



## #40 Balbuzie in età prescolare: lo studio randomizzato RESTART

Studio originale: [de Sonnevile-Koedoot C., Stolk E., Rietveld T., Franken M-C \(2015\) Direct versus Indirect Treatment for Preschool Children who Stutter: The RESTART Randomized Trial. PLoS ONE 10\(7\):e0133758. doi:10.1371/journal.pone.0133758](https://doi.org/10.1371/journal.pone.0133758)

La balbuzie evolutiva è un disturbo della fluenza verbale con esordio nell'infanzia che colpisce tra il 5 e l'11% dei bambini in età prescolare (Månsson, 2000). Circa il 63% dei bambini che balbettano va incontro ad una remissione spontanea entro 3 anni dopo l'inizio dei sintomi della balbuzie, ma le probabilità di remissione non possono essere previste per ogni singolo bambino (Yairi & Ambrose, 2005). Allo stesso tempo, è dimostrato che le probabilità di remissione completa diminuiscono se la balbuzie persiste per più di 15 mesi (Ingham & Cordes, 1998) e che la balbuzie cronica negli adolescenti e negli adulti può avere gravi conseguenze psicologiche e sociali (Craig et al., 2009). Per questi motivi, le linee guida internazionali sulla balbuzie raccomandano di iniziare il trattamento prima dei 6 anni di età (Pertjans et al., 2014). Tuttavia, non c'è consenso sulla scelta di un approccio terapeutico diretto o indiretto per i bambini in età prescolare.

Gli approcci indiretti includono il trattamento secondo il Modello delle Richieste e delle Capacità (*Demands and Capacities Model* - DCM; Starkweather & Gottwald, 1990). Questo approccio è multidimensionale e mira a ridurre le richieste dell'ambiente per raggiungere un equilibrio favorevole tra queste e le capacità del bambino, facilitando così la fluenza verbale. Tra gli approcci diretti invece, il *Lidcombe Program* (LP) è uno dei programmi di trattamento più noti e studiati (Onslow et al., 2001). Si tratta di un approccio comportamentale basato sul condizionamento operante, in cui i genitori imparano a dare un feedback verbale specifico in risposta all'eloquio fluente e balbettato. Secondo gli studi condotti finora, il programma LP è il miglior intervento basato sull'evidenza per i bambini che balbettano in età prescolare (Nye et al., 2013). Tuttavia, l'efficacia a lungo termine di questo trattamento non è ancora chiara (Jones et al., 2008). Inoltre, l'efficacia di questo trattamento rispetto ad altri tipi di trattamento non è ancora stata dimostrata.

Per questo motivo, il gruppo di ricerca di Caroline de Sonnevile-Koedoot nei Paesi Bassi ha condotto uno studio comparativo sugli approcci diretti e indiretti per i bambini che balbettano in età prescolare. Per questo studio randomizzato chiamato RESTART (*Rotterdam Evaluation Study of Stuttering Therapy in preschool children - a Randomised Trial*), sono stati reclutati 199 bambini che balbettano in età prescolare da 20 cliniche e studi logopedici partecipanti nei Paesi Bassi. I criteri di inclusione erano un'età compresa tra i 3 e i 6,3 anni, una gravità della balbuzie di almeno 2 ("lieve") su una scala a 8 punti e una frequenza del 3% o più di sillabe balbettate per almeno 6 mesi.

Il software MINIM2 è stato utilizzato per assegnare i partecipanti ai due gruppi di trattamento. I bambini sono stati classificati in base a fattori noti o ritenuti correlati all'esito del trattamento, come il sesso, la gravità della balbuzie (in base al punteggio dello *Stuttering Severity Instrument*, terza edizione - SSI-3), il tempo trascorso dall'esordio della balbuzie (6-12, 13-18, 19+ mesi) e l'aver un parente con balbuzie



cronica. Sono stati distinti tre livelli di gravità della balbuzie: lieve (punteggio SSI-3: 10-16); moderata (punteggio SSI-3: 17-26) e grave (punteggio SSI-3: 27+).

Un gruppo di bambini è stato trattato con il *Lidcombe Program* (LP). Come già accennato, l'LP si basa sulla premessa che la balbuzie è un comportamento operante che può essere controllato con un feedback verbale. Questo programma viene condotto quotidianamente dai genitori sotto la guida di una/un logopedista. I genitori vengono addestrati a fornire un feedback specifico durante le conversazioni con il bambino (ad esempio: "Questa volta è stato morbido" o "Questa volta c'erano alcuni salti"). Nella prima fase del programma, i genitori hanno avuto conversazioni strutturate di 10-15 minuti con i loro figli una o due volte al giorno e hanno visitato la clinica una volta alla settimana. Il programma è proseguito fino a quando la balbuzie è scomparsa o ha raggiunto un livello molto basso (1% di sillabe balbettate). Nella seconda fase, l'uso del feedback verbale e il numero di visite alla clinica sono stati gradualmente ridotti, a condizione che la fluenza verbale fosse mantenuta.

