–4] Kontroverser, turbulens och oenigheter, men också viss samsyn [1,5,6] Hopp om förbättringar för barn och syskon, bättre kommunikation och ökad involvering av föräldrarna, samt pauser för kraftansamling [7–11]

Tabell 5.16 Första nivåns teman.

Första nivåns teman	Beskrivningar	Studier
Kunskapsluckor och tidsbrist hos läkare	Enligt föräldrarna borde barnläkarna vara bättre utbildade om AST och agera snabbare på upplevda svårigheter Enligt läkarna finns en önskan till bättre stöd, men det saknas tid, utbildning och resurser. Föräldrar efterlyste bättre utbildning om AST för barnläkare och ett ökat intresse. Läkarna angav tidsbrist, utbildning och resursbrist som hinder	[4]
Personer med AST/Asperger invänder mot majoritetens uppfattning om att AST är en sjukdom	Personer med Aspergers syndrom opponerar sig mot diagnos, läkemedel och konventionellt språkbruk och anser att omgivningen är handikappande Föräldrar och vårdgivare accepterar de dominerande definitionerna av Aspergers syndrom och förespråkar behandlingsförsök	[1]

Tabellen fortsätter på nästa sida

**Tabell 5.16** fortsättning

Första nivåns teman	Beskrivningar	Studier
Stöd saknas (personellt, materiellt)	Studenter med AST önskar lämpliga lokaler, mentorer, bra kommunikation, goda kunskaper hos personalen, mer personal, välkomnande attityder, noggrannhet, arbete för ökad självkänsla, samhörighet, självständighet och livskunskap  För att övergångar mellan olika skolor ska bli bra behövs särskilda resurser och en vilja att respektera eleven som individ	[2]
Önskar ordnad verksamhet. Behov av praktisk och social planering	Vuxna med AST/Aspergers syndrom vill ha riktade, strukturerade och gemensamma aktiviteter med indelning i smågrupper. De vill ha rollmodeller och alternativa kommunikationsmöjligheter samt efterlyser rak kommunikation och instruktion om sociala koder. De önskar få utlopp för sina kreativa och improviserade idéer och önskar fysiska aktiviteter utomhus. Andlighet och religion kan vara en förmedlande länk. De behöver få vara sig själva, mötas av en tålig och omtänksam attityd med tolerans och respekt. De behöver stöd att initiera sociala kontakter. Vuxna med AST/Aspergers syndrom har själva upplevt svårigheter av många olika slag och har också förslag till sociala förbättringar	[3]
Oenigheter föräldrar och barn	Personer med Aspergers syndrom är ofta oppositionella mot föräldrar och vårdnadshavare som argumenterar för tidig diagnos, läkemedel, bättre tillgång till behandling, specialskolor och utbildningsprogram. Föräldrar argumenterar för tidig diagnos, bättre tillgång till behandling, men också om att motarbeta stigmatisering genom att sprida kunskap om att barnen inte är bortskämda	[1]

Tabellen fortsätter på nästa sida

**Tabell 5.16** fortsättning

Första nivåns teman	Beskrivningar	Studier
Syskon blandas in	Syskon till personer med AST känner stort ansvar, medkänsla, rädsla, osäkerhet och får svårigheter med externa relationer. Syskonen har en besvärlig situation och blir brådmogna. De utvecklar en rädsla för fysiska skador och deras sociala liv påverkas negativt. Många hoppas att gruppboenden ska kunna erbjuda en lättnad för familjen. Osäkerheten för syskonen är en viktig faktor för föräldrarnas beslut att flytta barnet med AST	[8]
Stödgrupper är viktiga	Föräldrar till barn med AST kan lyckas med att förhandla sig till och utveckla en god situation. Ingen förälder har känt sig underlägsen eller undervärderad. Stödgrupper anses vara vitala. För att undvika stigmatisering ansågs det viktigt att få en diagnos	[7]
Samsyn anhöriga och personal	Föräldrar till personer med Aspergers syndrom accepterar behandlingar och vanliga definitioner av syndromet. Specialskolor och ökad tillgänglighet efterfrågas. Det är vanligt med kontroverser mellan personer med Aspergers syndrom och deras föräldrar, men föräldrarna tycks ha stöd av lärarna i detta	[1]
Förbättringar i sikte	Syskon till personer med AST hoppas att gruppboendeställning ska bli en befrielse. Stöd och rådgivning bör ges till alla familjemedlemmar. Syskon till barn med AST lever under ständig press men har också förhoppningar om att vårdhemsplacering ska bli bra för alla. Personalen inom vården och inom skolan bör enligt författarna även ge syskonen allt stöd	[8]
Lättnad med tveksamhet	Föräldrar till barn med AST som placerats på gruppboende upplever en befrielse efter flytten och man vill dela erfarenheterna med andra föräldrar. Beslutet är etiskt tungt men upplevs som riktigt eftersom barnen mår bättre. Vissa föräldrar är dock inte nöjda. Föräldrarna har intervjuats före och efter barnets förflyttning till gruppboende. De har i huvudsak varit lättnade, men det har också förekommit missnöje med omhändertagandet	[5]

Tabellen fortsätter på nästa sida



**Tabell 5.16** fortsättning

Första nivåns teman	Beskrivningar	Studier
Ogillande överlag, men enstaka områden positiva	Föräldrar till barn och ungdomar med AST upplever missnöje med långa väntetider till utbildning och stöd, brister i vård- och skolpersonals kunskap, bristfällig, svårigheter med den diagnostiska processen samt information om diagnosen. De är vidare missnöjda med stödet och utbildningen samt tillgången till AST-anpassat stöd. De är bekymrade över framtida behov men är också nöjda med dialogen, individuella program, professionell kunskap och kontinuitet om de involveras i processen. Bristande tillgång till diagnostik, stöd och utbildning	[6]
Föräldrarna vill bli mer involverade	Föräldrarna till barn med AST anser sig behöva ta ledarskapet, förhandla om utbildningsstruktur och bli förespråkare för lärarna. Föräldrarna visar stor tillit till lärare men är mer avvaktande till övrig personal	[9]
Kontakten och relationen är nödvändig	Föräldrar till barn med AST poängterar kommunikationens och förståelsens betydelse inför förflyttningar från en plats till en annan eller från en årskurs till en annan. Förflyttningarna bör vara behovsprövade och strategiska, och eventuella hinder analyserade. Personalen måste förstå barnet för att överföringarna ska lyckas och det måste finnas effektiva strategier för såväl årliga som dagliga förändringar. Föräldrarna måste involveras	[10]
Pauser behövs, motstånd kan övervinnas.	Mödrar till barn med AST värdesätter egen tid, planering, delat ansvar, kunskap som ger kraft, att "lätta på hindren" och att värdesätta glädjeämnen i livet  Mödrarna tar själva ansvar för sin situation och menar att formella stödgrupper har mindre betydelse	[11]

## Kommentar till analysen

Analysen baserar sig på elva olika studier av medelhög och hög kvalitet; fem från USA [3,4,9–11], en från Australien [7], en från Kanada [1], två från Sverige [5,8], en från Belgien [6] och en från Storbritannien [2]. Attityderna och erfarenheterna härrör från patienter, föräldrar, syskon och läkare. Patienterna består huvudsakligen av barn och ungdomar som i stor utsträckning är högpresterande och har normal intelligens, men är socialt svaga. De har i huvudsak positiva erfarenheter av Internet men negativa erfarenheter av diagnostiken och stödet från omgivningen. De vuxna med AST/Aspergers syndrom har stora förhoppningar på samhället som ännu inte infriat dem.

Föräldrarna är ofta hårt pressade och luttrade när det gäller samhällets insatser. Situationen blir inte bättre av att barnen/ungdomarna kan vara oppositionella och motsätta sig behandling, specialskolor och utbildningsprogram. Föräldrarna är missnöjda med väntetider till utbildning och stöd, brister i kunskap och utbildning hos vård- och skolpersonal samt svårigheter med den diagnostiska processen. De är också missnöjda med den information de fått om diagnosen, stödet och utbildningen samt brist på tillgång av AST-anpassat stöd.

De är bekymrade över framtida behov. Samtidigt är de nöjda med dialogen, individuella program, professionell kunskap och kontinuitet om de involveras i processen. De anser sig behöva ta ledningen, förhandla om utbildningsstrukturen och bli en förespråkare för lärarna. Förtroendet är lågt. Föräldrarna visar dock stor tillit till lärarna men är mer avvaktande till övrig personal.

Mödrar till barn med AST värdesätter egen tid, planering, delad börda, kunskap som ger kraft och kunna lätta på hindren och värdesätta glädjeämnen i livet. De tar själva ansvar för sin situation och menar att formella stödgrupper har mindre betydelse.

Syskon till personer med AST känner stort ansvar och medkänsla, men också rädsla och osäkerhet. De har en besvärlig situation då de blir brådmogna och får svårigheter med egna externa relationer. De utvecklar en rädsla för fysiska skador och deras sociala liv påverkas

negativt. Oron för syskonen är en viktig faktor för föräldrarnas beslut att flytta barnet med AST. Läkarna anser att det saknas stöd, tid, utbildning och personalresurser.

I detta tema ingår tre kategorier: **Brister i utbildning, personella och materiella resurser, Kontroverser, turbulens och oenigheter, men också viss samsyn samt Hopp om förbättring för barn och syskon, bättre kommunikation och ökad involvering av föräldrarna, samt pauser för kraftansamling.**

De intervjuade representerar olika åldrar och kommer från olika länder och i huvudsak fem grupper; en grupp som hävdar sin integritet och anser att det är omgivningen som har fel uppfattning om deras kompetens, en barn- och ungdomsgrupp som saknar insikt om sin situation, en grupp med vuxna som kan redogöra för sina upplevelser, föräldrar och syskon till barn med AST samt barnläkare.

Nedanstående redovisning inkluderar citat som är typiska för dessa i analysen beskrivna andra nivåns teman.

### **Brister i utbildning, personella och materiella resurser**

Enligt föräldrarna borde barnläkarna vara bättre utbildade om AST och agera snabbare på upplevda svårigheter. Enligt läkarna finns en önskan till bättre stöd, men det saknas tid, utbildning och resurser.

*”My wife is the medical home – she gets referrals and coordinates between physicians, two OTs, two SLPs, teachers at school, consultant, a behavioral specialist.” [4]*

Personer med Aspergers syndrom opponerar sig mot diagnos, läkemedel och konventionellt språkbruk och anser att omgivningen är handikappande.

*”Society needs to be ‘cured’ of its’ stereotypes and misconceptions. Cured of its very narrow-minded and short-sighted approach to what is [sic] ‘normal’ and ‘good’. Eventually, word will get out that there is nothing ‘wrong’ with our children and we won’t need to have autism in the DSM.” [1].*

Elever med AST önskar lämpliga lokaler, mentorer, bra kommunikation, kunnig personal, mer personal, välkomnande attityder, noggrannhet, arbete för ökad självkänsla, samhörighet, självständighet och livskunskap;

*”J’s transition here was brilliant because we did have huge concerns for him. He actually had, I think it was, three or four visits. He was lent a camera and he went around taking photographs of absolutely every teacher, every single classroom, you name it.” [2]*

Vuxna med AST/Aspergers syndrom vill ha riktade, strukturerade och gemensamma aktiviteter med indelning i smågrupper. De vill ha rollmodeller och alternativa kommunikationsmöjligheter och efterlyser rak kommunikation samt instruktion om sociala koder.

*”I would communicate by notes. We were in the same room, but I wanted to write notes back and forth.” [3]*

De vill få planera och ge utlopp för sina idéer och önskar fysiska aktiviteter, gärna utomhus. Andlighet och religion kan vara en förmedlande länk. De behöver få vara sig själva och mötas av en tålig och omtänksam attityd med tolerans och respekt. De behöver stöd att initiera sociala kontakter.

### **Kontroverser, turbulens och oenigheter, men också viss samsyn**

Personer med Aspergers syndrom är ofta oppositionella mot föräldrar och vårdnadshavare, vilka argumenterar för tidig diagnos, läkemedel, bättre tillgång till behandling, specialskolor och utbildningsprogram, vilket personerna ifråga motsätter sig.

*"However, autistics don't 'suffer'. There is nothing bad at all with being autistic. We're not 'disordered'; we're just different. That's all." [1]*

Syskon till personer med AST känner stort ansvar, medkänsla, rädsla, osäkerhet och får svårigheter med externa relationer.

*"My friends know that I have a brother with a handicap. But they haven't met him, only those who were in day nursery school in the same period as we were. I don't bring friends home when my brother is there because then mum doesn't have any time to help us." [8]*

### **Hopp om förbättring för barn och syskon, bättre kommunikation och ökad involvering av föräldrarna, samt pauser för kraftansamling**

Föräldrar till barn med AST kan lyckas med att förhandla sig till och utveckla en god situation. Ingen förälder kände sig underlägsen eller undervärderad. Stödgrupper anses vara viktiga.

*"I had all the parenting training, all the community organisations, there's lots of parenting courses... and it didn't seem to be getting the results that other people say they've either got or the courses led you believe you would expect to get." [7]*

Föräldrar till personer med Aspergers syndrom accepterar behandlingar och vanliga definitioner på syndromet. Man efterfrågar specialskolor och ökad tillgänglighet.

*"I recommend ALWAYS getting multiple evaluations done for your child. You wouldn't buy a new car just because the car dealer told you it was a great car, would you?" [1]*

Syskon till personer med AST hoppas att gruppbofastadsplacering ska bli en befrielse. Stöd och rådgivning bör ges till alla familjemedlemmar.

*"Much more fun. Then you can do a lot of things. You can watch TV and all that stuff and you will be safe from home." [8]*

Föräldrar till barn med AST som placerats på gruppbofastad upplever en befrielse efter flytten. Man önskar dela erfarenheterna med andra föräldrar. Beslutet har varit etiskt tungt men upplevs som riktigt eftersom barnen mår bättre. Vissa föräldrar är dock inte nöjda.

*"Leaving him was the worst thing ever. I've never been so... I still feel very sad when I think about it." [5]*

Föräldrar till barn och ungdomar med AST upplever missnöje med långa väntetider till utbildning och stöd, brister i kunskaper och utbildning hos skol- och vårdpersonal, svårigheter med den diagnostiska processen och information om diagnosen. De är också missnöjda med stödet, utbildningen och tillgången till AST-anpassat stöd. De är bekymrade över framtida behov, men är också nöjda med dialog, individuella program, professionell kunskap och kontinuitet om de involveras i processen.

*"We didn't have the faintest notion of possibilities for education and support for our son. By coincidence, you hear something from other parents about appropriate services and schools." [5]*

*"It was so good that they were honest with us, that they really communicated in plain terms. It was hard, but we really needed this clearness." [6]*

Föräldrar till barn med AST anser sig behöva ta ledningen.

*"And she is really on this crusade to educate herself and be an advocate for the disability and that kind of thing..." (a father about his wife) [9].*

Föräldrar till barn med AST understryker kommunikationens och förståelsens betydelse inför såväl överflyttningar från en plats till en annan eller från en årskurs till en annan. Dessa bör vara väl förberedda och behovsprövade, och eventuella hinder analyserade.

*”The bigger transition, the bigger concern, for example we had an issue with the transition from one activity to another, going to recess and coming back to class, and that transition was a challenge. And we have overcome that.” [10]*

Mödrar till barn med AST värdesätter egen tid, planering, delad börda, kunskap som ger kraft, att ”lätta på hindren” och värdesätta glädjeämnen i livet.

*”To relieve stress I have to escape, escape the family, you know, try to make plans with friends.” [11]*

### Ämnesområde 3: Allas perspektiv på patientens situation; stigma/diskriminering

- Det finns vetenskapligt stöd för att personer med AST, deras syskon och föräldrar upplever att det finns stigmatiseringsproblem och att dessa motverkas av en tidig diagnos.

