

## L'EFFICACIA DEI TRATTAMENTI RIVOLTI A BAMBINI CON DISTURBO PRIMARIO DEL LINGUAGGIO.

### REPORT DEL PERCORSO METODOLOGICO E DEI RISULTATI EMERSI DAL QUESITO 2 DELLA CONSENSUS CONFERENCE SUL DISTURBO PRIMARIO DEL LINGUAGGIO *(a cura di Sara Rinaldi)*

Nel corso del 2020 le associazioni scientifiche del Comitato Tecnico Scientifico e il Comitato Promotore, Clasta e FLI, sono impegnate nella disseminazione dei risultati emersi dalla Consensus Conference realizzata sui Disturbi Primari del Linguaggio (DPL) in tutto il territorio nazionale.

La fase di divulgazione dei risultati è parte di un processo, metodologicamente ben definito, iniziato nel 2014 e che proseguirà nei prossimi anni alla luce delle numerose e fondamentali indicazioni di ricerca emerse.

Lo scopo di una Consensus Conference è quello di produrre delle raccomandazioni per la pratica clinica e per la ricerca scientifica, in base ai risultati emersi da una revisione sistematica della letteratura, in quegli ambiti dove la ricerca si trova in una fase iniziale e le evidenze scientifiche non sono ancora solide.

La rilevanza epidemiologica, clinica e sociale del DPL unita alla mancanza di indicazioni condivise per il percorso assistenziale di bambini con questi disturbi ha portato alla formulazione di quesiti inerenti l'individuazione e la cura dei bambini con DPL.

Sono stati selezionati due quesiti essenziali, il primo riguardante la diagnosi del DPL e articolato in tre quesiti specifici relativi all'efficacia degli strumenti diagnostici, alla fascia d'età appropriata per formulare la diagnosi e all'esistenza di indicatori precoci del disturbo, il secondo inerente l'efficacia dei trattamenti rivolti ai bambini con DPL.

Entrando nel merito del quesito sull'efficacia dei trattamenti è importante condividere alcune premesse che permettono una comprensione più approfondita dei risultati emersi e delle raccomandazioni formulate dalla giuria.

La necessità di prove di efficacia degli interventi rivolti a bambini con DPL nasce dall'estrema variabilità dei trattamenti osservabile nella pratica clinica nel nostro paese; questa variabilità riflette le caratteristiche del disturbo stesso, ovvero da un lato l'eterogeneità di espressione tra i soggetti e dall'altro il cambiamento di espressività del disturbo nello stesso individuo durante l'età evolutiva, in particolare nel passaggio all'età scolare, fino all'età adulta.

L'alta variabilità, d'altra parte, è indice della mancanza di definizione di percorsi terapeutici sulla base di indicazioni ricavate dalla letteratura scientifica.

L'eterogeneità degli interventi è una caratteristica peculiare degli interventi riabilitativi e rende difficile il confronto tra gli stessi; essa è legata alla presenza di numerose variabili che caratterizzano il trattamento. Nel caso, in particolare, degli interventi rivolti a bambini con DPL sono state individuate le seguenti variabili:

- Setting (clinica, scuola, casa)
- Timing (frequenza e durata)
- Modalità d'intervento (individuale, di gruppo)
- Figura che eroga l'intervento (logopedista, insegnante, genitore)
- Misure di esito (di cosa si valuta la modificazione e con che strumenti)
- Dominio linguistico target (fonetica-fonologia, vocabolario-semantic, morfologia-sintassi, narrazione)
- Obiettivi (singole componenti del linguaggio o stimolazione più ampia)
- Lingua oggetto dell'intervento.

Queste variabili, nella pratica clinica, riflettono la complessità dell'intervento rivolto ai bambini con DPL e consentono al logopedista di calibrare e individualizzare il percorso riabilitativo.

Le stesse, rientrano tra quelle utilizzate dal gruppo di lavoro per estrapolare i dati dagli studi analizzati e per confrontare, e quindi organizzare, i risultati.

### La strategia di ricerca

La ricerca nelle banche dati (PubMed, Embase, Web of Science, The Cochrane Central Register of Controlled Trials, SpeechBITE, Psych-INFO, ClinicalTrials.gov, World Health Organization International Clinical Trials Registry Platform) è avvenuta in base ad un quesito formulato con il metodo PICOM.