Il secondo gruppo di bambini è stato trattato con un approccio indiretto, ovvero con un trattamento basato sul *RESTART Demands and Capacities Model* (RESTART-DCM). Questo programma si basa sull'idea che i cambiamenti positivi nel comportamento e/o nell'ambiente del bambino portino a una riduzione della balbuzie. I genitori sono stati istruiti a ridurre le richieste motorie, linguistiche, emotive o cognitive e quindi a ridurre la pressione comunicativa sul bambino (ad esempio rallentando la velocità del proprio eloquio). Se ritenuto necessario, sono state allenate le abilità di fluenza del bambino (ad esempio migliorando le abilità motorie o di ricerca delle parole). Ai genitori è stato chiesto di fare i compiti con i loro figli per 15 minuti al giorno per almeno 5 giorni alla settimana. Il trattamento veniva gradualmente ridotto quando il bambino mostrava una migliore fluenza verbale e/o quando i genitori erano riusciti a creare un ambiente che favorisce la fluenza e sapevano cosa fare in caso di episodi di balbuzie.

Il primo risultato misurato è stata la percentuale di bambini che non balbettavano 18 mesi dopo l'inizio del trattamento, operanzializzata con l'1,5% di sillabe balbettate (SS). Per questa misurazione sono state utilizzate tre registrazioni audio di 10-15 minuti ciascuna, registrate nell'arco di due settimane. Le registrazioni sono state prese da tre diverse situazioni di conversazione del bambino: una con un genitore a casa, una con una persona esterna alla famiglia a casa e una con una persona esterna alla famiglia fuori casa. I risultati hanno mostrato che il 76,5% dei bambini del gruppo LP è stato classificato come non balbuziente dopo 18 mesi, rispetto al 71,4% dei bambini del gruppo RESTART-DCM. Tuttavia, questa differenza non era statisticamente significativa. La frequenza della balbuzie (%SS) è stata invece misurata in cinque diversi momenti: Alla Baseline e a 3, 6, 12 e 18 mesi dopo l'inizio del trattamento. Il gruppo LP ha mostrato una maggiore riduzione della frequenza della balbuzie rispetto al gruppo RESTART-DCM 3 mesi dopo l'inizio del trattamento. Nel corso del tempo, tuttavia, la frequenza della balbuzie è diminuita sempre di più in entrambi i gruppi e non ha più mostrato differenze significative dopo 18 mesi.

L'attitudine comunicativa dei bambini è stata valutata anche con il KiddyCAT (Vanryckeghem, M., Brutton, G. J., & Hernandez, L. M.; 2005) e i problemi emotivi e



comportamentali con la *Child Behaviour Checklist* (CBCL; Achenbach, T. M., & Rescorla, L. A.; 2000) alla baseline e 18 mesi dopo l'inizio del trattamento. Il CBCL è composto da tre scale: Comportamento Internalizzante (ansia, depressione, ritiro e disturbi somatici), Comportamento Esternalizzante (comportamento aggressivo e delinquenziale) e Comportamento Problematico Totale. In entrambi i test non sono state riscontrate differenze significative tra i due gruppi a 18 mesi dall'inizio del trattamento. Tuttavia, i bambini più grandi hanno mostrato un maggiore declino nei punteggi della scala CBCL esterna (Comportamento Esternalizzante), soprattutto nel gruppo LP.

Infine, è stata effettuata una valutazione da parte dei genitori della gravità della balbuzie utilizzando una scala a 8 punti e della qualità di vita correlata alla salute del bambino utilizzando la EuroQoL EQ-VAS alla baseline e a 3, 6, 12 e 18 mesi dall'inizio del trattamento. È stato riscontrato un effetto significativo del tempo e del tipo di terapia nella valutazione della gravità della balbuzie da parte dei genitori: I punteggi sono diminuiti leggermente di più nel gruppo LP nell'arco di 18 mesi. Per quanto riguarda la valutazione della qualità della vita, i risultati per tutti e 5 i punti di misurazione non hanno mostrato differenze significative tra i gruppi.