**Tabell 5.17** Tredje nivåns tema.

Tredje nivåns tema	Andra nivåns teman
	Viktigt med diagnos och stöd [1,7]
Utsatthet och kamp för acceptans	Föräldrarna känner sorg och vanmakt och oroar sig för syskonen [8,11]

**Tabell 5.18** Första nivåns teman.

Första nivåns teman	Beskrivningar	Studie
Diagnos som skydd	Föräldrar till barn med AST beskriver att stigmatiseringen motverkas av AST-diagnosen. Stigmatisering är en fruktad konsekvens av AST och det är därför viktigt för föräldrarna att få en diagnos som legitimerar familjens särprägel	[7]
Tolerans och stöd	Personer med Aspergers syndrom vill bli accepterade som de är, medan deras föräldrar vill att de ska behandlas för sina avvikelser. Alla vill bli accepterade som de är samtidigt som alla inser att det behövs stödfunktioner som kan accepteras	[1]
Socialt utsatta syskon	Syskon till barn med AST får sina relationer med omgivningen störda. Familjer med barn med AST blir starkt påverkade av deras opålitliga, ibland destruktiva beteenden. Syskonen vågar inte ta hem sina kamrater och deras egna sociala nätverk påverkas negativt	[8]
Utsatta mödrar	Mödrar till barn med AST menar att det är viktigt att försöka ”lätta på hindren”. Ett sätt för mödrar att hantera sin situation är att acceptera situationen och försöka se positivt på den. Formella stödgrupper är mindre viktiga	[11]

## Kommentar till analysen

Analysen baserar sig på fyra olika studier av medelhög till hög kvalitet; en från Australien [7], en från Kanada [1], en från Sverige [8] och en från USA [11].

Patienter, föräldrar och syskon har erfarenheter av stigmatisering. En tidig och tydlig diagnos kan i viss mån motverka detta genom att den legitimerar den besvärliga situationen. Patienterna, som huvudsakligen består av barn och ungdomar, känner sig avvikande och utsatta och syskonens sociala aktiviteter hämmas. Mödrarna behöver stöd, hellre från omgivningen än från formellt utsedda personer.

I temat ”utsatthet och kamp för acceptans” ingår två kategorier: **Viktigt med diagnos och stöd** samt **Föräldrarna känner sorg och vanmakt och oroar sig för syskonen**.

De intervjuade representerar olika åldrar och kommer från olika länder och i huvudsak tre grupper; en som hävdar sin integritet och anser att det är omgivningen som har fel uppfattning om deras kompetens, en som utgörs av syskon till barn med AST och en grupp med föräldrar till barn med AST.

Nedanstående redovisning inkluderar citat som är typiska för dessa i analysens beskrivna andra nivåns teman.

### Viktigt med diagnos och stöd

Föräldrar till barn med AST beskriver att stigmatiseringen motverkas av diagnosen.

*”I think that the terminology of special needs child is far more acceptable than whether it be autism or whether it be cerebral palsy or you know anything like that. As soon as you say ‘he’s a special needs child’ people are just more accepting.” [7]*

*”Though autism is, as several people have acknowledged, a neurological condition as opposed to a mental illness, inclusion of autism in the DSM has provided a means for public awareness of autism. It has also allowed parents to get needed services and accommodations from local school districts and communities.” [1]*

Personer med Aspergers syndrom vill bli accepterade som de är medan deras föräldrar vill att de ska behandlas för sina avvikelser.

*”Asperger’s typically is manifested in problems with communication problems with forming and maintaining relationships and a lack of imagination. In many cases it is possible to live a fruitful and relatively normal life with this condition.” [1]*

Föräldrarna känner sorg och vanmakt och oroar sig för syskonen. Syskon till barn med AST får sina relationer med omgivningen störda.

*”I don’t take people home if I don’t really know them. Most of my pals in school do not know [that I have a brother with autism].” [8]*

Mödrar till barn med AST menar att det är viktigt att försöka ”lätta på hindren”.

*”They are great kids. I think they were sent to me for a reason.” [11]*

### Ämnesområde 4: Anhörigas och vårdgivares perspektiv på sig själva

- Det finns vetenskapligt stöd för att anhöriga och professionella vårdare till personer med AST upplever resursbrist, stress, sorg och maktlöshet, men också större medkänsla och ansvarsmedvetenhet.

**Tabell 5.19** Tredje nivåns tema.

Tredje nivåns tema	Andra nivåns teman
Från utsatthet till större livserfarenhet	Förväntningar motsvaras inte [4]
	Oönskade krav ger frustration och utveckling [5,7–10]
	Omvärdering av personliga attityder [5,9–11]

**Tabell 5.20** Första nivåns teman.

Första nivåns teman	Beskrivning	Studie
Arbete med knappa möjligheter	Läkare beskriver resurs- och kunskapsbrister, föräldrar och vårdnadshavare känner sig stressade. Läkarna beskriver sig som förespråkare, koordinatörer och remitterer snarare än terapeuter. De får ofta uppdraget av föräldrarna att behandla beteendestörningarna, vilket de inte anser som sin uppgift. Ingen har någonsin blivit kontaktad av skolpersonal eller varit på något möte i skolan, men konflikter har förekommit beträffande diagnostiken	[4]
Familjen blir utsatt	Familjelivet förändras, ökad offentlighet, ökade kunskaper. Föräldrarna upplever stigmatisering men lyckas motstå detta genom att sprida kunskap om AST	[7]
Syskonen sårbara	Syskon till barn med AST får ökad medkänsla och blir mer ansvarstagande, men de blir också osäkra och rädda	[8]
Föräldrar emotionellt påverkade, både bedrövelse och ny tillit	Föräldrar till barn med AST känner sorg, maktlöshet, utmattning och isolering, men har också en förhoppning om förbättring och får förändrade attityder och förståelse för andra som har det svårt	[5]
Föräldrarollen stimulerar till växt och ökat ansvar	Föräldrar till barn med AST upplever sig som ledare, förhandlare, stödjare och förespråkare. En viktig orsak till dessa roller är att de måste ta på sig ett större ansvar för barnets förflyttningar så att barnet sätts i centrum	[9]

Tabellen fortsätter på nästa sida

**Tabell 5.20** fortsättning

Första nivåns teman	Beskrivning	Studie
Ökad ansvarsmedvetenhet	Föräldrar till barn med AST anser att de måste ta ansvar så att barnets intresse sätts i första hand, då barnet ska förflyttas. Efterhand lärde sig föräldrarna strategin att identifiera – observera – undersöka inför de förflyttningar som ska göras	[10]
Mödrar omvärderar livssituationen	Mödrar till barn med AST lär sig att värdesätta egen tid, att planera och att dela ansvaret. De skaffar sig kunskap och kan ”lätta på hindren” samt värdesätter glädjeämnen i livet	[11]

## Kommentar till analysen

Analysen baserar sig på sju olika studier av medelhög och hög kvalitet; en från Australien [7], två från Sverige [5,8] – och fyra från USA [4,9–11]. Läkare, föräldrar och syskon (5–29 år gamla) anser att de påverkats av sina erfarenheter av AST. Läkarna tycker inte att de kan leva upp till de förväntningar som ställs på dem. Föräldrarna utvecklas till mer ansvarstagande och toleranta personer som kan finna nya glädjeämnen. Syskonen kan drabbas hårt men utvecklar också medkänsla och ansvarstagande.

I temat ”från utsatthet till ökad livserfarenhet” ingår tre kategorier: **Förväntningar motsvaras inte**, **Oönskade krav ger frustration och utveckling** samt **Omvärdering av personliga attityder**. De intervjuade representerar olika åldrar, kommer från olika länder och i huvudsak tre grupper: läkare, syskon och föräldrar till barn med AST. Nedanstående redovisning inkluderar citat som är typiska för dessa i analysen beskrivna andra nivåns teman.

## Förväntningar motsvaras inte

Läkare beskriver resurs- och kunskapsbrister, föräldrar och vårdnadshavare känner sig stressade.

*”Most [families] know more than I know about the resources in the state.” [4]*

## Oönskade krav ger frustration och utveckling

Familjelivet förändras, ökad offentlighet och högre kunskapsnivå.

*”Absolutely. Massively. I try to avoid it but basically the house is structured around the needs of someone with autism...” (Discussing influences of the siblings) [7].*

Syskon till barn med AST får ökad medkänsla och blir mer ansvarstagande men de blir också osäkra och rädda.

*”When I think that my parents need to rest, I go and try to comfort him.” [8]*

Föräldrar till barn med AST känner sorg, maktlöshet, utmattning och isolering, men också en förhopp om förbättring och ändrade attityder och förståelse för andra som har det svårt. De upplever sig vara ledare, förhandlare, stödjare och ombud samt att de måste ta ansvar för barnets förflyttningar så att barnet sätts i centrum.

*”It has been so difficult with him. I sometimes wonder what he really feels. He wakes up at night and screams. The only thing that helps is my sitting and holding him. I feel so tired, so tired all the time. He wakes up at five or six in the morning. I’m so tired I just cry.” [5]*

## Omvärdering av personliga attityder

Mödrar till barn med AST lär sig att värdesätta egen tid, planera och att dela ansvaret. De skaffar sig kunskap för att kunna ”lätta på hindren” och värdesätta glädjeämnen i livet.

*”Me time’ can be spending time with the siblings of the child with AST.” [11]*

*”He’s very affectionate, probably more than a typical eight-year old child.” [3]*

## Kvantitativ analysmetod

### Beskrivning av studier och resultat inklusive tabeller

Vi fann endast en studie av hög kvalitet som använde kvantitativ analysmetod [12]. Den ändrade synen på AST, från barndomspsykos till utvecklingsrelaterad funktionsnedsättning, har medfört att föräldrarna inte längre betraktas som orsaken till barnets problem. Istället betraktas de som delaktiga i behandlingen. Detta ställer nya krav på såväl föräldrarnas förmåga att anpassa sig efter situationen och på samhällets möjligheter att hjälpa och stötta. Denna svenska studie fokuserar på coping-strategier hos föräldrar till barn med AST och relationen mellan strategier och fostran. Strategierna mättes med Sense of Coherence Scale (SOC) och Purpose in Life Test (PIL-R).

Sense of Coherence översätts till svenska som *Känsla av sammanhang (KASAM)* som ”ger människor ett perspektiv på sin tillvaro som gör att de framgångsrikt kan bemästra komplexa och många stressorer som vi möter i livet” [13]. Begreppet KASAM innefattar tre delkomponenter; begriplighet, hanterbarhet och meningsfullhet. Antonovsky som beskrev begreppet hävdar att dessa tre komponenter är ”oupplösligt sammanflätade” med varandra [14]. SOC-värden från 29 till 87 anses vara låga och värden över 145 höga. Purpose in Life mäter ”meningen med livet”. Värden mindre än 111 signalerar att personer inte funnit en tydlig mening med livet, medan högre värden pekar på motsatsen. Föräldrarnas attityder till barnuppfostran utvärderades med Family Impact Questionnaire och innefattar fyra dimensioner: Kärleksfull omvårdnad, Oro/Ängslan, Stress och Skuldkänslor.

Deltagarna var 66 föräldrar (37 mödrar och 29 fäder) till barn med AST och en matchad kontrollgrupp bestående av ett randomiserat urval av 66 föräldrar till barn utan AST. Kontrollgruppen hämtades från

6 200 familjer med hemmavarande barn. Från dessa randomiserades 300 familjer som informerades och tillfrågades om studien. Av de som accepterade matchades 66 föräldrar med hänsyn till antalet hemmavarande barn, deras ålder och kön, samt föräldrarnas kön, ålder, utbildning och yrke. Alla yrken var representerade. Medelåldern i experimentgruppen var 43 år och i kontrollgruppen 39 år. Andelen kvinnor var 56 procent i båda grupperna. Antalet familjer med fyra barn eller fler var något högre i kontrollgruppen, fyra respektive nio. Paired Samples t-Test (och Independent Samples t-Test för könsskillnader) samt Pearsons r-korrelation användes i analysen. Man fann signifikanta skillnader mellan grupperna i nästan alla variabler (uppmätta kategorier). Fäder uppvisade högre SOC, d v s stabilare känsla av sammanhang än mödrar till barn med AST. Föräldrar till barn med AST uppvisade signifikanta korrelationer mellan SOC och Stress, mellan Stress och Kärleksfull omvård, mellan Stress och Oro, liksom mellan Skuld-känsla och Oro.

De hade inte funnit någon klar mening med livet i samma utsträckning som kontrollgruppen. Slutsatsen av studien var att ansträngningar för att öka föräldrars copingförmåga och motståndskraft bör riktas mot alla tre dimensioner av SOC (begriplighet, hanterbarhet och meningsfullhet).

## Studier med låg kvalitet

Taiwanesiska mödrar (104 stycken) till barn med autistiskt syndrom besvarade ett livskvalitetsformulär (WHOQOL-BREF). Studien visade att mödrarnas känslor, kronisk sjukdom och religion korrelerade med QOL (quality of life), men däremot inte graden av utbildning eller anställning/hemma arbete [15].

Vi fann en studie från Storbritannien om erfarenheter av taktil beröring före, under och efter ett tränings- och stödprogram för föräldrar. Fjorton föräldrar (13 mödrar, 1 far) och deras barn med autistiskt syndrom (87 procent pojkar) deltog vid studiens start men fem drog sig sedan ur. Efter 16 veckor beskrev föräldrarna en ökad känsla av närhet till sitt barn. Barnen hade ett bättre sömnmönster, var mera avslappnade och verkade mer mottagliga för beröring. Flera barn önskade massage i hemmet [16].

I en studie från Skottland studerades 126 föräldrars (73 procent mödrar) tillfredsställelse med slutsamtal och diagnosbesked för sina barn (1–15 år gamla, 85 procent pojkar) med autistiskt syndrom (77 procent) eller Aspergers syndrom (16 procent) och autistiska drag (7 procent). Femtiofem procent angav att de var nöjda eller mycket nöjda och påverkades av kvaliteten på informationen, personalens bemötande, om de kunnat ställa frågor eller om de fått skriftlig information. De fick också svara på om deras tidiga misstankar hade bekräftats av den professionella utredaren. Svarefrekvensen var bara 38 procent vilket förklarar kvalitetsbedömningen [17].

Fyrtiofyra föräldrar till barn med pervasive development disorder (betyder ungefär genomgripande störning i utvecklingen) i åldrarna 3–15 år har intervjuats i USA, vilket resulterade i ett träningsprogram för föräldrar lett av sjuksköterska [18].

Fyrtiotre amerikanska ungdomar (4–26 år gamla, 93 procent pojkar/unga män) med autistiskt syndrom (medelålder 13,5±5,9 år), grupperades efter svårighetsgrad av beteende (Frankls kategorier). Sämre tandstatus var korrelerat till större beteendeproblem. Sextiotre procent av patienterna kunde få tandvård med hjälp av anpassad kommunikation, läkemedel och/eller ett tillvägagångssätt som gjorde att patienten inte kunde röra sig medan 37 procent krävde narkos. Man frågade också efter patienternas matvanor och preferenser. Fyrtioen procent av föräldrarna var involverade i barnens munhygien [19].

Fokus för denna skotska studie är ett slutsamtal med diagnosbeskedet AST. Nio olika professionaliteter intervjuades och 126 föräldrar (73 procent mödrar) besvarade en enkät. Föräldrarna önskade riktlinjer för diagnos, professionellt bemötande och besked om diagnosens betydelse, prognos och osäkerhet. Ingen yrkesutövare förordade alltför strikta förutbestämda riktlinjer för diagnosmeddelandet. Uppföljningen varierade liksom vårdkedjor och diagnostiska kriterier. Yrkesutövarna förstod de svårigheter föräldrarna upplevde [20].

Fyrtioåtta föräldrar (85 procent mödrar) till barn med AST (mer än 65 procent pojkar) och 34 terapeuter i Kanada fick svara på en enkät om



intensiv beteendeterapi och föräldraengagemang. Föräldrarnas känsla av förmåga, kunskaper och tro på metoden var signifikant korrelerad till deras engagemang och speciellt betydelsefullt var föräldrarnas känsla av egen förmåga [21].

I denna amerikanska studie gjordes en telefonförfrågning till 45 familjer som hade barn med AST (4–18 år gamla, ingen uppgift om kön). Föräldrarna ingick i en stödgrupp. Frågorna som ställdes gällde barnens skolform, kommunikationen med personalen, föräldrarnas kunskap om undervisningsprogrammet och om de var nöjda med barnens pedagogiska situation. Nästan hälften av föräldrarna (44 procent) bedömde att skolpersonalen inte hjälpte deras barn med det de mest behövde. Föräldrar till yngre barn var mer nöjda med kommunikationen med skolan än föräldrar till äldre barn [22].

Denna amerikanska artikel beskriver specialundervisning av 186 förskolebarn (3–5 år, könskvot 6:1 pojke:flicka) med autistiskt syndrom som subgrupp till 3 104 barn med andra handikapp. Barnen med AST fick fler former av stöd och vid fler tillfällen än barnen med andra handikapp. Man fann att föräldrarna till barnen med AST var mer missnöjda än de övriga föräldrarna men att många likheter förelåg mellan de båda grupperna. Föräldrarna till barnen med AST hade svårare att få mer stöd till olika aktiviteter (önskade fler stödtimmar) [23].