Sono stati ricercati tutti gli studi riguardanti bambini in età prescolare e scolare (fino a 8 anni) con diagnosi di DPL (P), in cui qualsiasi tipo di intervento per il miglioramento delle competenze in ambito fono-articolatorio, fonologico, semantico-lessicale, morfosintattico (I) fosse confrontato con un altro intervento sperimentale, la lista d'attesa o nessun intervento (C) con l'obiettivo di migliorare l'espressione e la ricezione del linguaggio, il comportamento sociale o diminuire comportamenti avversi (O); sono stati inclusi solo studi RCT e revisione sistematiche di studi RCT (M) dal 2003 e in poi (gli studi inclusi nella revisione Cochrane di Law et al. 2003 arrivano infatti al 2002).

### La selezione degli studi

La lettura degli abstract ha permesso di selezionare gli studi che rispettavano i criteri di inclusione e in seguito la lettura dei full text eleggibili ha determinato l'inclusione degli studi.

È stata effettuata una valutazione metodologica degli studi inclusi attraverso l'applicazione dei "Criteri di valutazione della qualità metodologica delle revisioni. *AMSTAR checklist*" (Shea et al. Development of AMSTAR: a measurement tool to assess the methodological quality of systematic reviews. BMC Med Res Methodol. 2007 Feb 15;7:10. Traduzione in italiano a cura del Dipartimento di Epidemiologia, SSR Lazio) e dei "Criteri della Cochrane Collaboration per la valutazione di studi randomizzati e controllati (RCT)".

Si è proceduto quindi con l'estrazione dei dati, si riporta di seguito l'elenco dei campi analizzati. La numerosità degli aspetti presi in considerazione riflette quella variabilità e quella complessità discussa nelle premesse.

<i>Extract form per le revisioni</i>	<i>Extract form per gli RCT</i>
Obiettivo della revisione	Obiettivi dello studio
Disegno di studio degli studi inclusi nella revisione (n°)	Disegno dello studio
Paese di provenienza degli studi inclusi	Paese
Caratteristiche dei partecipanti al baseline	Caratteristiche dei partecipanti
Lingua in cui l'intervento viene somministrato	Setting
Intervento sperimentale	Lingua in cui l'intervento viene somministrato
Intervento di controllo	Intervento sperimentale
Aree del linguaggio indagate	Intervento di controllo
Risultati	Durata dell'intervento
Conclusioni	Aree del linguaggio indagate
Note/commenti	Esiti riportati nei risultati
	Conclusioni
	Note/Commenti

## I risultati

Dei 2727 record identificati, 1967 sono stati sottoposti a screening per l'esclusione in base a titolo e abstract; 91 full text sono stati quindi valutati per l'eleggibilità, di cui 38 studi selezionati per l'estrazione dei dati. Infine sono stati inclusi 22 studi: 1 revisione, 2 RCT da revisione e 19 RCT.

Per i riferimenti bibliografici e l'analisi specifica dei singoli studi si rimanda al documento redatto dal gruppo di lavoro sul Quesito 2. [https://www.disturboprimariolinguaggio.it/wp-content/uploads/2019/11/Relazione-per-Giuria-Gruppo-4-QC\\_2.pdf](https://www.disturboprimariolinguaggio.it/wp-content/uploads/2019/11/Relazione-per-Giuria-Gruppo-4-QC_2.pdf)

Nella seguente tabella i 21 RCT sono stati suddivisi per area del linguaggio indagata.

<i>Area linguaggio</i>	<i>RCT n°</i>
Fonologia espressiva	4 + 1 (stesso studio indicato nel +1 di morfologia e sintassi espressiva)
Fonologia recettiva	0
Vocabolario espressivo	1
Vocabolario recettivo	0
Morfologia e sintassi espressiva	7 + 1 + 2 (i 2 RCT da revisione)
Morfologia e sintassi recettiva	1
Narrazione	1
Metafonologia	2
Linguaggio generale	3

## Aspetti positivi

Sono stati individuati nuovi studi a sostegno dei risultati di Law et al. 2003 relativamente all'efficacia degli interventi rivolti alle competenze espressive di fonologia, vocabolario, morfologia e sintassi.

La revisione di Law et al. 2003 riporta l'efficacia di interventi mirati alle **abilità fonologiche espressive**, in particolare se confrontati con campioni di bambini che non effettuano trattamenti, erogati da clinici e di durata superiore alle 8 settimane.

Sono stati individuati quattro studi RCT che indagano quattro tipi differenti di intervento. L'intervento proposto da Allen et al. 2013 basato sui contrasti fonemici è risultato efficace soprattutto quando effettuato ad alta frequenza (3v/sett.), anche la terapia fonologica di Lousada et al. 2013 che combina compiti fonologici espressivi e di consapevolezza fonologica con attività di ascolto e discriminazione è risultata efficace. In entrambi gli studi non ci sono prove sul mantenimento dei risultati (il follow-up non era significativo nel caso dello studio di Allen et al. 2013 e non è stato effettuato nel caso dello studio di Lousada et al. 2013). Introdurre attività grosso-motorie nella terapia fonologica non aumenta l'efficacia dell'intervento (Paz-Diaz Williams et al. 2013) così come non ci sono differenze nel supportarla con l'utilizzo del computer (Wren & Roulstone 2008). I 3 interventi proposti in lingua inglese sono stati condotti nel contesto scolastico mentre quello rivolto a bambini portoghesi in un ambiente universitario (Lousada et al. 2013).