Lo studio RESTART ha dunque rilevato che sia il trattamento diretto che quello indiretto hanno portato ad una riduzione significativa della balbuzie nel periodo di follow-up di 18 mesi. La maggior parte dei parametri misurati era leggermente a favore dell'approccio diretto (LP), ma poiché la dimensione dell'effetto era piccola, questo risultato non è stato considerato una prova significativa della superiorità di questo trattamento rispetto all'altro. Il trattamento diretto LP e il trattamento indiretto RESTART-DCM si basano su premesse e presupposti diversi per quanto riguarda i meccanismi alla base dell'effetto del trattamento (ossia la mediazione del feedback verbale e il bilanciamento delle richieste e delle capacità di parlare in modo fluente, rispettivamente). Tuttavia, dal momento che i risultati di entrambi i trattamenti sono paragonabili, si potrebbe ipotizzare che le loro componenti comuni abbiano un impatto maggiore rispetto alle componenti che li differenziano.

In sintesi, si può raccomandare un trattamento sia diretto che indiretto per la balbuzie in età prescolare. Gli autori suggeriscono che le ricerche future dovrebbero indagare anche i fattori legati al cliente e al terapeuta, poiché un buon risultato terapeutico è dovuto anche a una buona relazione terapeutica. Inoltre, si potrebbe studiare un approccio combinato diretto e indiretto per sostenere ulteriormente l'efficacia della terapia della balbuzie nei bambini in età prescolare.

Lo studio RESTART è il più grande studio randomizzato sulla balbuzie infantile finora condotto ed è stato il primo a confrontare due interventi per bambini in età prescolare. L'importanza di questo studio per il trattamento della balbuzie infantile è quindi notevole, ma non è stato esente da critiche.

Bergþórsdóttir & Ingham (2017), ad esempio, hanno criticato le misure di outcome utilizzate e il fatto che non ci fosse un gruppo di controllo non trattato. Infatti, in questo studio, i bambini con un punteggio di gravità della balbuzie inferiore all'1,5%SS sono stati considerati "non balbuzienti" dopo la terapia. Si tratta di un argomento molto dibattuto in letteratura, soprattutto da parte degli autori che



privilegiano un approccio olistico e/o modificativo e ritengono che il semplice miglioramento della fluency non si traduca necessariamente in un cambiamento nelle componenti nascoste della balbuzie. Gli autori dello studio RESTART hanno risposto a questa critica facendo riferimento allo studio di Clark e colleghi (2013), secondo cui l'eloquio dei bambini piccoli che contiene un massimo di 3 sillabe balbettate ogni 200 sillabe viene percepito come "non balbettato" dagli ascoltatori (de Sonneville-Koedoot et al. 2016). Per quanto riguarda la mancanza di un gruppo di controllo, gli autori hanno ammesso di non aver potuto dimostrare in modo convincente che uno dei due trattamenti fosse migliore di nessun trattamento. Tuttavia, hanno anche affermato che lo scopo del loro studio non era questo, bensì quello di confrontare il programma Lidcombe e il trattamento basato sul DCM, in quanto si tratta delle terapie più comunemente utilizzate nel trattamento della balbuzie infantile in tutto il mondo.

Onslow e Lowe (2019) hanno mosso le stesse critiche allo studio RESTART e ne hanno aggiunte altre, tra cui il possibile bias dello studio dovuta al fatto che è stato condotto nei Paesi Bassi. Dal momento che il metodo RESTART DCM è nato nei Paesi Bassi, i logopedisti neerlandesi sono sicuramente più esperti nella somministrazione di questo trattamento rispetto al metodo Lidcombe, di origine australiana, secondo la critica. È interessante notare che questa critica proviene da uno degli inventori dell'approccio Lidcombe, il cui team di autori è stato coinvolto in tutti gli studi condotti finora per determinarne l'efficacia.

Senza voler entrare nel merito della fondatezza o meno delle critiche, resta il fatto che questo studio è il primo del suo genere nel campo della balbuzie infantile e la sua rilevanza clinica è innegabile. Forse anche a causa di queste numerose critiche, un team di autori norvegesi sta attualmente conducendo l'*Effective Stuttering Treatment Project* (EST), che mira a scoprire quale sia il trattamento più efficace per la balbuzie infantile attraverso un altro RCT che include anche un gruppo di controllo non trattato. Siamo molto curiosi di vedere quali risultati produrrà questo studio e se saranno o meno paragonabili a quelli dello studio RESTART.