## Sammanfattande analys

Vi har delvis kunnat besvara de frågor vi ställde, men det finns många kunskapsluckor. De studier som inkluderats har i huvudsak kvalitativ design. Samtliga studier är genomförda i västvärlden. Den psykiatriska vården är olika i olika länder och synen på psykiskt sjuka och psykiatrisk vård har en del specifika nationella förtecken. Vi har dock inte funnit påtagliga skillnader mellan olika länder i de frågor som ingått i vårt projekt. Även urvalet av informanter och studiemiljön har vägts in. AST har idag en stor aktualitet och under senare år har ökade kunskaper och nya behandlingsalternativ kommit fram. Tillståndet karakteriseras av att personerna har en skör och ibland svag autonomi, och deras egen med-

verkan och delaktighet i behandling och behandlingsbeslut kan vara svårt att synliggöra. För personer med AST är det troligt att såväl verbal som icke-verbal kommunikation kan öka personernas förståelse, men inte nödvändigtvis. Så kallad kompletterande kommunikation kan användas för att säkerställa att patientens röst verkligen är patientens egen.

Effekter av neuropsykologiska funktionsnedsättningar (som t ex förmågan att förstå vad andra tänker/känner, förmågan att se sammanhang och planeringssvårigheter) föreligger i varierande grad. Ibland finns också intellektuella svårigheter att ta hänsyn till.

När ett barn har AST är det inte endast ett isolerat problem för barnet, utan för hela familjen, släkt och vänner, liksom lärare och stödpersoner.

Personer med AST har villkor och uppfattningar om vård och behandling som är intimt förknippade med anhörigas och personalens syn och förutsättningar. Det är därför naturligt att även studera de senare gruppernas uppfattningar om patientens vård. Många studier inkluderar i sin design ofta personal och anhöriga, ibland med och ibland utan patienter. På det sättet blir personernas villkor belysta på ett mer indirekt vis.

Detta kapitel fokuserar särskilt på hur personer med AST aktivt medverkar i sin vård; hur de är delaktiga i beslut och avgöranden samt upplevelser av detta. Vilka möjligheter har man att påverka sin egen vårds utformning och genomförande?

I studierna kan man urskilja två grupper av personer med AST. Den första är barn och ungdomar som har så omfattande och/eller vårdkrävande funktionsnedsättningar att de inte kan vårdas i hemmet. Den andra gruppen utgörs av barn och ungdomar som kan klara sig i hem och skola med olika typer av stöd. Till den andra gruppen hör också personer med Aspergers syndrom som kan ha starka åsikter om sin identitet och om samhällets syn på dem själva. Gemensamt för alla grupper är att de har svårigheter med det sociala umgänget och de sociala spelreglerna, kommunikationssvårigheter i varierande grad, begränsade intressen och rutinbeteenden. Syskon och föräldrar är i hög grad påverkade av situationen samtidigt som de också blir talesmän.

Den första gruppens egna upplevelser och inställningar är okända, men föräldrarna kan beskriva deras ensamhet. Föräldrar till barn med AST som erbjudits särskilt boende upplevde en befrielse efter byte av boende. Beslutet var etiskt svårt men upplevdes i efterhand som riktigt eftersom både barnens och familjens situation förbättrades. Vissa föräldrar var emellertid inte nöjda och önskade dela sina erfarenheter med andra föräldrar. De poängterade kommunikationens betydelse inför alla typer av förändringar och insåg hur viktigt det var med förståelsen hos alla inblandade.

Den andra gruppen kan uppleva osäker identitet och ensamhet. Många saknar materiellt och emotionellt stöd och resurser; samhörighet och acceptans efterlyses. De kan formulera vad de saknar, trots att de ofta inte har någon realistisk insikt om sitt funktionshinder. Det rör sig om relativt okomplicerade önskemål; lämpliga lokaler, bra kommunikation, stödpersoner, kunnig och intresserad personal i skola och vid fritidsaktiviteter, och att man arbetar för ökad självkänsla, samhörighet, självständighet och livskunskap.

I studierna lyfte en del personer med Aspergers syndrom fram sin stolthet och acceptans, och att internet visat sig vara ett idealiskt sätt att kommunicera. På nätet kan de finna sina likar, utveckla nya nätverk och utbyta erfarenheter och åsikter. De har föreställningen att det är det omgivande samhället som är stört och att de själva ofrivilligt hålls utanför. De har ofta konflikter med föräldrarna som anser att personerna i fråga bör sjukförklaras, utredas och behandlas, vilket de själva inte har någon förståelse för. De önskar sig emellertid riktade, strukturerade och gemensamma aktiviteter. De uppskattar små grupper, rollmodeller, alternativa kommunikationsmöjligheter, rak kommunikation och instruktion om sociala koder. De vill få vara sig själva, tillåtas få ett kreativt och improviserat utlopp för sina idéer, kunna utöva andlighet och religion samt kunna delta i fysiska aktiviteter utomhus. I studierna uttrycker

personer med AST att de vill bemötas med tåliga och omtänksamma attityder, tolerans och respekt, samt stöd till att initiera sociala kontakter. Syskon till personer med AST kan komma i kläm. Studierna visar att de känner stort ansvar och medkänsla, men kan också känna rädsla och osäkerhet och drabbas av svårigheter med egna sociala relationer. Hela familjen måste få stöd.

Föräldrar till barn med AST uttrycker i studierna att de har en arbetsam och besvärlig situation både på det ekonomiska, sociala och existentiella planet, med uttalad oro för både aktuell situation och framtiden. De inser att de är de enda som kan ta tillvara sitt barns intressen på sikt och måste därför börja kämpa redan i förskolan. De saknar ett pålitligt stöd från samhället, men om de väl får det dämpas oron. Specialskolor och ökad tillgänglighet efterfrågas. De anser sig behöva ta ledarskapet, förhandla om utbildningsstruktur och fungera som förespråkare även för lärare. Föräldrarna kan lyckas med att förhandla sig till och utveckla en acceptabel situation för sina barn. Överflyttningar från en plats till en annan eller från en årskurs till en annan, bör vara väl förberedda och behovsprövade. Eventuella hinder som försvårar överflyttningen bör vara analyserade. Ingen av de intervjuade föräldrarna i dessa studier har känt sig underlägsen eller undervärderad.

För att öka föräldrars copingförmåga och motståndskraft kan vårdens ansträngningar riktas mot de tre dimensioner som ingår i det etablerade KASAM-begreppet (känsla av sammanhang); begriplighet, hanterbarhet och meningsfullhet.

Det framkom även att föräldrar till barn med AST anser att stigmatisering motverkas av att få en tidig och tydlig diagnos.

**Table 5.21** Qualitative method.

Author Year Reference Country	Material Analysis method	Informants	Results	Summary	Study quality Comments
Benderix et al 2007 [8] Sweden	Interviews with 14 siblings to 5 children 10–11 years of age with autism and moderate to severe mental retardation, during the time they moved to a group home.  The broad research question was:  “What is it like to have a sibling with autism?”  The interviews were audio-taped and transcribed verbatim.  Qualitative content analysis were used. Categories were grouped together under higher-order headings	14 siblings (8 males and 6 females) aged 5 to 29 years from 5 families.  Most of the siblings were still in school. Three had families of their own.	Seven categories: • Having a sense of precocious responsibility  • Feeling sorry for the brother or sister  • Being exposed to frightening abnormal behaviour  • Having empathetic feelings for the child with autism  • Hoping that the group home will be a relief for the family  • Physical violence in the family made siblings feel unsafe and anxious at home  • Having a brother or sister with autism affects relationships with friends negatively	Siblings to children with autism experience stressful life conditions such as precocious responsibility, pity, and fear for being exposed to frightening abnormal behaviour and physical violence, empathy and hope. They also experience a diminished social life with few friends, not taking home friends or not even talking about their brother or sister  The majority hopes the group home will be a relief for the family  The strongest support from the sibling’s point of view for parent’s decision to move the child with autism to a group home, is the feeling of unsafeness and anxiety due to the present violence  Recommendations;  Support and counselling should be given to all members of a family  It is urgent to implement programs of early intervention  Peer groups for siblings can be a valuable support. Young siblings need protection from violent behaviours	High  Insufficient gender information of the children with autism  Approved by ethics committee

*The table continues on the next page*

**Table 5.21** *continued*

Author Year Reference Country	Material Analysis method	Informants	Results	Summary	Study quality Comments
Benderix et al 2006 [5] Sweden	<p>Case study before and after entrusting five children with autism and moderate to profound mental retardation, to a group home</p> <p>Their language was considerably delayed or absent</p> <p>Hermeneutic phenomenological analysis of narrative interviews was used</p>	<p>10 parents with five 10–11 year old children were interviewed in 2000 and 2002, first time as a couple, second time one by one</p>	<p>Themes before the move:</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Grief and sorrow about not having a healthy and typically developing child</li> <li>• Attitudes towards other persons with problems had changed</li> <li>• The aberrant behaviour of the child was sometimes not possible to regulate</li> <li>• Total exhaustion</li> <li>• Social isolation</li> <li>• Siblings being affected negatively.</li> </ul> <p>Themes after the move:</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• It was a relief for the family when the child moved</li> <li>• Being ethically difficult situation when entrusting the child to others</li> <li>• Satisfaction because of the child improving</li> <li>• Parents not being satisfied with the group home</li> <li>• Sharing experiences with other parents</li> <li>• Hope for the future</li> </ul>	<p>The group seemed to be a relief, despite the burden on the parents of the ethical question: are we doing the right thing?</p> <p>Society should reflect on living conditions for autistic children with learning disabilities and their families, the needs for home-based services and the possibilities of future sheltered housing (not be living with their families)</p>	<p>Moderate</p> <p>Small study that needs more investigation</p> <p>No gender information of the children with autism</p> <p>Approved by ethics committee</p>

*The table continues on the next page*

**Table 5.21** continued

Author Year Reference Country	Material Analysis method	Informants	Results	Summary	Study quality Comments
Carbone et al 2010 [4] USA	Two 90 minute separate focus groups to identify unmet needs within “medical homes” of children with ASD  Six broad open-ended questions. Audiotaping, detailed notes. Content analysis. Review by participants	5 parents (4 mothers and 1 father) of 7 boys with ASDs (with a wide range of age and functional levels) and 9 paediatricians  Setting: “Medical homes” (a model of delivering primary medical care that is accessible, continuous, comprehensive, family-centred, coordinated according to American Academy of Paediatrics)	Themes were: • The role of the medical home  • The diagnosis and management of ASDs  • Caregiver stress  • Complementary and alternative treatments  Parents perceive that physicians did not act early upon their concerns, and that care is less comprehensive, coordinated and family-centered than desired  Paediatricians desire to improve services but cite lack of time, training and resources as barriers	Medical homes for children with ASDs would benefit from better paediatricians, ASD education and medical systems that support extended visits, care coordination and interdisciplinary collaboration	Moderate  Few parent participants  The open-ended questions are not specified. Uncertain representativity  Approved by IRB (Institutional Review Board of the University of Utah)

*The table continues on the next page*

Table 5.21 continued

Author Year Reference Country	Material Analysis method	Informants	Results	Summary	Study quality Comments
Clarke et al 2008 [1] Canada	<p>The first 30 blogs from each perspective; "Aspies" and parents/caretakers, by selected from a Google search using the term Asperger blogs during one day</p> <p>Qualitative content analysis of 2 x 30 blogs</p> <p>Emerging themes were noted after rereading the summaries of the blogs</p> <p>Majority of bloggers were females and older than 20 years old, although gender /age information were lacking in one third from each groups</p>	Blogs written by self identified people with Asperger's syndrome and parents/caretakers of people with AS	<p>Major repeated frames by:</p> <p>A. "Aspies"</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Self-pride and acceptance</li> <li>• Role of Internet for maintaining a positive identity</li> <li>• Important people with AS</li> <li>• Disabling environment</li> <li>• Opposition to conventional language</li> </ul> <p>B. Parents/caretakers</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Acceptance of dominant definitions and terms</li> <li>• Treatment</li> <li>• Minority opinion</li> <li>• Opposition to medicalisation</li> </ul> <p>The majority of parents argues for early diagnosis, greater access to treatment, to elimination of the disorder, and to special schools and educational programmes</p>	<p>The "Aspies" and the parents/caretakers views are frequently oppositional to one another</p> <p>The Aspies argues against a pathologising and medicalising perspective, whereas the parents and caretakers accept the medical definition, seek assistance and cure for their children</p> <p>Aspies have only experienced their own realities. As children they have little or no awareness of normative expectations</p> <p>A theoretical, methodological, substantive and practical discussion can increase the understanding of the "Aspies"</p> <p>The confusing and difficult protective role of parents to children with ASD aiming to socialize, love nurture and protect is discussed</p>	<p>Moderate</p> <p>A preliminary and exploratory study</p> <p>No random samples</p> <p>Socioeconomic data is lacking</p> <p>Ethic discussion included</p>

The table continues on the next page

Table 5.21 continued

Author Year Reference Country	Material Analysis method	Informants	Results	Summary	Study quality Comments
Farrugia 2009 [7] Australia	<p>Twelve semi-structured interviews of 1–3 hours with parents of children diagnosed with ASD were recorded and transcribed. Questions asked aimed to cover all aspects of the influence having a child with ASD</p> <p>Themes discussed: parenting, changes to social lives and daily activities, encounters with institutions</p> <p>Discourse (content) analysis was used to analyse participants' account of their sense of self</p>	<p>16 parents (4 both mothers and fathers, 7 mothers only, 1 father only)</p>	<p>Discourse reconstructions of subjectivity following diagnosis:</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• the meaning of diagnosis</li> <li>• changes in family life</li> </ul> <p>ASD diagnosis is critical for parents to resist stigmatisation</p> <p>Enacted stigma and the strategic reconstruction of normality:</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• enacted stigma</li> <li>• strategic reconstructions of normality</li> <li>• public situations</li> <li>• institutions</li> </ul> <p>Parents experienced considerable enacted stigma, but successfully resisted them by deploying medical knowledge</p>	<p>The medical discourses are strategically deployed by parents of children diagnosed with ASD to resist stigmatisation</p> <p>Parents successfully negotiate and perform an unspoiled subject position. No parent felt inferior or devalued</p> <p>Support groups are a vital space for the sense of normality to take place</p> <p>The Nature of face-to-face interaction in public makes deploying medical constructions of their child's behaviour difficult for parents</p> <p>Avoiding the specific implications of ASD, "special needs child" is a more flexible construct for parents to deploy when presenting their family to others</p> <p>The situations of siblings are discussed as well as the vital importance of the routines for the family life</p>	<p>Moderate</p> <p>Support group for parents with children diagnosed with ASD</p> <p>No gender presentation of the children</p> <p>No information of ethical approval</p>

The table continues on the next page

**Table 5.21** continued

Author Year Reference Country	Material Analysis method	Informants	Results	Summary	Study quality Comments
Kuhaneck et al 2010 [11] USA	In-depth interviews on mother's coping with ASD, recruited from ASD support groups  Individual semi-structural interviews with open-ended questions. Thematic analysis was phenomenological after coding and identifying clusters of meaning across cases  Continued review of interviewing techniques and triangulation  No new information emerged after 11 interviews	11 mothers of at least one biological child over the age of 2 years with a diagnosis of ASD	Six themes emerged: • "Me time"  • Planning  • Sharing the load  • Knowledge is power  • Lifting the restraints of labels  • Recognizing the joys	These mothers had a variety of ways to cope with parental stress and reported that time alone, planning ahead, educating themselves, reframing difficulties in a more positive light, and working with their spouse in partnership were the key coping strategies  Formal support groups were less helpful  The following themes are described: Coping, family, diagnosis, identity, communication, support and attitudes of the society, gender	Moderate  Approved by Sacred Heart University IRB
Müller et al 2008 [3] USA	Individual semi-structural interviews with a series of open-ended questions to describe experiences of navigating in social worlds and to recommend effective social supports and strategies for improving social connectedness. Copy to the stakeholders, analysis of major (mentioned by >50%) and minor (mentioned by >25%) themes in two phases. Coding with ATLAS.ti 4.1 and consensus	18 adults (15 women, 13 men) with self-reported difficulties with social cognition and a formal diagnosis of Asperger syndrome or other ASD syndrome, based on DSM-IV, and no diagnosed mental retardation. Recruitment by telephone calls and personal contacts, ASD and parent support groups	15 major and 11 minor themes were yielded and categorized in two categories 1) social experiences and 2) recommendations for social supports  Isolation, difficulties initiating social interactions, challenges relating to communication, longing for intimacy and social connectedness, desire to contribute to one's community and an effort to develop greater social/self-awareness were described. Recommendations were given	Contributes to the knowledge of how individuals with ASDs can better be supported to make meaningful social connections, and how they make sense of social contexts  Recommendations should prove useful to teachers, clinicians, and adult service providers  Limitations were: Participants belonged to autism support groups, many were older adults who did not receive diagnosis of ASD until later in life, and several strategies were identified by fewer than 10 participants	Moderate  No ethics approval is mentioned