La revisione di Law et al. 2003 indica l'efficacia di interventi mirati al **vocabolario espressivo** in bambini con difficoltà solo espressive quando confrontati con il non-trattamento e senza differenze tra quelli erogati dal clinico o mediati dai genitori. Lo studio di Smeet et al. 2012 riporta iniziali prove di efficacia sulla possibilità di utilizzo dei libri elettronici senza effetti sonori e senza la presenza dell'adulto per aumentare il vocabolario espressivo.

Dalla revisione di Law et al. 2003 gli interventi mirati alla **morfologia e sintassi espressiva** risultano efficaci, quando paragonati al non-trattamento o a terapie cognitive, solo escludendo i bambini con difficoltà severe di comprensione del linguaggio.

Tutti gli studi RCT inclusi sono rivolti a bambini di lingua inglese e gli obiettivi degli interventi sono quindi legati alla specifica morfologia di questa lingua. Tre studi sono stati condotti in un contesto scolastico (Plante et al. 2014; Smith-Lock et al. 2015; e Finestack et al. 2009), due in ambito universitario (Fey et al. 2016; Yoder et al. 2011) mentre, in uno studio, il contesto d'intervento non è specificato (Washington et al. 2011 e 2013). La strategia di ristrutturazione (*recast*) che consiste nella riformulazione della produzione del bambino da parte dell'adulto è stata indagata in tre di questi studi. In Plante et al. 2014, la ristrutturazione in conversazione è più efficace quando c'è un'alta variabilità di stimoli anche se non c'è generalizzazione di quelli non trattati. In Smith-Lock et al. 2015, il *recast* è stato confrontato con il *cueing* (suggerimenti dati in base ad una gerarchia) ed è risultato meno efficace anche se questa differenza non si mantiene al follow-up. Il confronto tra approccio esplicito ed implicito nell'utilizzo di suggerimenti (*prompt*) uditivi associati al modellamento (*modelling*) e alla ristrutturazione (*recast*) di Finestack et al. 2009 non ha portato a risultati conclusivi. Anche nell'intervento di Fey et al. 2016, basato sull'ipotesi CSI, è presente la strategia di ristrutturazione di frasi dichiarative in attività di *retelling* (racconto di storie ascoltate da parte del bambino); in seguito ad attività basate sul modellamento delle stesse strutture frasali, il gruppo sperimentale è migliorato maggiormente rispetto al controllo in cui le stesse strategie erano utilizzate in una terapia dall'approccio tradizionale. Il supporto di un programma computerizzato quale il "My Sentence Builder" non risulta più efficace rispetto ad un intervento tradizionale (Washington et al. 2011 e 2013). Lo studio di Tyler et al. (2002) indaga la combinazione di un intervento mirato sia alla morfosintassi che alla fonologia; il trattamento risulta efficace rispetto al non-trattamento anche se non è possibile trarre conclusioni rispetto all'ordine dei due interventi.

Inoltre sono stati individuati i primi studi sulle competenze narrative e metafonologiche, questi risultati appaiono legati al progresso della ricerca sul ruolo di queste abilità per lo sviluppo del bambino. La revisione di Law et al. 2003 non aveva infatti indagato l'efficacia di interventi sulla abilità narrative e metafonologiche.

Dallo studio di Maggiolo et al. 2013 emerge un miglioramento nelle **abilità narrative** (in particolare relazioni temporali e causali) in un intervento basato sia sull'organizzazione che sul contenuto del racconto.

Due RCT inclusi hanno indagato l'efficacia di un intervento che combina attività diverse mirate alla **consapevolezza fonologica**: Hesketh et al. 2007, i compiti legati al riconoscimento e alla manipolazione dei fonemi sono preceduti da attività di consapevolezza sillabica e l'intervento ha portato a miglioramenti nei bambini più grandi e con livello cognitivo più elevato in compiti di consapevolezza fonologica rispetto ad un controllo che effettuava una stimolazione linguistica generale; Hund-Reid et al. 2013 ha valutato attività legate alla consapevolezza fonemica che si è dimostrata efficace rispetto al non-intervento. Entrambi gli studi sono stati effettuati in un contesto scolastico (nel caso di Hesketh et al. 2007 anche a casa) e in lingua inglese.