**Studio riassunto e tradotto da Giorgio Benedetti, logopedista e Patolinguista a Berlino.**

**Commento di Pier Giuseppe Carando, logopedista a Moncrivello, appassionato di balbuzie e Fluency Specialist Registered.**

Ho riletto con attenzione l'interessante articolo di Sonneville-Koedoot C, Stolk E, Rietveld T, Franken MC "Direct versus Indirect Treatment for Preschool Children who Stutter: The RESTART Randomized Trial" pubblicato nel 2015. Alla sua uscita e anche oggi ho avuto la stessa reazione e la voglio condividere con i colleghi che ascolteranno o leggeranno queste poche note.

Il campione studiato era composto da 199 bambini prescolari di età variabile tra i 3,00 e 6,3 anni con gravità di balbuzie almeno definita come "lieve" e frequenza di balbuzie (sillabe balbettate) di almeno il 3% e da almeno 6 mesi. I bambini sono stati poi orientati ad un ciclo di trattamento seguendo un criterio di omogeneità per gravità sintomatologica, tempo di insorgenza, familiarità. Le due metodologie prese

in esame erano Lidcombe Program (LP) e RESTART Demands and Capacities Model (DCM).

I 2 "Metodi" si differenziano per la filosofia di approccio ma sono molto meno diversi nella concretezza dei fatti applicati:

Il Lidcombe prevede che i genitori somministrino il trattamento al domicilio previa indicazioni dettagliate del logopedista. Il trattamento è di fatto rappresentato da feedback verbali positivi in caso di parola fluente e di commenti in caso di parola disfluente. I feedback vengono prima prodotti in momenti strutturati (controllati) di parola e poi successivamente in momenti non strutturati.

Di fatto è un intervento behavioristico che prevede:

- Che i genitori facciano cose con i bambini in modo regolare
- Che i genitori rinforzino i bambini e si complimentino con loro
- Che non vi siano comportamenti di giudizio sulla parola balbettata

Il RESTART DCM è una metodologia di lavoro più ecologica, contestuale. Prevede di ridurre le richieste (la prestazionalità) motoria linguistica cognitiva ed emotiva sul bambino e di potenziarne le capacità se necessario anche lavorando sui facilitatori della fluenza. È un intervento che parte dal presupposto che:

- Esistono condizioni che favoriscono/ostacolano l'insorgenza/l'incremento della balbuzie al di là della componente genetica
- Queste condizioni sono determinate dal livello di richieste e/o dal livello di capacità del bambino in quel momento
- Richieste e capacità possono essere modulate e cambiate dall'intervento dei genitori e del logopedista

In entrambi i metodi l'intervento di guida del logopedista è indispensabile, il ruolo attivo dei genitori è sollecitato, il bambino viene "messo in condizione" di avere successo nella fluenza.

I risultati ottenuti, valutati dopo 18 mesi dal trattamento, sono stati i seguenti:

- Criterio di NON balbuzie era l'1,5 % delle sillabe balbettate
- Con il Lidcombe la percentuale di non balbuzienti era il 76,5%
- Con il Restart DCM la percentuale di non balbuzienti era il 71,4%

Attenzione: lo stesso articolo indicava in premessa che circa il 63% dei bambini va incontro ad una remissione spontanea entro 3 anni dai primi sintomi ma la probabilità di remissione diminuisce se la balbuzie persiste per più di 15 mesi.

Tornando al contenuto si osservava che tutti gli altri parametri erano sostanzialmente simili (attitudine, risposte emotive, internalizzazione, esternalizzazione, ecc.).



In una fase successiva alcuni autori hanno criticato l'assenza di un gruppo di controllo non trattato, così come la scelta di definire NON balbuziente se entro l' 1,5% di sillabe balbettate. Onslow non ha evitato di commentare che la ricerca si è svolta in Olanda dove molti logopedisti sono "più esperti" del Restart che non del Lidcombe.

Commento personale: il nostro lavoro sposta statisticamente circa il 10% dei bambini dal campo della balbuzie al campo della fluenza. Soprattutto il nostro lavoro evita a ben più del 10% dei bambini di passare anni con una difficoltà di comunicazione che può essere davvero pesante da sostenere.

Lidcombe prevede un alto livello di attenzione/partecipazione dei genitori che sono indipendenti nella somministrazione temporale del trattamento: è tipico della cultura australiana dove, da sempre, le famiglie si aiutano tra loro ed al loro interno. Non so quanto sia adatto al contesto italiano.

Restart DCM è ragionevolmente europeo, foniatico direi quasi. Il mio maestro O. Schindler mi diceva 2 cose:

1. La fluenza (fare in fretta e bene una cosa) è quanto di più facile a rompersi. Basta poco per balbettare, per non parlare bene
2. Nella balbuzie conta come fai le cose, quello che trasmetti al paziente, Conta come e non cosa.