*The table continues on the next page*



Table 5.21 continued

Author Year Reference Country	Material Analysis method	Informants	Results	Summary	Study quality Comments
Renty et al 2006 [6] Belgium	<p>Literature review to create a special questionnaire for the purpose with six main categories supplemented with semi-structured in-depth interviews with a stratified sample of 15 parents</p> <p>The interviews were audio taped and transcribed verbatim. Thematic analysis</p> <p>Recruitment process from diagnostic centre (105/180)</p> <p>Advertisement (125) and special school (14)</p> <p>35% of the children had an intellectual disability</p> <p>Parents signed a consent form</p>	<p>244 parents of children with ASD, 3–18 years old, male-female sex ratio 4:1)</p> <p>64% only mothers, 7% only fathers, 25% both parents and 3% by others (grandparents)</p>	<p>Six main categories from the questionnaire</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• General demographic information</li> <li>• Diagnosis</li> </ul> <p>The parental satisfaction with the diagnostic process was significantly associated with the age of diagnosis, the amount and quality of perceived information</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Access to appropriate education and support</li> </ul> <p>Dissatisfaction with long waiting lists, limited supply of specialist schools and services for ASD</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Education and support</li> </ul> <p>Satisfactions due to mutual information exchange about the child with ASD, individual program, professional knowledge and expertise, continuity of staffing</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• ASD-specific knowledge and training</li> <li>• Concerns and future needs</li> </ul>	<p>Parents experienced difficulties with the diagnostic process, with support and education provided by mainstream settings and with the accessibility of autism-specific service provisions. Conversely, parents were satisfied with the quality of autism-specific support and education</p> <p>Predictors for satisfaction was parental involvement, knowledge of available services provisions, time between first consultation and final diagnosis</p> <ol style="list-style-type: none"> <li>1. Parents of children without intellectual disabilities generally experienced more difficulties with finding appropriate support</li> <li>2. Parents of older children were often concerned about the continuity of the support reaching adolescent and young adulthood</li> <li>3. Regardless of age, intellectual level, support needs, parents attach equal importance to close cooperation with professionals, continuity of staffing, commitment and enthusiasm of professionals, and ASD-specific knowledge</li> </ol>	<p>Moderate</p> <p>Unclearness of representativeness of parents</p> <p>No information of ethical approval</p>

The table continues on the next page

Table 5.21 continued

Author Year Reference Country	Material Analysis method	Informants	Results	Summary	Study quality Comments
Stoner et al 2006 [9] USA	<p>A qualitative study with 3 x 90 min semi-structured interviews with each parents with open-ended questions, new questions were developed after analysis of the first interview session</p> <p>Data saturation</p> <p>Cross-case analysis, line-by-line coding followed by comparative analysis of all cases. Triangulation, respondent validation and member checking to confirm the findings</p> <p>Purposive sampling of married parents from support group</p>	<p>8 biological and married parents to four, 6–8 year old boys with ASD. All enrolled in public school or preschool</p> <p>Three of the four mothers were homeworkers and all parents from a middleclass socioeconomic background</p>	<p>Major categories found</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Negotiator</li> </ul> <p>Negotiation was a parental skill that evolved and its use was dependent on child-specific needs and knowledge about related services and the educational structure</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Monitor</li> </ul> <p>Formal (meetings) and informal (notebooks)</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Supporter</li> </ul> <p>Parents encouraged, assisted, or acted as an advocate for teachers</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Advocate</li> </ul> <p>Supplemental advocacy activities related to ASD beyond directly affecting own child more seen in mothers</p> <p>Trust in education professionals was a prevailing theme through all interviews</p>	<p>The parents, especially mothers' engaged in multiple roles as they interacted with education professionals</p> <p>Engaging roles such as negotiator, monitor and supporter, was mediated by the trust the parents placed on the education professionals. Repeated past negative interactions with medical and education professionals negatively affected their tendency to trust other professionals</p> <p>Recommendations:</p> <p>Recognize the potential benefit of parents' assuming multiple roles within the education setting and encourage parents to be fully engaged in their children's education</p> <p>Recognize that parents will vary in their level of engagement in their children's education</p>	<p>Moderate</p> <p>No ethic discussion or approval mentioned</p> <p>Small group recruited from a support group from a limited geographical area</p>

The table continues on the next page

Table 5.21 continued

Author Year Reference Country	Material Analysis method	Informants	Results	Summary	Study quality Comments
Stoner et al 2007 [10] USA	<p>A qualitative study with 3 x 90 min semi-structured interviews with each parents with open ended questions. Questions specific to transitions were incorporated during the second and third interview</p> <p>A cross case analysis method to analyse the data</p> <p>Triangulation, respondent validation and member checking to confirm the findings</p> <p>Purposive sampling of married parents from support group</p>	<p>8 biological and married parents to four, 6–8 year old boys with ASD, all enrolled in public school or preschool</p> <p>Three of the four mothers were homeworkers and all parents had a middle class socioeconomic background</p>	<p>Major themes</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Effective transitions were child-centred transitions</li> <li>• Communication: the vital link for successful transitions between school and home</li> <li>• Preparation for transition began with understanding my child</li> <li>• Barriers to successful transitions</li> <li>• Types of transitions were a vital preparation</li> <li>• Effective transition strategies (horizontal, vertical, from school to adult life)</li> </ul>	<p>Parents' perspectives are complex and are usually filtered through the needs and characteristics of their children:</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• The use of Child Profile facilitates communication during yearly transitions with teachers</li> <li>• The daily horizontal transitions cause children the most frequent difficulty if not negotiated effectively</li> <li>• An identify-observe-explore strategy is aiding the children to catch up with new environments</li> </ul> <p>Parents need to be involved in the planning and implementations of strategies that facilitate transitions</p>	<p>Moderate</p> <p>Small group from a limited geographical area</p> <p>More action-oriented parents than usual</p> <p>Sample interview questions</p> <p>No ethic discussion or approval mentioned</p>

**Table 5.22** Quantitative method.

Author Year Reference Country	Study design	Number Gender	Patient Characteristics	Assessments	Summary	Results	Study quality Comments
Sivberg 2002 [12] Sweden	Comparisons between parents with children with ASD and a paired matched control group of parents to children without ASD, a random sample of 300 families out of 6 200 families with children still living at home in the municipality	66 parents to children with ASD living at home and 66 parents to children without ASD matched for number of children living at home, their sexes and ages. 37 mothers and 29 fathers in each group	Age 1–10 years: 9 boys and 7 girls Age 11–15 years: 7 boys and 4 girls Age 16–26 years: 5 boys and 5 girls	Coping strategies measured with “Sense of Coherence Scale (SOC)” and “Purpose in Life Test” (PIL-R). Parental attitudes measured with Family Impact Questionnaire (14/50 questions), sections: loving care, worry, stress and guilt feelings  Paired Samples t-Test and Pearson’s r correlation	Families with a child with ASD do not get the support for their daily life situation needed. Parents of ASD children have a lower sense of coherence than Swedish parents in general  Sense of coherence had a strong stress-reducing effect regardless of easy life situation as a parent  The need for searching an individual meaning in life was greater the more severe the life-situation was	Group differences in coping strategies and parental attitudes:  Significant differences were found between the ASD parent group and non-ASD group of parents on SOC and PIL-R as well as on parental attitudes for loving care, worry, stress, guilt feelings  The majority of control parents had found a clear meaning in life while the ASD group had not  Relations between coping strategies and parental attitude; there was a negative significant correlation between sense of coherence and stress in both groups, sign. Positive correlation between stress and worry, worry and guilt towards children; A gender difference was found in favour of males on the coping strategy sense of coherence	High  The study was approved by the local committee of ethics

ASD = Autism spectrum disorder

Table 5.21 continued

Author Year Reference Country	Material Analysis method	Informants	Results	Summary	Study quality Comments
Tobias 2009 [2] United Kingdom	<p>Voluntary students with ASD were asked to participate in two focus groups and parents to all students with ASD in two grades were asked to participate in another focus group</p> <p>The aims were to define what support had been most helpful, and to consider what additional support could be provided</p> <p>The groups were videoed, the dialogues taped and transcribed and analysed with interpretative phenomenological analysis (IPA)</p> <p>Emerged themes were grouped into master themes spanning for all three groups</p> <p>The student groups were activity-based on questions of imaginary boys with ASD and to compile a toolbox to help them during school day</p>	<p>10 children and 5 parents; two groups with 3 students from year 11 and 7 students from year 9. All had ASD and were linked to a support centre within the mainstream secondary school and one group with 5 parents to some of the participating students</p>	<p>Aspects of current support evaluated positively by participants:</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• Targeted support at key transition points</li> <li>• The provision of mentors for students</li> <li>• The availability of quiet, calmer spaces to reduce anxiety</li> <li>• Good communication between staff and parents</li> <li>• Staff have a good knowledge of ASD and of individual students</li> <li>• Individual, tailor-made support</li> <li>• A welcoming ethos</li> <li>• Thoroughness</li> <li>• Lower student/staff ratios</li> </ul> <p>Possibilities for additional support:</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>• To develop an enhanced self-confidence and self-awareness</li> <li>• To develop a sense of belonging and social inclusion</li> <li>• To develop greater independence and organisational ability</li> <li>• To develop life-skills, with which to negotiate the "real world"</li> </ul>	<p>Implementing good transition support, providing students with the opportunity to talk to a mentor figure at school and meeting the needs of individuals rather than applying blanket policies to groups of students with ASD, are all perceived as positive strategies</p> <p>The ethos of a school and the quality of its communication with parents are also extremely important</p> <p>Additional support to achieve better self-awareness</p>	<p>Moderate</p> <p>A small-scale study with a small group of people in a single setting</p> <p>No gender, socioeconomic information of the students or the parents and no description of the ASD handicap</p> <p>No ethic discussion or approval</p>

AS = Aspergers syndrome; ASD = Autism spectrum disorder; DSM-IV = Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth version

## Referenser

1. Clarke J, van Amerom G. Asperger's syndrome: differences between parents' understanding and those diagnosed. *Soc Work Health Care* 2008;46:85-106.
2. Tobias A. Supporting students with autistic spectrum disorder (ASD) at secondary school: A parent and student perspective. *Educational Psychology in Practice* 2009;25:151-65.
3. Müller E, Schuler A, Yates GB. Social challenges and supports from the perspective of individuals with Asperger syndrome and other autism spectrum disabilities. *Autism* 2008;12:173-90.
4. Carbone PS, Behl DD, Azor V, Murphy NA. The medical home for children with autism spectrum disorders: parent and pediatrician perspectives. *J Autism Dev Disord* 2010;40:317-24.
5. Benderix Y, Nordstrom B, Sivberg B. Parents' experience of having a child with autism and learning disabilities living in a group home: a case study. *Autism* 2006;10:629-41.
6. Renty J, Roeyers H. Satisfaction with formal support and education for children with autism spectrum disorder: the voices of the parents. *Child Care Health Dev* 2006;32:371-85.
7. Farrugia D. Exploring stigma: medical knowledge and the stigmatisation of parents of children diagnosed with autism spectrum disorder. *Sociol Health Illn* 2009;31:1011-27.
8. Benderix Y, Sivberg B. Siblings' experiences of having a brother or sister with autism and mental retardation: a case study of 14 siblings from five families. *J Pediatr Nurs* 2007;22:410-8.
9. Stoner JB, Angell ME. Parent perspectives on role engagement: An investigation of parents of children with ASD and their self-reported roles with education professionals. *Focus Autism Other Dev Disabil* 2006;21:177-89.
10. Stoner JB, Angell ME, House JJ, Bock SJ. Transitions: Perspectives from parents of young children with Autism Spectrum Disorder (ASD). *J Dev Phys Disabil* 2007;19:23-39.
11. Kuhaneck HM, Burroughs T, Wright J, Lemanczyk T, Darragh AR. A qualitative study of coping in mothers of children with an autism spectrum disorder. *Phys Occup Ther Pediatr* 2010;30:340-50.
12. Sivberg B. Coping strategies and parental attitudes, a comparison of parents with children with autistic spectrum disorders and parents with non-autistic children. *Int J Circumpolar Health* 2002;61 Suppl 2:36-50.
13. Antonovsky A. *Hälsans mysterium*. Stockholm: Natur och Kultur. ISBN 91-27-02193-9; 1991.
14. Antonovsky A. *Hälsans mysterium*: Stockholm: Natur och Kultur; 2005.
15. Shu BC. Quality of life of family caregivers of children with autism: The mother's perspective. *Autism* 2009;13:81-91.
16. Cullen LA, Barlow JH, Cushway D. Positive touch, the implications for parents and their children with autism: an exploratory study. *Complement Ther Clin Pract* 2005;11:182-9.
17. Brogan CA, Knussen C. The disclosure of a diagnosis of an autistic spectrum disorder: determinants of satisfaction in a sample of Scottish parents. *Autism* 2003;7:31-46.
18. Elder JH. A follow-up study of beliefs held by parents of children with pervasive developmental delay. *J Child Adolesc Psychiatr Nurs* 2001;14:55-60.
19. Klein U, Nowak AJ. Characteristics of patients with autistic disorder (AD) presenting for dental treatment: a survey and chart review. *Spec Care Dentist* 1999;19:200-7.
20. Knussen C, Brogan CA. Professional practice in the disclosure of a diagnosis of an autistic spectrum disorder: Comparing the perspectives of parents and professionals in Scotland. *Journal of Applied Health Behaviour* 2002;4:7-14.
21. Solish A, Perry A. Parents' involvement in their children's behavioral intervention programs: Parent and therapist perspectives. *Res Autism Spectr Disord* 2008;2:728-38.
22. Spann SJ, Kohler FW, Soenksen D. Examining Parents' Involvement in and Perceptions of Special Education Services: An Interview with Families in a Parent Support Group. *Focus Autism Other Dev Dis* 2003;18:228-37.
23. Bitterman A, Daley TC, Misra S, Carlson E, Markowitz J. A national sample of preschoolers with autism spectrum disorders: special education services and parent satisfaction. *J Autism Dev Disord*

## 6. Etiska, sociala och genusrelaterade aspekter

---

Detta kapitel rör i första hand diagnostik och insatser vid autismspektrumtillstånd (AST). För etiska, sociala och genusrelaterade aspekter på de systematiska litteraturöversikterna ”Organisation inom psykiatri med fokus på AST” och ”Patientens delaktighet vid AST”, i den mån de har diskuterats, hänvisar vi till Kapitel 4 och 5.

### Sammanfattning

De viktigaste aspekterna som framkommit är:

- Personer med AST är en sårbar grupp, i många fall med en begränsad autonomi.
- Kunskapsluckorna är många, både när det gäller diagnostiska instrument och insatser. Bristen på vetenskapligt underlag kan skapa en känsla av vanmakt för vården och beprövad erfarenhet kan då vara av särskilt värde.
- Flera olika huvudmän är involverade när det gäller personer med AST. Detta kan leda till att personerna med AST faller ”mellan stolarna”. Här har huvudmännen ett ansvar för ett bättre samarbete.
- Vuxna med AST har ofta svårt att ta sig in på arbetsmarknaden och det kan öka risken för socialt utanförskap.

### Introduktion

Etiska aspekter rör frågor som vad som är rätt och fel, gott och dåligt, och vad som kan gagna eller skada enskilda patienter, anhöriga och närstående, sjukvården eller samhället. Patientens autonomi och inte-

gritet och ett rättvist omhändertagande är centralt. Patienten har rätt att få hälso- och sjukvård enligt vetenskap och beprövad erfarenhet, men också rätt att avstå från sådan. Ofta måste avvägningar göras mellan dessa principer i relation till medicinska fakta och de berördas värderingar för att komma till en acceptabel handlingsplan. Sociala aspekter avser sociala orsaker till sjukdom och sociala konsekvenser av sjukdom. Genus används för att beskriva sociala konstruktioner av manligt och kvinnligt.