Infine, sono emerse prime conferme rispetto a quanto si osserva nella pratica clinica, ossia l'importanza di interventi a domicilio mediati dai genitori.

Tre RCT inclusi valutano l'efficacia di interventi differenti sulle **competenze linguistiche generali** effettuati in parte (Roberts et al. 2012) o interamente (Wake et al. 2013 e 2015) a domicilio e sono mediati dai genitori: l'intervento "Enhanced Milieu Teaching" (EMT) proposto da Roberts et al. 2012 ha mostrato prove preliminari di efficacia rispetto sia al linguaggio espressivo che recettivo; il trattamento indagato da Wake et al. 2013 e 2015 è risultato efficace per l'elaborazione fonologica.

Dagli studi di Cohen et al. 2005 e Gillam et al. 2008 inclusi nella revisione di Loo et al. 2010 non emergono prove a sostegno di una maggiore efficacia dell'intervento attraverso il programma computerizzato *Fast For Word Language* rispetto ad altri tipi di intervento sia al computer che non, per abilità di linguaggio recettivo o espressivo.

La revisione di Law et al. 2003 non indica l'efficacia di interventi mirati sia alle abilità recettive che espressive (un solo studio senza risultati significativi).

### Aspetti critici

La prima criticità riguarda la mancanza di studi per il linguaggio recettivo e quindi l'assenza di indicazioni per il trattamento di bambini con quadri clinici più severi e prognosi peggiore.

Dalla revisione di Law et al. 2003 non emergono evidenze di efficacia di intervento per le **abilità fonologiche ricettive** (un unico studio individuato senza differenze significative tra i gruppi) e sul **vocabolario recettivo**. Nessuno degli studi inclusi nella revisione ha riguardato le abilità fonologiche recettive e del vocabolario recettivo.

Inoltre, dalla revisione di Law et al. 2003 non emergono indicazioni di efficacia degli interventi mirati alla **sintassi recettiva**. Nello studio di Fey et al. 2016 la comprensione di domande risulta migliore nei bambini che effettuano una terapia basata sull'ipotesi CSI (con contrasti rispetto al tempo dei verbi) rispetto ai controlli (dove gli stimoli sono basati su contrasti semantici). L'ipotesi è strettamente legata all'acquisizione della grammatica inglese.

Altre criticità emergono dalla valutazione della validità interna degli studi, riguardano quindi la qualità metodologica degli studi RCT inclusi nella revisione; infatti sono state riscontrate un'ampia variabilità nelle stime per ognuno dei *bias* considerati e la qualità degli studi è complessivamente medio-bassa, in particolare sono presenti *bias* legati alla mancata cecità dei valutatori (*detection bias*) e alla selettività nella pubblicazione dei risultati (*reporting bias*) e vi sono possibili *bias* in oltre la metà degli studi legati alla randomizzazione e all'allocazione al trattamento.

Inoltre nella maggior parte degli studi manca una valutazione al follow-up e in quelli in cui è stata effettuata non viene mantenuto il vantaggio del gruppo sperimentale rispetto a quello di controllo.

Infine alcune considerazioni fondamentali emergono dalla valutazione della validità esterna degli studi, che ha rilevato la lingua oggetto dell'intervento e la sede in cui veniva effettuato. I campioni degli studi inclusi sono costituiti quasi esclusivamente da bambini che parlano la lingua inglese, è importante capire se questo possa essere un limite alla generalizzabilità dei risultati ai bambini italiani ma anche chiedersi in particolare per quali competenze linguistiche. La possibilità infatti di trasferire strategie e attività, modificando gli stimoli e gli obiettivi potrebbe essere attuabile per alcune aree del linguaggio, nonostante le differenze tra le due lingue.

La maggior parte degli studi sono condotti nel contesto scolastico: un setting d'intervento diverso rispetto a quello abituale nel nostro paese. Anche in questo caso sarà fondamentale riflettere sull'applicabilità dei risultati ai contesti di cura usuali per bambini con DPL in Italia.

## Conclusioni

L'analisi della letteratura scientifica ha confermato la variabilità degli interventi rivolti ai bambini con DPL e la difficoltà nel confrontare i risultati relativi alle diverse aree del linguaggio indagate.

Le indicazioni emerse dalla giuria di esperti riguardano quindi la necessità di proseguire con la ricerca sull'efficacia del trattamento in tutte le aree del linguaggio con lo scopo di individuare trattamenti efficaci rivolti alle competenze verbali nei casi in cui non ci siano prove o siano limitate, ma anche al fine di implementare i risultati inerenti lingue e setting d'intervento diversi dal nostro attraverso la conduzione di studi su campioni di bambini italiani.