Le ridicole percentuali di differenza tra i 2 metodi (per altro non così diversi nel COME) ne sono la conferma. Dai dati emerge comunque che la terapia precoce serve ed è indispensabile a mio parere. La terapia può essere indiretta, diretta sul bambino tramite un familiare, diretta sul bambino tramite il logopedista o con diverse mescolanze tra queste opzioni. L'importante è fare e fare presto e bene.

**Voce di Carolina Zanchi ed editing a cura di Beatrice Franchi.**

Ulteriori fonti:

Achenbach, T. M., & Rescorla, L. A. (2000). *Manual for the ASEBA preschool forms and profiles* (Vol. 30). Burlington, VT: University of Vermont, Research center for children, youth, & families.

Bergþórsdóttir, Í. Ö., & Ingham, R. J. (2017). Putting the cart before the horse: A cost effectiveness analysis of treatments for stuttering in young children requires evidence that the treatments analyzed were effective. *Journal of Communication Disorders*, 65, 65-67.

Clark, C. E., Conture, E. G., Walden, T. A., & Lambert, W. E. (2013). Speech sound articulation abilities of preschool-age children who stutter. *Journal of fluency disorders*, 38(4), 325-341.

Craig, A., Blumgart, E., & Tran, Y. (2009). The impact of stuttering on the quality of life in adults who stutter. *Journal of fluency disorders*, 34(2), 61-71.



de Sonnevile-Koedoot, C., Stolk, E., Rietveld, T., & Franken, M. C. (2017). Response to "Putting the cart before the horse: A cost effectiveness analysis of treatments for stuttering in young children requires evidence that the treatments analyzed were effective". *Journal of communication disorders*, 65, 68-69.

Ingham, R. J., & Cordes, A. K. (1998). Treatment decisions for young children who stutter: Further concerns and complexities. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 7(3), 10-19.

Jones, M., Onslow, M., Packman, A., O'Brian, S., Hearne, A., Williams, S., ... & Schwarz, I. (2008). Extended follow-up of a randomized controlled trial of the Lidcombe Program of Early Stuttering Intervention. *International Journal of Language & Communication Disorders*, 43(6), 649-661.

Månsson, H. (2000). Childhood stuttering: Incidence and development. *Journal of fluency disorders*, 25(1), 47-57.

Nye, C., Vanryckeghem, M., Schwartz, J. B., Herder, C., Turner III, H. M., & Howard, C. (2013). Behavioral stuttering interventions for children and adolescents: A systematic review and meta-analysis.

Onslow, M., Menzies, R. G., & Packman, A. (2001). An operant intervention for early stuttering: The development of the Lidcombe program. *Behavior modification*, 25(1), 116-139.

Onslow, M., & Lowe, R. (2019). After the RESTART trial: Six guidelines for clinical trials of early stuttering intervention. *International Journal of Language & Communication Disorders*, 54(4), 517-528.

Pertjjs, M.A.J., Oonk, L.C., Beer, de J.J.A., Bunschoten, E.M., Bast, E.J.E.G., Ormondt, van J., Rosenbrand, C.J.G.M., Bezemer, M., Wijngaarden, van L.J., Kalter, E.J., Veenendaal, van H. (2014). *Evidence-based Richtlijn Stotteren bij kinderen, adolescenten en volwassenen*. Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie, Woerden

Starkweather, C. W., & Gottwald, S. R. (1990). The demands and capacities model II: Clinical applications. *Journal of Fluency Disorders*, 15(3), 143-157.

Vanryckeghem, M., Brutten, G. J., & Hernandez, L. M. (2005). A comparative investigation of the speech-associated attitude of preschool and kindergarten children who do and do not stutter. *Journal of fluency disorders*, 30(4), 307-318.

Yairi, E., & Ambrose, N. G. (2005). Early childhood stuttering for clinicians by clinicians: Pro Ed.

#### The effective stuttering treatment project (EST):

<https://www.uv.uio.no/isp/english/research/projects/effective-stuttering-treatment-project/>

Questo testo è disponibile anche per essere ascoltato come podcast sulle più comuni piattaforme di streaming (Spotify, Apple Podcast, Google Podcast e Amazon Podcast) e sul sito [www.lingo-lab.de/podcastit](http://www.lingo-lab.de/podcastit). A questo indirizzo è possibile trovare anche altri studi riassunti sia in versione podcast che come PDF da scaricare.