För att vidga det etiska, sociala och genusrelaterade perspektivet har en litteratursökning gjorts. Vi utgick från de sökord som använts i den systematiska översikten för att hitta studier om de aktuella diagnoserna. Vi har sedan avgränsat sökningen med hjälp av olika sökord för etiska-, genusrelaterade- eller sociala aspekter (för sökstrategi, se Bilaga 1 ([www.sbu.se/215](http://www.sbu.se/215))). Redovisningen beskriver den aktuella litteraturen utan att göra anspråk på en systematisk genomgång. Det har dock framkommit förvånansvärt få relevanta studier.

Detta kapitel redovisar den diskussion som förts i expertgruppen och den litteraturgenomgång som genomförts. Följande teman identifierades:

- Diagnostik
- Insatser
- Autonomi och integritet
- Sociala aspekter, samhällsstöd och genusaspekter
- Forskning och utveckling.

## Vad menas med etiska aspekter?

Som underlag för etiska avvägningar kan man använda följande etiska principer som ofta tillämpas inom medicinen:

1. *Autonomiprincipen* säger att man bör visa respekt för en patients rätt att vara med och bestämma om handlingar och beslut som berör patienten själv. *Integritetsprincipen* säger att man så långt det är möjligt bör visa respekt för en patients värderingar, önsknings och åsikter.

2. *Principen att göra gott* innebär att man bör sträva efter att alltid försöka hjälpa och tillgodose en patients medicinska behov.
3. *Principen att inte skada* utgår ifrån att strävan att göra gott ibland innebär ett förutsägbart risktagande för en patient och att man därför bör sträva efter att minimera risktagandet.
4. *Rättvisprincipen* innebär att man bör behandla och bemöta alla patienter med samma behov lika, dvs att det är den individuella patientens medicinska behov som ska avgöra hur man handlar, inte patientens position i samhället eller andra icke-medicinska aspekter.

Dessa principer återspeglas i såväl hälso- och sjukvårdslagen (HSL, 1982:763) som i riksdagens beslut om prioriteringar inom hälso- och sjukvården (prop 1996/97:60). I HSL:s portalparagraf anges att målet för hälso- och sjukvården är god hälsa och vård på lika villkor för hela befolkningen. Vidare stadgas att vården ska ges med respekt för alla människors lika värde och för den enskilda människans värdighet. Den som har det största behovet av hälso- och sjukvård ska ges företräde till vården. I riksdagsbeslutet om prioriteringar i hälso- och sjukvården beskrivs en ”etisk plattform” som omfattar principerna om människo- värde, behov, solidaritet och kostnadseffektivitet.

De etiska principerna relaterar inte enbart till den enskilda patientens rättigheter. Principerna berör även andra aktörer som kan ha samma eller andra intressen. Det kan vara andra patienter eller patientgrupper, anhöriga och närstående, sjukvårdspersonal, sjukvården som sådan eller samhället. Eftersom aktörer kan ha olika intressen kan det uppstå intressekonflikter.

## Etiska problem

Etiska problem skiljer sig från naturvetenskapliga, psykologiska och juridiska problem, även om svaren på sådana problem ofta har relevans för ställningstagandet till etiska problem. Utgångspunkterna är olika, liksom metoderna. Etiska problem beror ofta på bakomliggande vär-



deringar och att kunskapsunderlaget oftast är tvärvetenskapligt – det hämtas från olika håll och är inte alltid entydigt.

En ofta använd modell vid analysen av etiska problem ser ut så här:

1. Kunskapsunderlag
2. Normer och värderingar  $1 + 2 \longrightarrow 3$
3. Slutsats.

Kunskapsunderlaget – som kan inkludera diagnos, prognos, lagbestäm-  
melser, praxis och de berördas inställning – kan variera i precision och  
innehåll. Självfallet är diagnos och prognos viktiga, men här finns inte  
sällan ett utrymme för olika bedömningar. Människor är också olika,  
t ex har kvinnor och män ibland olika erfarenheter och perspektiv. Det  
går därför inte att låta män definiera vad som är normalt för kvinnor,  
lika litet som unga kan ange normen för äldre. Detsamma gäller  
människor med olika kulturell och social bakgrund. Inte heller är det  
självlklart att någon enskild specialitet, t ex psykiatrin, ska definiera  
vad som är normalt eller inte.

Även de normativa utgångspunkterna varierar i precision och innehåll.  
Båda har betydelse för slutsatsen – det etiska ställningstagandet. Ska ett  
etiskt problem analyseras, måste kunskapsunderlaget och de normativa  
utgångspunkterna och värderingarna redovisas, liksom hur man steg  
för steg genom att kombinera kunskapsunderlaget och de normativa  
utgångspunkterna kommit fram till en slutsats.

Svåra etiska problem gäller ofta konflikter mellan intressen eller värden  
där dessa värden är allmänt accepterade och alla berörda parter intressen  
i viss mening är legitima. Om den ena partens intressen är uppenbart  
orimliga, kan vi knappast stå inför något svårt etiskt problem.

En annan typ av svåra etiska problem aktualiseras av riskbedömningar  
av det slag som ibland förekommer i medicinska diagnoser och prognoser.  
Ibland kan riskbedömningarna vara osäkra pga luckor i våra kunskaper.  
I andra fall kan riskerna vara välkända, men det kan ändå vara kontro-  
versiellt vad som är acceptabelt – både vilka risker som en patient får  
utsättas för eller som en person själv bör få utsätta sig för.

En särskild typ av svårighet uppstår ibland pga ren kunskapsbrist, dvs  
att man inte vet tillräckligt om samband mellan mål och medel.

## Vad menas med sociala aspekter?

Med sociala aspekter avses sociala orsaker och sociala konsekvenser  
av sjukdom och funktionsnedsättning. Sociala aspekter kan omfatta  
både strukturella och individuella faktorer som har betydelse för att  
en person blir sjuk och förblir sjuk. På motsvarande sätt kan sociala  
faktorer påverka hur effekten blir av en funktionsnedsättning som finns  
från låg ålder. Sociala konsekvenser kan beskrivas på individ-, grupp-  
och samhällsnivå, t ex personens möjligheter att leva ett normalt liv när  
det gäller boende, familjeliv, umgänge, eller att välja sin egen livsstil. Det  
handlar också om konsekvenser av olika åtgärder och politiska beslut om  
vårdstruktur och vårdutbud, och ligger därmed i vissa avseenden nära de  
ekonomiska aspekterna. Det finns även släktskap och överlappning med  
etiska aspekter.

## Vad menas med genusaspekter?

Kön och könsskillnad används i huvudsak när biologiska skillnader  
mellan kvinnor och män beskrivs eller när skillnader mellan grupperna  
beskrivs utan teoretisk förankring. Genus används för att beskriva sociala  
konstruktioner av kvinnligt och manligt, och relationer mellan kvinnor  
och män, som vanligen relaterar till likheter, olikheter och makt [1].

## Etiska aspekter vid AST

De etiska frågeställningarna vid utvärdering av medicinska metoder kan  
vara av många olika slag. Vilka konsekvenser medför tekniken? Vilka  
risker och fördelar är kända? Hur fördelar sig falskt positiva och falskt  
negativa test när det gäller diagnostiken? Påverkas personens autonomi?  
Påverkas basala mänskliga rättigheter, integritet eller värdighet? Kan  
tekniken komma att bli tvingande? Kommer sociala värden eller för-  
domar att påverkas? Kan uppfattningar om vissa grupper förändras?  
Påverkas religiösa, sociala eller kulturella övertygelser? Kan gällande

lagar komma i konflikt med tekniken? Hur påverkas patient–behandlarrelationen och tilliten till vården? Kan den professionella autonomi påverkas? Vilka ekonomiska eller andra intressen kan finnas hos personer med AST, läkare, forskare och producenter [2]?

AST har en prevalens på cirka 1 procent [3,4]. Detta bör man ha i åtanke när det gäller samhällets resurstilldelning för stöd, behandling och forskning. Personer med AST drabbas i unga år och får ofta livslånga problem med risk för nedsatt livskvalitet, diskriminering, mobbning och exkludering/marginalisering [5].

## Diagnostik

Diagnostik av AST är en komplicerad procedur som förutsätter god klinisk erfarenhet. Tillgången till utredning är på sina håll begränsad. Det är fortfarande en del okunskap ute i samhället, t ex i förskola, skola, hälso- och sjukvård, socialtjänst och i andra samhällsinstitutioner som möter barn, ungdomar och vuxna med den här typen av problem. Det kan leda till att det ibland tar tid att identifiera behovet av utredning. Samtidigt uppmärksammas problemen i allt större omfattning, remisserna blir fler och det är långa väntetider till utredning och behovsinventering. Utredningarna är ibland omfattande och tidskrävande. Dessutom kan det vara påfrestande för personer med AST och deras närstående. Om utredningsprocessen kunde kortas ner skulle fler kunna utredas och väntetiderna skulle bli kortare. Frågan är om utredningarna kan effektiviseras utan kvalitetsförluster.

En AST-diagnos kan leda till både för- och nackdelar för den enskilda personen. Fördel kan vara att man får stöd från samhället. Nackdel kan vara stigmatisering och begränsningar t ex när det gäller körkortsinnehav.

En fråga när det gäller diagnostiken är hur tillförlitlig den är. Vår utvärdering visar att inget enskilt diagnostiskt instrument utgör tillräckligt underlag för diagnos. Kunskapsunderlaget är osäkert och behöver förbättras. Ansvaret för att fylla i kunskapsluckorna inom detta område är en etiskt relevant fråga. Det finns starka skäl att misstänka att det före-

kommer såväl över- som underdiagnostik. Det kan leda till att personer känner sig utpekade eller att individer inte får det stöd de har rätt till. Socialtjänstlagen kräver ingen formell diagnos utan endast en behovsinventering för att den ska kunna träda i kraft, men i många fall krävs analys av svårigheter och starka sidor för att rätt insats ska kunna väljas.

## Insatser

AST innebär mycket varierande grad av funktionsnedsättningar, allt från personer som har mycket stora problem till personer som är högpresterande inom sina intresseområden. Personer med AST är alltså inte en homogen grupp och det innebär att behandlingsinsatserna också är mycket varierande.

Det finns idag inga läkemedel för att behandla kärnsymtomen<sup>1</sup> vid AST. Däremot är risperidon godkänt för behandling vid allvarliga beteendestörningar såsom aggressivitet och självdestruktivt beteende hos personer med AST.

När det gäller insatser finns en hel del problem som framför allt handlar om kunskapsläget. En stor mängd icke-farmakologiska behandlingsinsatser för AST används idag. När det inte finns något botemedel och få eller inga behandlingsmetoder med en evidensbaserad positiv effekt på kärnsymtomen, kan det resultera i att en mängd olika behandlingsinsatser används. Vi har utvärderat 25 olika behandlingsinsatser. Frånvaron av studier för de flesta insatser, tillsammans med mängden av insatser som används, talar starkt för att metodologiskt goda studier bör genomföras.

## Alternativmedicinska metoder

Kunskapsbristen kan skapa vanmakt för vården och omsorgen. I denna situation kan det bli frestande att använda alternativmedicinska metoder. Så länge diagnostiken är relativt oprecis och behandlingsutbudet inte

<sup>1</sup> Kärnsymtom är de symtom som är utmärkande för en sjukdom eller ett tillstånd. För AST är kärnsymtomen brister i social interaktion och kommunikation samt stereotypa beteenden.

heller specifikt vill man kanske försöka hjälpa och pröva metoder som inte är så väl undersökta i hopp om att det ska fungera. Anhöriga till barn med AST söker ofta information om alternativa behandlingsformer. Mycket information går under benämningen forskning, även om den inte har stöd i några vetenskapligt granskade resultat. Företrädare för nya behandlingsmetoder använder sig ofta av en ytligt sett sammanhållen förklaringsmodell till att barnet drabbats av AST, och de förmedlar stort hopp om förbättring bara familjen följer alla råd. Det kan kännas nödvändigt för anhöriga att låta barnet ta del av denna behandling för de ska kunna säga i framtiden att de ”har gjort allt de kunnat”. Sjukvård och habilitering har ett ansvar att presentera lättillgänglig och adekvat information till anhöriga. Det är viktigt att det finns ett öppet samtalsklimat, där också alternativ behandling kan diskuteras. Företrädare för sjukvård och habilitering måste dock kunna avråda från potentiellt farliga behandlingsmetoder och när det finns evidens för att en metod inte har effekt.

## Autonomi och integritet

Personer med AST, särskilt barn, kan ha en begränsad autonomi, vilket alltid leder till att integriteten inte kan försvaras. Frivillighet är centralt i hälso- och sjukvård och i socialtjänsten, men inte i praktiken för skola och hälsovård. Skolan har en skyldighet att utreda funktionshinder hos sina elever, även mot föräldrarnas vilja. Samtycke och intressen kan kollidera och livsstilsförändringar påtvingas. Informerade val och informerade beslut är önskvärda.

## Sociala aspekter, samhällsstöd och genusaspekter

Exklusion och inklusion i samhället kan vara olika från stund till stund, exempelvis inkluderas barnen i klassrummet med hjälp av extralärare, men dessa deltar inte under rasten på skolgården och barnen kan då exkluderas. Den begränsade förmågan till socialt samspel och kommunikation kan leda till att vuxna med AST får stora svårigheter att ta sig in på arbetsmarknaden. Detta ökar risken för socialt utanförskap.

Barn med AST riskerar att hamna mellan olika huvudmän. Det finns brister i samarbetet mellan landstingen och kommunerna på flera håll. Även om kommuner fattat beslut om stöd så verkställs det inte alltid. Ibland fattas inget beslut och då finns inget att överklaga. Den ekonomiska situationen spelar ofta en stor roll. För vissa kommuner är den ekonomiska situationen kärv vilket har betydelse för samhällsstödet. Kommunala utjämningsbidraget är till för jämlikhet över landet i sociala frågor.

Enligt Lag om stöd och service till vissa funktionshindrade, LSS, (1993:387) kan man under vissa omständigheter erhålla stöd från samhället. Lagstiftningen ger individerna särskilda rättigheter, men samhället klarar inte alltid av att möta behoven på ett adekvat sätt. Det beror på skilda prioriteringar. Då kommer frågan om den här gruppen diskrimineras mer än andra grupper som också har stora behov av vård- och omsorgsinsatser från samhället. Det kan ifrågasättas varför instanser i kommunerna som t ex socialtjänst och skola ofta behöver en klinisk diagnos för att ge den hjälp och det stöd som krävs.

AST diagnostiseras i högre frekvens hos pojkar än flickor men intresset att studera genusfrågor vid AST är svagt. Vi har endast fångat upp en studie om genus och AST. Den visar på osäkerheter beträffande könsidentitet hos barn och ungdomar med AST [6].

## Forskning och utveckling

Forskning på svaga och sårbara individer får bara utföras om deltagarna kan ha direkt nytta av det själva, om riskerna är minimala och om forskningen inte kan utföras med hjälp av andra, mindre sårbara individer [7]. Även i de kliniska sammanhangen måste dessa hänsyn tas och svagheter stötts, särskilt när det gäller autonomi, värdighet och integritet. Men det är ”oetiskt att inte forska” när det gäller förbättringar för svaga personer. Forskning på barn kräver att de själva kan ha nytta av resultaten, men det kan vara lätt att tumma på etikens krav på information, autonomi och integritet, när man ”bara vill väl”. Det finns belägg för att viss forskning på barn saknat tillräckligt underlag och tillräckliga försiktighetsåtgärder [8].

Flera etiska krav har ställts upp för genetisk forskning om neuropsykiatriska tillstånd; socialt och vetenskapligt värde, säkerhet, rättvis selektion av individer, gynnsam nytta-riskkvot, oberoende granskning, informerat samtycke och respekt [9].

## Diskussion

Personer med AST tillhör en grupp som är stor och viktig och området har många kunskapsluckor. De diagnostiska instrument som utvärderats styrker indirekt resultaten av den praxis som råder, att grunden för diagnosen är den kliniska bedömningen. Diagnostiska test för AST ingår i det underlag som ett utredningsteam behöver för att ta ställning till diagnos. Kombinationen av diagnostiska instrument och god klinisk erfarenhet är viktig. Det betyder att diagnostiken bör ligga kvar inom den specialiserade vården. Men här finns flera etiska problem. Ett problem är svårigheten att få till en diagnostisk process. Det kan i sin tur bero på okunskap i familjen, förskolan, skolan, inom hälso- och sjukvården och socialtjänsten eller inom andra samhällsinstitutioner som möter barn, ungdomar och vuxna med AST-symtom. Ett annat problem är att när man väl remitterats till enheter för utredning kan väntetiden vara lång. Utredningen är ofta mycket omfattande och tids- och resurskrävande.

Det är rimligt att samhället med sina institutioner försöker öka kunskapen om AST och sprida den. Ett viktigt första steg är att eventuella funktionshinder uppmärksammas i förskolor, skolor, hälso- och sjukvård och socialtjänst. Man bör förkorta väntetiden till utredning och stöd av olika slag bör utformas individuellt och utifrån den enskildes önskemål och behov.

Socialtjänstlagen kräver ingen formell diagnos utan endast en behovsinventering för att lagen ska kunna träda ikraft. I många fall krävs dock en analys av svaga och starka sidor för att rätt insatser ska kunna väljas. Ofta finns behov av stöd från den närmaste omgivningen, skola och samhälle. Flera olika intressen kan därmed komma i konflikt med varandra och det gäller att ha den enskilde individens bästa för ögonen och att ta ansvar för ett förtroendefullt samarbete.

En stor mängd icke-farmakologiska behandlingsinsatser vid AST används idag. När det inte finns något botemedel och få eller inga behandlingsmetoder finns med en evidensbaserad positiv effekt på kärnsymtomen, kan det resultera i att en mängd olika behandlingsmetoder används. Tjugofem olika behandlingsmetoder för AST har utvärderats. Frånvaron av studier för de flesta behandlingsinsatserna liksom mängden av insatser som används talar starkt för att metodologiskt goda studier bör genomföras.

Kunskapsunderlag, normer och värderingar ligger till grund för alla beslut. När det gäller AST är det uppenbart att kunskapsunderlaget är svagt på många punkter. Beslutsfattarnas värderingar kan vara osäkra eller otydligt formulerade, svårtolkade eller t o m dolda. Många intressen är inblandade och beslutsförslag kan lätt komma i konflikt med varandra. Det är angeläget att öka kunskapsunderlaget och att redovisa bakgrunden till olika beslut.

Informerat, frivilligt samtycke är en hörnsten inom vård och omsorg. För underåriga med varierande mognadsgrad kan ett samtycke bli svårt att bedöma. Det är naturligt att föräldrar, skyddar barnets integritet och motverkar stigmatisering, mobbning och utslagning. Även familjens integritet och behov av medinflytande och självbestämmande bör i största möjliga utsträckning tillgodoses av samhällets organ genom t ex fullständig information, lättillgänglig dialog och gemensamma beslut. En av samhällets viktigaste uppgifter är att stötta sårbara unga människor och detta kan kräva både personella och ekonomiska resurser. Hur det bäst ska ske verkar inte vara studerat, inte heller hur man kan stötta föräldrarna på ett optimalt sätt. Enligt Lag om stöd och service till vissa funktionshindrade, LSS, (1993:387) kan man under vissa omständigheter erhålla stöd från samhället. Ibland händer det att stödet uteblir och det kan då vara svårt att överklaga eftersom det saknas formella beslut. När myndigheter inte tar sitt ansvar kan det också bli ett etiskt problem. Det kan leda till stora skillnader beroende på var man bor. Samarbetet mellan landstingen och kommunerna är på många håll inte särskilt välfungerande.

Att man på sina håll inte erbjuder vård och stöd är en etisk fråga, liksom att man inte kan förhindra att föräldrar ger upp. I förlängningen riskerar barn utan stöd och behandling att få stora problem med sänkt livskvalitet och svårigheter i skolan, på arbetsmarknaden och i det sociala umgänget. Det finns stora kunskapsluckor när det gäller sociala aspekter.

Det är välkänt att AST diagnostiseras i högre frekvens hos pojkar/män än hos flickor/kvinnor, och att symtombilden skiljer mellan könen. En enda studie har fångats upp med sökordet ”genus” och den pekar på osäkerhet i könsidentiteten. Det finns behov att ytterligare studera genusaspekter. Det finns behov av forskning när det gäller förbättringar för svaga personer, det kan uttryckas som att det är ”oetiskt att inte forska”.

## Referenser

1. Flickor, pojkar, individer – om betydelsen av jämställdhet för kunskap och utveckling i skolan. Statens offentliga utredningar (SOU). Delegationen för jämställdhet i skolan. Utbildningsdepartementet; 2010.
2. Hofmann B. Toward a procedure for integrating moral issues in health technology assessment. *Int J Technol Assess Health Care* 2005;21:312-8.
3. Baird G, Simonoff E, Pickles A, Chandler S, Loucas T, Meldrum D, Charman T. Prevalence of disorders of the autism spectrum in a population cohort of children in South Thames: the Special Needs and Autism Project (SNAP). *Lancet* 2006;368:210-5.
4. Brugha TS, McManus S, Bankart J, Scott F, Purdon S, Smith J, et al. Epidemiology of autism spectrum disorders in adults in the community in England. *Arch Gen Psychiatry* 2011;68:459-65.
5. Socialstyrelsen. Barn som tänker annorlunda – Barn med autism, Aspergers syndrom och andra autismspektrumtillstånd; 2010.
6. de Vries AL, Noens IL, Cohen-Kettenis PT, van Berckelaer-Onnes IA, Doreleijers TA. Autism spectrum disorders in gender dysphoric children and adolescents. *J Autism Dev Disord* 2010;40:930-6.
7. World Medical Association Declaration of Helsinki: <http://www.wma.net/en/30publications/10policies/b3/17c.pdf>. 2008.
8. Sharav VH. Children in clinical research: a conflict of moral values. *Am J Bioeth* 2003;3:W-IF 2.
9. Fuentes J, Martin-Arribas MC. Bioethical issues in neuropsychiatric genetic disorders. *Child Adolesc Psychiatr Clin N Am* 2007;16:649-61.

## 7. Hälsoekonomi

---

### Evidensgraderade resultat

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att avgöra om risperidon är kostnadseffektivt vid behandling av personer med AST (⊕○○○).

Eftersom det vetenskapliga underlaget för effekt av icke farmakologiska insatser är otillräckligt betyder det även att:

- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att avgöra om icke-farmakologiska behandlingsmetoder är kostnadseffektiva vid behandling av personer med AST (⊕○○○).
- Det finns otillräckligt vetenskapligt underlag (studier saknas) för att avgöra kostnadseffektivitet av olika organisatoriska aspekter vid behandling av personer med AST (⊕○○○).

### Bakgrund

AST medför ökade kostnader för sjukvården och för samhället i stort. En svensk enkätstudie beräknade att samhällskostnaderna för barn med autistiskt syndrom var cirka 50 000 svenska kronor högre per år än genomsnittet för barn [1]. Behov av kommunernas omsorgs- och skolverksamhet var särskilt kostnadsdrivande. En engelsk studie skattade den diskonterade kostnaden för hela förväntade livslängden till 1,23 miljoner pund vid autistiskt syndrom med nedsatt intellektuell funktion och 0,8 miljoner pund vid autistiskt syndrom med bibehållen intellektuell kapacitet [2].

## Frågor

1. Är risperidon kostnadseffektivt vid behandling av personer med AST?
2. Är icke-farmakologiska behandlingsmetoder kostnadseffektiva för personer med AST?
3. Är organisatoriska aspekter av betydelse för kostnadseffektiviteten vid behandling av personer med AST?

## Litteratursökning

Litteratursökningen av hälsoekonomiska studier med inriktning enbart på autism resulterade i 252 studier varav sju studier beställdes i fulltext. Ingen av studierna var relevant för frågeställningarna om kostnadseffektivitet enligt denna rapport. Däremot identifierades ett flertal studier som beskrev samhällskostnader ("cost of illness") för AST.

## Diskussion

Litteratursökningen gav inget stöd för några hälsoekonomiska slutsatser om kostnadseffektivitet vid behandling av AST. Det är angeläget att man i hälsoekonomiska studier analyserar kostnadseffektivitet för behandling av AST med läkemedel, icke-farmakologiska interventioner samt organisatoriska aspekter på omvårdnad av personer med AST.

## Referenser

1. Järbrink K. The economic consequences of autistic spectrum disorder among children in a Swedish municipality. *Autism* 2007;11:453-63.
2. Knapp M, Romeo R, Beecham J. Economic cost of autism in the UK. *Autism* 2009;13:317-36.

## 8. Sammanfattande diskussion och konsekvensanalys

---

### Diagnostik

Denna systematiska översikt stödjer indirekt den praxis som redan finns när det gäller diagnostik av autismspektrumtillstånd (AST), nämligen att det är en specialistuppgift som kräver en specialutbildad läkare (barnpsykiater, barnneurolog eller barnläkare med särskild kompetens inom området) och en psykolog med särskild utbildning inom området. Den diagnostiska bedömningen är komplex och ska baseras på social samspelefförståelse, verbal och icke-verbal kommunikationsförmåga samt förmåga till flexibelt och adaptivt beteende, med hänsyn till individens utvecklingsnivå. Standard i såväl forskning som klinisk vardag utgörs av en multiprofessionell klinisk bedömning (konsensusdiagnos), som baseras på det multiprofessionella teamets samlade information om individen. Avgörande för diagnos är om tillräckligt antal kriterier är uppfyllda för något tillstånd inom AST enligt DSM-IV eller ICD-10. Inget enskilt diagnostiskt instrument utgör tillräckligt underlag för diagnos, utan det resultatet måste vägas ihop med övriga utredningsresultat. Det pågår fortfarande en utveckling vad gäller definition och avgränsningar av tillståndet, liksom tekniken för att ställa diagnos.

Vår utvärdering har visat att ingen enskild undersökningsmetod, vare sig frågeformulär eller observationsscheman ensamt kan fastställa diagnosen. Det krävs en samlad bild av information från föräldrar, närstående och andra i personens närhet, såsom förskollärare och lärare, samt en klinisk bedömning. Det finns behov av forskning som ser på ett samlat batteri av undersökningsmetoder och hur väl ett sådant batteri tillfredsställer krav på diagnostisk tillförlitlighet. Det finns också anledning att upprätta nationella riktlinjer för hur diagnostiken ska bedrivas för att få en så enhetlig diagnostik som möjligt över hela landet.



Diagnostiskt finns ett brett spektrum inom AST från de som har mycket stora funktionsnedsättningar till de som är högfungerande. Personer med AST och låg utvecklingsnivå (svår utvecklingsstörning) behöver mycket tillsyn och praktisk hjälp. Den som har AST vid normal eller hög begåvning har ändå nedsatt förmåga att klara situationer i vardagen (bristande adaptiv förmåga). På alla begåvningsnivåer är det vanligt med avvikelser i beteendet som påverkar både personen själv och närstående på ett negativt sätt. Det kan t ex vara svårigheter att hitta konstruktiva aktiviteter med jämnåriga, låsning i ett enahanda beteende och svårigheter att hantera förändringar.

Sammantaget innebär det att diagnostiken måste vara anpassad för att fånga upp dessa personer, med mycket stora skillnader i funktionsnivå på en mängd olika områden. Detta gör den diagnostiska processen komplicerad. Vid de svåraste formerna av AST är det dock betydligt enklare att ställa en diagnos än vid mildare former, och när det finns en betydande samsjuklighet. Diagnosen kan ställas redan i småbarnsåldern, men även under hela barnets och ungdomens utvecklingsperiod. Det är därför viktigt med ingående kunskaper i barns och ungdomars olika utvecklingsfaser. Det är t ex inte lämpligt att börja tala om personlighetsstörningar hos barn och ungdomar förrän de har genomgått hela sin utvecklingsperiod upp i vuxenåldern. På samma sätt skiljer sig psykiatriska sjukdomstillstånd som depressioner och psykoser åt beroende på ett barns och en ungdoms utvecklingsnivå.

Diagnostiken sker bäst i en miljö där utredning, behandling och uppföljning sker i ett nära samarbete. De som utreder lär sig också av att delta i behandlingsarbetet liksom behandlingspersonal också lär sig av att delta i den diagnostiska processen.

## Insatser

Vår genomgång har visat att det finns många behandlingsmetoder som används i större eller mindre utsträckning med begränsat eller inget vetenskapligt underlag. Det finns därför ett stort behov av forskning inom behandlingsområdet. Den forskning som finns gäller framför allt små barn medan det finns mycket lite forskning om behandling av

tonåringar och vuxna. Inom habilitering och sjukvård i Sverige erbjuds ofta personer med AST så kallad eklektisk behandling. Det innebär ofta en blandning av olika metoder, mer eller mindre systematiskt. Det finns inga studier om effekten av dessa samlade insatser, mer än beprövad erfarenhet. I studier jämförs i allmänhet olika behandlingsalternativ med denna typ av insats. En fråga är hur bra det är att ett barn erbjuds en rad olika insatser med flera olika personalkategorier inblandade. Finns det en risk att barnet får alltför mycket information och stimulans kan det i sig innebära ett problem. Över huvud taget finns väldigt lite rapporterat om möjliga biverkningar och problem med alla de olika behandlingsmodeller som provas.

Tidig intervention till små barn är mycket resurskrävande och oftast ligger uppgiften på föräldrarna. Det är vanligt att insatser på förskolan kombineras med insatser i hemmet. Studier av tidig intervention kräver stora resurser eftersom det handlar om resurskrävande insatser under lång tid, kanske under en hel uppväxttid, med upprepade uppföljningar. För föräldrarna kan det vara en mycket tung uppgift. De ska samtidigt också ansvara för eventuella syskon och få tid för sig själva. Detta kan bli mycket påfrestande och även få stora ekonomiska konsekvenser för familjen. Det finns skäl att tro att samhällets stöd borde vara större eller att de resurser som finns används på fel sätt.

Det finns påtagliga metodproblem för den här typen av studier. Det saknas t ex en enkel och allmänt använd metod att mäta effekten av insatserna. Av etiska skäl är det idag inte möjligt att jämföra effekten av ett program med förloppet utan någon insats alls. Jämförelsegruppen är ofta oklart beskriven. Trots dessa svårigheter finns det idag en stor mängd seriöst upplagd forskning kring insatserna vid AST.

Det finns inget läkemedel som har utvecklats för att behandla kärnsymtomen<sup>1</sup> vid AST. Eftersom orsakerna till dessa tillstånd är ofullständigt kända finns det anledning att uppmuntra grundforskning inom

---

<sup>1</sup> Kärnsymtom är de symtom som är utmärkande för en sjukdom eller ett tillstånd. För AST är kärnsymtomen brister i social interaktion och kommunikation samt stereotypa beteenden.

detta område. I vår genomgång har vi inte utvärderat andra läkemedel än risperidon eftersom det är det enda läkemedlet som är godkänt av Läkemedelsverket för behandling av allvarliga beteendestörningar som aggressivitet och självdestruktivt beteende vid AST. Hos barn med autistiskt syndrom ger risperidon bättre effekt än placebo vad gäller social tillbakadragenhet, hyperaktivitet och stereotypa beteenden. Vanliga biverkningar är viktuppgång och nedsatt vakenhet.

Det finns få hälsoekonomiska studier av dessa tillstånd trots att det handlar om en grupp med stora behov och ett ofta livslångt behov av stödinsatser från samhällets sida. Det finns alltså ett stort behov av studier om kostnadseffektiviteten för olika typer av behandlingsinsatser.

## Organisation av diagnostik och insatser vid AST

Det finns ett behov av att ytterligare förtydliga ansvaret för såväl utredning som behandling för olika huvudmän, för landsting och hälso- och sjukvård samt för kommunerna vad gäller förskola, skola och socialtjänst eftersom behovet av insatser är stort inom de olika ansvarsområdena. Hälso- och sjukvårdens roll är mer begränsad till den diagnostiska processen och vissa behandlingsinsatser medan förskola och skola har ett stort ansvar för de pedagogiska insatserna. Det är därför viktigt att alla dessa olika aktörer samarbetar nära varandra.

Alla har rätt till en individuell plan, men i praktiken sker inte alltid detta. Diagnostik, vård och behandling av AST måste ske i nära samarbete med de organisationer som är berörda. Detta ställer krav på samarbetsrutiner och en gemensam grundsyn vad gäller dessa barn och ungdomar, tillståndets natur och de behov som uppstår pga detta. Privatisering av vården kan tänkas ha konsekvenser för hur diagnostik och behandling kommer till stånd. Det finns anledning att huvudmännen och tillsynsmyndigheterna bevakar denna problematik.

## Patientens delaktighet vid AST

I studierna kan man urskilja två grupper av personer med AST. Den första gruppen är barn och ungdomar som har så omfattande och/eller vårdkrävande funktionsnedsättningar att de inte kan vårdas i hemmet. Den andra gruppen utgörs av barn och ungdomar som kan klara sig i hem och skola med olika typer av stöd. Till den andra gruppen hör också personer med Aspergers syndrom som kan ha starka åsikter om sin identitet och om samhällets syn på dem själva. Gemensamt för alla grupper är att de har svårigheter med det sociala umgänget och de sociala spelreglerna, kommunikationssvårigheter i varierande grad, begränsade intressen och rutinbeteenden. Syskon och föräldrar är i hög grad påverkade av situationen samtidigt som de är patienternas talesmän. När ett barn har AST är det inte endast ett isolerat problem för barnet, utan för hela familjen (föräldrar, syskon, släkt och vänner), liksom lärare och kommunala stödpersoner.

Studierna visar att syskon till personer med AST kan komma i kläm, de känner stort ansvar och medkänsla, men kan också känna rädsla, osäkerhet och drabbas av svårigheter med egna sociala relationer. Hela familjen behöver stöd. Det framkom även att föräldrar till barn med AST anser att stigmatiseringen motverkas av att få en tydlig diagnos.

Föräldrar till barn med AST uttrycker i studierna att de har en arbetsam och besvärlig situation både på det ekonomiska, sociala och existentiella planet, med uttalad oro för både den aktuella situationen och för framtiden. De inser att de är de enda som kan ta tillvara sitt barns intressen på sikt och måste därför börja kämpa redan i förskolan. De saknar ett pålitligt stöd från samhället, men om de väl får det dämpas oron. Specialskolor och ökad tillgänglighet efterfrågas. De anser sig behöva ta ledarskapet, förhandla om utbildningsstruktur och fungera som förespråkare även för lärare. Överflyttningar från en plats till en annan eller från en årskurs till en annan, bör vara väl förberedda och behovsprövade.

## 9. Kunskapsluckor och framtida forskningsbehov

---

### 9.1 Kunskapsluckor – Diagnostik och insatser vid AST

Följande kunskapsluckor har identifierats:

1. Många av de diagnostiska formulär som används i Sverige idag är otillräckligt studerade.
2. Evidensläget för effekt och biverkningar av insatser vid autismspektrumtillstånd (AST) är bristfälligt.
3. Kunskapen om effekter av risperidonbehandling är bristfällig med avseende på kärnsymtomlindring och biverkningar hos vuxna.
4. Studier om kostnadseffektivitet saknas för alla typer av interventioner vid AST.

#### **Kunskapslucka 1. Många av de diagnostiska formulär som används i Sverige idag är otillräckligt studerade**

Tretton instrument för AST har utvärderats. Av dessa finns ett begränsat vetenskapligt underlag för tre instrument, nämligen skattningsformuläret Social Communication Questionnaire (SCQ), och de diagnostiska instrumenten Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R) och Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS). Flertalet av de 212 studier som granskades i fulltext blev exkluderade pga att de inte uppfyllde inklusionskriterierna. Den vanligaste orsaken var att tillförlitligheten i form av sensitivitet och specificitet inte hade angetts. Detta gäller t ex för studier om Asperger Syndrome (and High-Functioning Autism) Diagnostic Interview (ASDI) och Diagnostic Interview for Social and Communication disorders (DISCO). En annan vanlig orsak till exklu-

sion var oklarheter kring referenstestetets oberoende, antingen beroende på att indextestet använts i den kliniska diagnostiken eller att det inte gick att utesluta att diagnostikern hade kännedom om indextestetets resultat vid diagnostillfället. Detta gällde t ex flera studier om ADI-R och ADOS. I vissa studier hade referenstestet inte baserats på DSM-IV, ICD-10 eller en kombination av ADI-R och ADOS och därför exkluderats.

### **Kunskapslucka 2. Evidensläget för effekt och biverkningar av insatser vid AST är bristfälligt**

Även här är kunskapsluckorna stora. Det finns många behandlingsmetoder (30 stycken), men det saknas välgjorda studier för de flesta av dessa. Detta talar starkt för att väl upplagda studier behövs på området. Det utesluter dock inte att flera av dessa behandlingsmetoder kan vara av värde vid behandling av AST. Det är viktigt att fortsätta att forska på de metoder som används mest idag: tidig intervention, social träning (t ex sociala berättelser, seriesamtal) och miljöanpassning.

För tidig intervention finns behov av att ytterligare studera vilka faktorer hos barnet som talar för god effekt av en viss intervention och när andra insatser skulle ge större utbyte för den tid och de resurser som föräldrar och professionella investerar i träning. Det blir också tydligt genom litteraturgenomgången, att en vanlig form av insats i Sverige inte alls har något vetenskapligt stöd, nämligen den typ av träning som innefattar kombination av flera metoder – som kan innebära splittring av resurser och alltför stora krav på barnet att skifta uppmärksamhet. Barn med AST, som inte automatiskt lär av erfarenheter, kan behöva väl strukturerad och samlad träning av lek och kommunikation för att nå framsteg.

### **Kunskapslucka 3. Kunskapen om effekter av risperidonbehandling är bristfällig med avseende på kärnsymtomlindring och biverkningar hos vuxna med AST**

Indikationen för risperidonbehandling vid AST är allvarliga beteendestörningar som aggressivitet och självdestruktivt beteende. Men det vetenskapliga underlaget är otillräckligt för att kunna avgöra nytta och risk vid behandling av vuxna med AST.

### **Kunskapslucka 4. Studier om kostnadseffektivitet saknas för alla typer av interventioner vid AST**

Vi har inte hittat några studier på kostnadseffektiviteten vid någon typ av behandling av personer med AST.

## 9.2 Kunskapsluckor – Organisation inom psykiatri med fokus på AST

Följande kunskapsluckor har identifierats:

- Specialiserade team jämfört med multidisciplinära team – inga studier har identifierats som uppfyllde inklusionskriterierna.
- Vård inom första linjens vård (allmän barnmottagning) jämfört med vård inom den specialiserade psykiatri med eller utan subspecialisering – inga studier har identifierats som uppfyllde inklusionskriterierna.
- Specialiserade rehabiliterings-/habiliteringsverksamheter jämfört med rehabilitering/habilitering inom befintliga organisationsstrukturer – inga studier har identifierats som uppfyllde inklusionskriterierna.
- Värde av stödinsatser till personalen eller strukturella hjälpmedel till organisationen – inga studier har identifierats som uppfyllde inklusionskriterierna.
- Organisationsformer som bygger på kommunikation med modern teknik (datorer, mobiltelefon etc) jämfört med organisationsformer som inte bygger på sådan kommunikation – inga studier har identifierats som uppfyllde inklusionskriterierna.

## 9.3 Kunskapsluckor – Patientens delaktighet vid AST

Följande kunskapsluckor har identifierats:

- Det saknas vetenskapligt underlag för hur personer med AST upplever utredning och behandling. Detta gäller för barn, vuxna och äldre.
- Det saknas vetenskapligt underlag för att bedöma delaktighetens effekter på behandlingen samt för att visa vad som kan främja patientens delaktighet.
- Det saknas vetenskapligt underlag om hur personer med AST önskar kommunicera. Vetenskapligt underlag saknas också om hur man bör kommunicera för att vara säker på att de förstår informationen.
- Det saknas i stor utsträckning studier om genusaspekter hos personer med AST. Mäns och kvinnors olika upplevelser behöver belysas. Det behövs också fler svenska studier.

## 10. Ord- och förkortningslista

---

<b>ABA</b>	Applied Behaviour Analysis
<b>ABC</b>	Aberrant Behavior Checklist
<b>ABI</b>	Applied Behavioral Intervention
<b>ADHD</b>	Attention deficit hyperactivity disorder
<b>ADI/ADI-R</b>	Autism Diagnostic Interview-Revised
<b>ADOS, ADOS-TM</b>	Autism Diagnostic Observation Schedule Toddler Module
<b>ADOS-G</b>	Autism Diagnostic Observation Schedule-Generic
<b>AMSTAR</b>	Granskningsmall för bedömning av systematiska översikter
<b>APA</b>	American Psychological Association (Amerikanska Psykiatriska Föreningen)
<b>ASD</b>	Autism Spectrum Disorder
<b>ASDASQ</b>	Autism Spectrum Disorder Adult Screening Questionnaire
<b>ASDI</b>	Asperger Syndrome Diagnostic Interview
<b>ASSQ</b>	Autism Spectrum Screening Questionnaire

<b>AST</b>	Autismspektrumtillstånd
<b>Autonomi</b>	Självbestämmande
<b>Best practice</b>	Bästa tänkbara vård
<b>Bortfall</b>	Personer som bjudits in till eller deltagit i en undersökning men som av olika skäl inte fullföljt studien
<b>BT</b>	Beteendeterapi
<b>CARS</b>	Childhood Autism Rating Scale
<b>CAST</b>	Childhood autism spectrum test (hette tidigare Childhood Asperger screening test)
<b>CBT</b>	Cognitive Behavioural Therapy
<b>CBCL</b>	Child Behavior Checklist
<b>CGI-I</b>	Clinical Global Impression of Improvement
<b>Confounder</b>	Förväxlingsfaktor
<b>Coping-strategi</b>	Coping-strategier är olika sätt att gripa sig an en uppgift eller ta itu med en svårighet, ett beroende osv
<b>Criterion validity</b>	Kriterievaliditet, tydliga kriterier för det sanna tillståndet
<b>Cut-off</b>	Analysgräns
<b>DAWBA</b>	Development and Well Being Assessment
<b>DBS</b>	Deep Brain Stimulation

<b>DISCO</b>	Diagnostic Interview for Social and Communication disorders
<b>DSM-IV (Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, fourth edition)</b>	Internationellt välanvänt psykiatriskt diagnos-system framtaget av American Psychiatric Association (APA) med stor spridning också i Sverige. Systemet är kriteriebaserat och syftar bl a till att öka samstämmighet och precision vid diagnos av psykiska tillstånd
<b>DSM-IV-TR</b>	Diagnostic and statistical manual of mental disorders, fourth edition, text revision
<b>EIBI</b>	Early Intensive Behavioral Intervention
<b>ESAT</b>	Early Screening of Autistic Traits questionnaire
<b>ESCS</b>	Early Social-Communication Scales
<b>Evidens</b>	Något som bedöms tyda på att ett visst förhållande gäller. I termen evidensbaserad sjukvård betyder evidens systematisk observation som uppfyller vetenskapligt tillförlitliga kriterier på ett sådant sätt att de anses utgöra ”bästa tillgängliga bevis”. Evidens finns ofta allmänt tillgängligt som publicerade forskningsresultat, eventuellt också i texter (systematiska översikter, metaanalyser) som enligt vetenskapliga regler sammanfattar och kommenterar alla tillgängliga publikationer med sådana resultat
<b>Evidensstyrka</b>	Styrkan i en slutsats. En bedömning av hur starkt det vetenskapliga underlaget är för att besvara en viss fråga på ett tillförlitligt sätt

<b>Exklusion</b>	Omständigheter som förhindrar att en person föreslås delta i en undersökning. Kriterier ska vara angivna i undersökningens protokoll. Exempel: Personen har, förutom den sjukdom som ska studeras, också en annan sjukdom som kan väntas störa bedömningen. Termen används även i systematiska översikter och avser då omständigheter som gör att resultaten från en viss studie inte kan tas med i sammanställningen
<b>GRADE</b>	Grading of Recommendations Assessment, Development and Evaluation
<b>Hermeneutisk cirkel/spiral (Hermeneutic phenomenological analysis)</b>	En metod för texttolkning. Den hermeneutiska cirkeln innebär pendling mellan helhet och del, mellan det man tolkar och den kontext som tolkas
<b>IBT</b>	Intensive Behavioral Therapy
<b>ICD-10</b>	International Classification of Diseases and Related Health Problems, version 10
<b>IK</b>	Intelligenskvot
<b>Inklusionskriterier</b>	Betingelser som ska föreligga för att en person ska kunna föreslås delta i en undersökning, eller för att en studie ska kunna ingå i en systematisk litteraturöversikt
<b>Inter-rater</b>	Överensstämmelse

<b>Intervention</b>	Åtgärd eller insats som prövas, ofta sjukdomsbehandling (läkemedel, operation m m), psykologisk behandling eller sjukdomsförebyggande åtgärd
<b>IQ</b>	Intelligence quotient
<b>KASAM</b>	Känsla av sammanhang. Begriplighet, hanterbarhet och meningsfullhet
<b>KAT-kit</b>	KAT-kittet består av en uppsättning KBT-verktyg som kan användas som kommunikationshjälpmedel i samtal kring tankar och känslor. KAT-verktygen erbjuder flera olika möjligheter att träna in nya sätt att känna och tänka
<b>KBT</b>	Kognitiv beteendeterapi
<b>Kiddie-SADS</b>	Schedule for Affective Disorders and Schizophrenia for school-aged children
<b>Konsensus</b>	Överenskommelse inom en grupp människor
<b>Kontrollgrupp</b>	Den deltagargrupp i en behandlingsstudie som får överksam behandling, s k placebo, eller sedvanlig behandling. Resultaten jämförs med dem för en grupp som får en annan behandling, t ex ett nytt läkemedel
<b>KPT</b>	Kognitiv psykoterapi
<b>Kvalitativ analysmetod</b>	Studier som inte i första hand besvarar frågor genom siffermässiga resultat utan som tolkar händelser och utvecklar begreppsmässiga strukturer. Det vanligaste arbetssättet är omfattande intervjuer



<b>Livskvalitet</b>	En persons syn på sitt livsvärde, enligt systematiska intervjuer med något av flera etablerade instrument. Skattning av livskvalitet är ett effektmått i många behandlingsstudier
<b>Metaanalys</b>	Är en studie av vetenskapliga publikationer, med syfte att dra slutsatser om den samlade vetenskapliga litteraturens gemensamma slutsats, således en studie av studier
<b>MSEL</b>	Mullen: Scales of Early Learning
<b>Negativt prediktivt värde (NPV)</b>	Anger sannolikheten för att de med negativt testresultat är friska
<b>Neuropsykiatri</b>	Den del av psykiatrin som betonar sambandet mellan hjärnans biologiska funktioner och psykiska störningar eller funktionshinder
<b>NF 5-15</b>	Nordiskt formulär rörande barns utveckling och beteende i åldrarna 5-15 år
<b>Oddsquotient Odds ratio (OR)</b>	Definieras som risken för symtom i interventionsgruppen delat med risken för symtom i kontrollgruppen
<b>PDD</b>	Pervasive developmental disorders. Genomgripande störning i utvecklingen utan närmare specifikation. En term som tilldelats lindrigare fall av autism i DSM-IV och som inte helt uppfyller kraven för autistisk störning
<b>PPD-NOS</b>	Pervasive Developmental Disorders – Not Otherwise Specified

<b>Pearson's r</b>	Can be used to measure pairwise correlation among raters using a scale that is ordered. Pearson assumes the rating scale is continuous
<b>PECS</b>	Picture Exchange Communication System
<b>PEP-R</b>	Psycho-Educational Profile Revised
<b>PIL-R</b>	Purpose in Life Test. Ett test som mäter "meningen med livet". Värdet mindre än 111 signalerar att personer inte funnit en tydlig mening med livet, medan högre värden pekar på motsatsen
<b>Population</b>	Grupp av personer som har något gemensamt, t ex förövare av sexualbrott mot barn. En behandlingsstudie utförs i regel på ett urval ur en population. En sådan urvalsgrupp kan också kallas en (studie)population
<b>Positivt prediktivt värde (PPV)</b>	Anger sannolikheten för att de med positivt testresultat är sjuka
<b>Publiceringsbias</b>	Snedvridning av publicerade resultat av studier orsakas av att undersökare, ibland också tidskriftsredaktörer, föredrar att publicera undersökningar som givit positivt resultat, t ex visat att en behandling har effekt. Studier som inte visat någon effekt blir till stor del okända, och bilden av behandlingens värde blir omotiverat gynnsam
<b>QUADAS</b>	Granskningsmall för diagnostiska studier
<b>RAADS</b>	Ritvo Autism Asperger Diagnostic Scale

<b>RAADS-R</b>	Ritvo Autism Asperger Diagnostic Scale-Revised
<b>Randomiserad kontrollerad undersökning (RCT)</b>	En undersökning där deltagarna fördelats slumpmässigt mellan försöksgrupp och kontrollgrupp
<b>Randomisering</b>	Slumpmässig fördelning av deltagarna mellan grupperna i en undersökning. Randomiseringens syfte är att eliminera inflytandet av störfaktorer vid bedömning av om funna samband verkligen är orsakssamband
<b>Sannolikhetsknoten, likelihood ratio (LR)</b>	Sammanfattar sensitivitet och specificitet i ett mått
<b>SCQ</b>	Social Communication Questionnaire
<b>SD</b>	Standard deviation, standardavvikelse
<b>SDQ</b>	Strenghts and Difficulties Questionnaire
<b>Sensitivitet (Se), Sensitivity</b>	Anger sannolikheten för att sjuka får ett positivt testresultat
<b>Shared decision making</b>	Ett övergripande förhållningssätt där patienten har rätt till delaktighet i sin egen vård och att behandlaren ska visa respekt för detta och genom sitt handlande göra patienten delaktig i beslut och genomförande av sin egen vård
<b>SOC</b>	Sence of Coherence Scale. En skala som används för att mäta känsla av sammanhang (KASAM), för att förklara varför vissa människor blir sjuka under stress och andra inte

<b>Specificitet (Sp), Specificity</b>	Anger sannolikheten för att friska får ett negativt testresultat
<b>SRS</b>	Social Responsiveness Scale
<b>STARD</b>	Checklista för bedömning av diagnostiska studier
<b>Statistisk styrka (power)</b>	Sannolikheten för att en undersökning med viss statistisk säkerhet ska kunna påvisa en skillnad mellan två eller flera grupper, när en sådan skillnad verkligen existerar
<b>Stigmatisering</b>	Stigmatisering innebär att bli föremål för nedvärderande och nedsättande attityder. En stigmatiserad person föraktas eller fruktas för någon egenskap som han/hon felaktigt utpekats att ha. Exempel är att personer med psykisk sjukdom utpekats som farliga
<b>Studie</b>	Allmän benämning på vetenskaplig undersökning. Termerna studie och undersökning används oftast synonymt. Olika typer av studier eller undersökningar har dessutom speciella benämningar
<b>Studiekvalitet</b>	Den vetenskapliga kvaliteten hos en enskild studie. Uttrycker trovärdighet eller studiens förmåga att besvara en viss fråga på ett tillförlitligt sätt
<b>Taktil beröring</b>	Känsla vid beröring
<b>TEACCH</b>	Treatment and Education of Autistic and related Communication handicapped Children

<b>TMS</b>	Transkraniell magnetstimulering
<b>t-Test</b>	t-fördelningen brukar användas när man inte känner till den exakta spridningen (variansen) i populationen eller när urvalet är litet (få patienter). Fördelningen används vid beräkning av p-värden eller konfidensintervall. Det krävs ofta större effekter vid t-tester än vid Z-tester för att få statistiskt signifikanta resultat
<b>VABS</b>	Vineland Adaptive Behaviour Scale
<b>VNS</b>	Vagus nerve stimulation

## 11. Projektgrupp, externa granskare, bindningar och jäv

---

### Projektgrupp

*Maria Ahlberg (projektassistent)*  
SBU, Stockholm

*Margareta Ahlström*  
Fil dr, leg psykolog, leg psykoterapeut, Stockholms universitet, Stockholm

*Ylva Benderix*  
Dr i vårdvetenskap, leg psykoterapeut, leg sjuksköterska, Linnéuniversitetet, Växjö

*Bo Bergman*  
Docent, överläkare, Psykiatri södra, Stockholm

*Eva Billstedt*  
Med dr, leg psykolog, Barnneuropsykiatri, Göteborg

*Thomas Davidson (hälsoekonom)*  
SBU, Stockholm

*Stephan Ehlers*  
Med dr, Specialistläkare, Barn- och ungdomspsykiatri, Göteborg

*Jean-Luc af Geijerstam (biträdande projektledare t o m december 2011)*  
SBU, Stockholm

*Martin Grann*

Adjungerad professor, Institutionen för medicinsk epidemiologi och biostatistik, Karolinska Institutet, Stockholm

*Linda Halldner-Henriksson*

Med dr, leg läkare, barn- och ungdomspsykiatri och Karolinska Institutet, Stockholm

*Lars Jacobsson (ordförande)*

Professor emeritus, psykiatri, Umeå universitet, Umeå

*Ulf Jonsson*

Med dr, leg psykolog, Karolinska Institutet och Uppsala universitet, Uppsala

*Rurik Löfmark (etiker)*

Docent i medicinsk etik, leg läkare, Karolinska Institutet, Stockholm

*Ingegerd Mejäre*

Professor emerita, Malmö högskola, Malmö

*Viviann Nordin*

Med dr, överläkare, Barnneurologi, Stockholm

*Anders Norlund (hälsoekonom)*

SBU, Stockholm

*Hanna Olofsson (informationsspecialist)*

SBU, Stockholm

*Sally Saad (informationsspecialist)*

SBU, Stockholm

*Mikaela Starke*

Docent, socionom, Göteborgs universitet, Institutionen för socialt arbete, Göteborg

*Bo Söderpalm*

Professor, specialisläkare i psykiatri, Beroendekliniken, Sahlgrenska Universitetssjukhuset, Göteborg

*Margareta Söderström*

Docent, Specialist i allmänmedicin, Primärvården, Lund

*Sofia Tranæus (biträdande projektledare)*

SBU, Stockholm

*Anne-Liis von Knorring*

Professor, överläkare, Barn- och ungdomspsykiatri, Uppsala

*Pernilla Östlund (projektledare)*

SBU, Stockholm

## **Externa granskare**

*Anders Anell*

Professor, Lunds universitet, Lund

*Malin Broberg*

Leg psykolog, docent, Psykologiska institutionen, Göteborgs universitet, Göteborg

*Sven Bölte*

Professor, psykolog, Karolinska Institutet, BUP-divisionen, Stockholm

*Johan Franck*

Professor, specialist psykiatri, verksamhetschef, Beroendecentrum, Stockholm

*Bruno Hägglöf*

Professor, överläkare, Umeå universitet, Norrlands universitetssjukhus

## Projektgrupp organisation inom psykiatri med fokus på AST, Kapitel 4

*Maria Ahlberg (projektassistent)*  
SBU, Stockholm

*Derya Akcan (informationsspecialist)*  
SBU, Stockholm

*Thomas Davidson (hälsoekonom)*  
SBU, Stockholm

*Nasim Farrokhnia (projektledare maj 2010–november 2010)*  
SBU, Stockholm

*Agneta Pettersson (projektledare november 2010–oktober 2012)*  
SBU, Stockholm

*Ingela Skärsäter*  
Professor, Sahlgrenska akademien, Göteborg universitet, Göteborg

*Gunilla Thernlund*  
Dr med sci, överläkare, Barn- och ungdomspsykiatri, Lund

*Sofia Tranæus (biträdande projektledare)*  
SBU, Stockholm

*Ing-Marie Wieselgren*  
Handläggare för psykiatrifrågor på Sveriges Kommuner och Landsting (SKL)

## Externa granskare organisation inom psykiatri med fokus på AST, Kapitel 4

*Mona Eklund*  
Professor, Lunds universitet, Lund

*Lena Flyckt*  
Överläkare, docent, Norra Stockholms psykiatri, Stockholm

*Henrika Jormfeldt*  
Lektor i omvårdnad, Sektionen för hälsa och samhälle, Högskolan, Halmstad

*Lars Hansson*  
Professor, Institutionen för hälsa, vård och samhälle, Lunds universitet, Lund

*Elisabeth Wentz*  
Docent, överläkare, Gillbergcentrum, Sahlgrenska akademien, Göteborgs universitet, Göteborg

## Projektgrupp patientens delaktighet vid AST, Kapitel 5

*Elisabeth Gustafsson (projektassistent)*  
SBU, Stockholm

*Svenny Kopp (t o m 2011-07-23)*  
Barnpsykiater, Barnneuropsykiatri (BNK), Sahlgrenska Universitetssjukhuset, Göteborg

*Jonas Lindblom (informationsspecialist)*  
SBU, Stockholm

*Lennart Lundin*  
Leg psykolog, specialist i klinisk psykologi, Psykiatri Psykos, Sahlgrenska Universitetssjukhuset, Göteborg

*Rurik Löfmark*

Docent, leg läkare, Institutionen för lärande, informatik, management och etik (LIME), Karolinska Institutet, Stockholm

*Bengt Mattsson (ordförande)*

Professor emeritus, Enheten för allmänmedicin, Göteborgs universitet

*Sofia Tranæus (biträdande projektledare)*

Docent, SBU, Stockholm

*Sophie Werkö (projektledare)*

Ekonomie doktor, SBU, Stockholm

## **Externa granskare patientens delaktighet vid AST, Kapitel 5**

*Anne-Charlotte Abrahamsson*

Patientsakkunnig, ADHD/Autism

*Susanna Danielsson*

Överläkare, med dr, Habiliteringscentrum, Länssjukhuset Ryhov, Jönköping

*Gunilla Thernlund*

Överläkare, dr med vet, Barn- och ungdomspsykiatriska kliniken, Skånes universitetssjukhus, Lund

## **Referensgrupp**

Vi har under hela projektets gång använt en referensgrupp bestående av företrädare från patientorganisationer inom vår diagnosgrupp för att stämma av och få deras synpunkter på vårt arbete. Referensgruppen har bestått av två representanter från följande patient- och anhörigorganisationer:

Autism och Aspergerförbundet

Balans

Nationell Samverkan för Psykisk Hälsa (NSPH)

Riksförbundet Attention

Riksförbundet för Social och Mental Hälsa (RSMH)

Schizofreniförbundet

Svenska OCD-förbundet Ananke

Dessutom har en representant från SBU:s lekmanråd ingått i gruppen.

## **Bindningar och jäv**

SBU kräver att alla som deltar i projektgrupper lämnar skriftliga deklarerationer avseende potentiella bindningar eller jäv. Sådana intressekonflikter kan föreligga om medlem i gruppen får ekonomisk ersättning från part med intressen i vad gruppen kommit fram till. Gruppens ordförande och SBU tar därefter ställning till om det finns några omständigheter som skulle försvåra en objektiv värdering av kunskapsunderlaget och ger vid behov förslag till åtgärder.

Sakkunniga och granskare har i enlighet med SBU:s krav inlämnat deklarerationer rörande bindningar och jäv. Dessa dokument finns tillgängliga på SBU:s kansli. SBU har bedömt att jäv inte föreligger.

# Rapporter publicerade av SBU

## Gula rapporter (2007–2013)

Autismspektrumtillstånd – diagnostik och insatser, vårdens organisation och patientens delaktighet (2013), nr 215

Skattning av njurfunktion (2013), nr 214

Schizofreni – läkemedelsbehandling, patientens delaktighet och vårdens organisation (2012), nr 213

Metoder för diagnostik och uppföljning av förstämningssyndrom (2012), nr 212

Implementeringsstöd för psykiatrisk evidens (2012), nr 211

Arbetets betydelse för uppkomst av besvär och sjukdomar – nacken och övre rörelseapparaten (2012), nr 210

Godartad prostataförstoring med avflödes hinder (2011), nr 209

Medicinska och psykologiska metoder för att förebygga sexuella övergrepp mot barn (2011), nr 207

Blödande magsår (2011), nr 206

Tandförluster (2010), nr 204

Rotfyllning (2010), nr 203

Program för att förebygga psykisk ohälsa hos barn (2010), nr 202

Mat vid diabetes (2010), nr 201

Antibiotikaprofylax vid kirurgiska ingrepp (2010), nr 200

Behandling av sömnbesvär hos vuxna (2010), nr 199

Rehabilitering vid långvarig smärta (2010), nr 198

Triage och flödesprocesser på akutmottagningen (2010), nr 197

Intensiv glukossänkande behandling vid diabetes (2009), nr 196

Patientutbildning vid diabetes (2009), nr 195

Egna mätningar av blodglukos vid diabetes utan insulinbehandling (2009), nr 194

Äldres läkemedelsanvändning – hur kan den förbättras? (2009), nr 193

Transkraniell magnetstimulering (Uppdatering av Kapitel 8 i SBU-rapport 166/2 från 2004) (2007), nr 192. *Publiceras endast i elektronisk version på www.sbu.se*

Vacciner till barn – skyddseffekt och biverkningar (2009), nr 191

Öppenvinkelglaukom (grön starr) – diagnostik, uppföljning och behandling (2008), nr 190

Rörbehandling vid inflammation i mellanörat (2008), nr 189

Karies – diagnostik, riskbedömning och icke-invasiv behandling (2007), nr 188

Benartärsjukdom – diagnostik och behandling (2007), nr 187

Ljusterapi vid depression samt övrig behandling av årstidsbunden depression (Uppdatering av Kapitel 9 i SBU-rapport 166/2 från 2004) (2007), nr 186. *Publiceras endast i elektronisk version på www.sbu.se*

Dyspepsi och reflux (2007), nr 185

Nyttan av att berika mjöl med folsyra i syfte att minska risken för neuralrörsdefekter (2007), nr 183

Metoder för att främja fysisk aktivitet (2006), nr 181

Måttligt förhöjt blodtryck (Uppdatering av SBU-rapport 170/1 från 2004) (2007), nr 170/1U

## Vita rapporter (2003–2013)

Volym och resultat (2011), nr 205

Behandling med vitamin D och kalcium (2006), nr 178

Volym och kvalitet (2005), nr 179

ADHD hos flickor (2005), nr 174

Evidensbaserad äldrevård (2003), nr 163

## SBU Alert-rapporter (2007–2013)

Transient elastografi vid misstänkt leverfibros och levercirros, nr 2013-1

Blodprov för tidig diagnostik av Alzheimers sjukdom, nr 2012-1

Vakuumassisterad sårbehandling, nr 2011-9

Perifert inlagd central venkateter (PICC), nr 2011-8

Analys av foster-DNA i kvinnans blod: icke-invasiv fosterdiagnostik för blodgrupps- eller könsbestämning, nr 2011-7

Molekylärdiagnostiska test för män med ökad sannolikhet för prostatacancer, nr 2011-6

Datorassisterad granskning inom mammografiscreening (CAD), nr 2011-5

Dabigatran för att förebygga stroke vid förmaksflimmer, nr 2011-4

Datortomografi för misstänkt kranskärlssjukdom, nr 2011-03

Perkutan vertebroplastik och ballongkyfoplastik vid ryggsmärta pga kotkompression som orsakats av osteoporos, nr 2011-02

Lasermedierad värmebehandling av levermetastaser, nr 2011-01

Kateterburen ablationsbehandling vid förmaksflimmer, nr 2010-06

Urinprov vid diagnostik av klamydia hos kvinnor, nr 2010-05

Hemblodtrycksmätning, nr 2010-04

Tidig och riktad ultraljudsundersökning efter fysiskt trauma, nr 2010-03

Silverförband vid behandling av kroniska sår, nr 2010-02

Cilostazol vid behandling av fönstertittarsjuka (claudicatio intermittens), nr 2010-01

Datorstödd träning för barn med ADHD, nr 2009-05

Dopaminerga medel vid restless legs syndrome, nr 2009-04

Laser vid avlägsnande av karies, nr 2009-03

Leukocytaferes vid inflammatorisk tarmsjukdom, främst ulcerös kolit, nr 2009-02

Kylbehandling av nyfödda barn som drabbats av allvarlig syrebrist under förlossningen, nr 2009-01

Mätning av kväveoxid i utandningsluft vid astma, nr 2008-05

---

Screening för bukaortaaneurysm, nr 2008-04

---

Ranibizumab för behandling av åldersförändringar i näthinnans gula fläck, nr 2008-03

---

EEG-baserad anestesidjupsmonitorering, nr 2008-02

---

Allmän barnvaccination mot HPV 16 och 18 i syfte att förebygga livmoderhalscancer, nr 2008-01

---

Självtestning och egenvård vid användning av blodproppsförebyggande läkemedel, nr 2007-05

---

Operation vid brytningsfel i ögat, nr 2007-04

---

Datorbaserad kognitiv beteendeterapi vid ångestsyndrom eller depression, nr 2007-03

---

Perkutan vertebroplastik vid svår ryggsmärta pga kotkompression, nr 2007-02

---

Pacemaker för synkronisering av hjärtkamrarnas rytm (CRT) vid kronisk hjärtsvikt, nr 2007-01

---

### **Rapporter på engelska (2001–2013)**

---

Dementia (2008), three volumes, no 172E

---

Obstructive Sleep Apnoea Syndrome (2007), no 184E

---

Interventions to Prevent Obesity (2005), no 173E

---

Moderately Elevated Blood Pressure (2004), Volume 2, no 170/2

---

Sickness Absence – Causes, Consequences, and Physicians' Sickness Certification Practice, Scandinavian Journal of Public Health, Suppl 63 (2004), no 167/suppl

---

Radiotherapy for Cancer (2003), Volume 2, no 162/2

---

Treating and Preventing Obesity (2003), no 160E

---

Treating Alcohol and Drug Abuse (2003), no 156E

---

Evidence Based Nursing: Caring for Persons with Schizophrenia (1999/2001), no 4E

---

Chemotherapy for Cancer (2001), Volume 2, no 155/2

---