

CRITICALLY APPRAISED TOPIC

TITLE

Critically Appraised Topic (CAT) ten behoeve van de effectiviteit van de behandeling van stotteren.

Zoutenbier, I. Sluijmers, J., Versteegde, L., Singer, I., & Gerrits, E. (2016). *Critically Appraised Topic (CAT) ten behoeve van de effectiviteit van de behandeling van stotteren*. Rapport voor NVLF van Lectoraat Logopedie Hogeschool Utrecht.

AUTHOR

Prepared by	Inge Zoutenbier	Date	Februari 2016
Email address	Inge.zoutenbier@hu.nl		
Review date	Voorjaar 2018		

CLINICAL SCENARIO

Stotteren is een stoornis in de vloeiendheid van het spreken. Kenmerkend voor stotteren zijn herhalingen en verlengingen van klanken en syllabes. Ook kunnen er gespannen pauzes of blokkades optreden die het ritme van de spraak verstoren. Dit gedrag is onvrijwillig en de persoon die stottert heeft het niet onder controle. Daarnaast bestaat er "secundair stottergedrag", dat ontstaat als reactie op stotteren (Pertijs et al., 2014). Ontwikkelingsstotteren is een veelvoorkomende stoornis. De cumulatieve incidentie van stotteren op driejarige leeftijd is 8,5% (Reilly et al., 2009) en 11,2% op vierjarige leeftijd (Reilly et al., 2013). Deze studies zijn de meest recente epidemiologische onderzoeken, maar geven ook een veel hoger percentage dan veel van de eerdere onderzoeken. Uit de review van Yairi & Ambrose (2013) blijkt dat de life-time incidentie van stotteren wereldwijd varieert van 5% tot 8%. Bij kinderen worden veel hogere waarden gerapporteerd van 17%. De prevalentie van stotteren wordt geschat op 0.72% tot 1% van de wereldbevolking. Aangezien stotteren vaak herstelt bij kinderen onder de zes jaar, is de prevalentie in deze jonge bevolkingsgroep groter dan bij een oudere populatie (Yairi & Ambrose, 2013).

De oorzaak van het stotteren is onbekend, maar recent onderzoek indiceert dat structurele (Beal et al., 2013; Chang et al., 2008; Chang et al., 2015) en functionele (Chang et al., 2013) hersenafwijkingen ten grondslag liggen aan de stoornis met een sterke genetische factor (Kraft & Yairi, 2011).

In het algemeen wordt aanbevolen om te starten met therapie voor de leeftijd van zes jaar (Reilly et al., 2013) en voordat het stotteren 15 maanden aanwezig is (Ingham & Cordes, 1998). Een groot deel van de kinderen die beginnen met stotteren herstelt spontaan zonder een formele interventie (50 tot 85%) (Yairi & Ambrose, 2013). De kans op herstel kan niet worden voorspeld voor een individu. Naarmate het stotteren langer aanwezig is neemt de kans op spontaan herstel af. De kans op terugval bij kinderen die behandeling hebben gevolgd na het zesde levensjaar of later lijkt groter dan bij kinderen die voor hun zesde jaar zijn behandeld (Lincoln et al., 1996; Koushik et al., 2009). Op latere leeftijd kan stotteren hardnekkig zijn en lastig te behandelen. Er zijn aanwijzingen uit klinische studies dat vroegtijdige interventies de kans op herstel van het stotteren vergroten (Pertijs et al., 2014).

Logopedisten en logopedist-stottertherapeuten zijn degenen die personen die stotteren meestal behandelen. Voor de therapie van jonge kinderen tot zes jaar worden verschillende behandelmethoden gehanteerd. In Nederland wordt de meest gebruikte behandeling op dit moment gegeven volgens het Verwachtingen en Mogelijkheden model (Demands and Capacities Model, DCM). Een ander programma dat bij jonge stotterende kinderen wordt ingezet is het Lidcombe Programma. Naast deze methodes zijn er nog enkele andere manieren van werken. De ouders en directe omgeving van het kind vervullen een actieve rol bij de behandeling volgens DCM en het Lidcombe Programma. Bij de behandeling van jonge kinderen wordt altijd afgewogen of er een grote kans is op spontaan herstel. In dat geval wordt de ontwikkeling van het stotteren gemonitord (Pertijs et al., 2014). Bij oudere kinderen wordt er, afhankelijk van de hulpvraag en de uitkomst van het diagnostisch onderzoek, gewerkt aan het versterken van de vloeiende spraak en het verminderen of elimineren van het secundair stottergedrag, inclusief de emoties en cognities. Hiervoor worden diverse therapeutische middelen en oefenprogramma's ingezet (Pertijs et al., 2014). In Nederland wordt bij de behandeling van volwassenen en adolescenten die stotteren over het algemeen gebruik gemaakt van een geïntegreerde werkwijze, waarbij aspecten uit zowel de stottermodificatie als de fluency shaping methoden worden gebruikt, aangepast aan de behoeften van de individuele cliënt. Therapie wordt zowel individueel als in groepen aangeboden. Aangezien er na therapie regelmatig terugval kan optreden wordt een nazorg traject aanbevolen (Pertijs et al., 2014).

De beroepsvereniging van de logopedisten, de NVLF, vindt het belangrijk dat de logopedisten hun beslissingen baseren op de wetenschappelijke evidentie, hun klinische expertise, en de wens van de cliënt. Een hulpmiddel daarbij is een 'evidence summary' bestaande uit enkele pagina's waarop de wetenschappelijke evidentie op een eenvoudige manier is samengevat.

Deze CAT heeft als doel een 'evidence summary' over de effectiviteit van stottertherapie te onderbouwen.

Referenties:

- Beal, D.S., Gracco, V.L., Brettschneider, J., Kroll, R.M., & De Nil, L.F. (2013). A voxel-based morphometry (VBM) analysis of regional grey and white matter volume abnormalities within the speech production network of children who stutter. *Cortex*, 49(8), 2151–2161.
- Chang, S.E., Erickson, K.I., Ambrose, N.G., Hasegawa-Johnson, M.A., & Ludlow, C.L. (2008). Brain anatomy differences in childhood stuttering. *NeuroImage*, 39(3), 1333–1344.
- Chang, S.E., & Zhu, D.C. (2013). Neural network connectivity differences in children who stutter. *Brain : A Journal of Neurology*, 136(Pt 12), 3709–26.
- Chang, S.E., Zhu, D.C., Choo, A.L., & Angstadt, M. (2015). White matter neuroanatomical differences in young children who stutter. *Brain*, 138, 694–711.
- Ingham, R.J., & Cordes, A.K. (1998). Treatment decisions for young children who stutter: further concerns and complexities. *American Journal of Speech- Language Pathology*, 7, 10-19.
- Koushik, S., Hewat, S., Shenker, R.C., Jones, M., & Onslow, M. (2011). North-American Lidcombe Program file audit; Replication and meta-analysis. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 13(4), 301-307.
- Kraft, S.J., & Yairi, E. (2011). Genetic bases of stuttering: The state of the art, 2011. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 64(1), 34–47.
- Lincoln, M., Onslow, M., Lewis, C., & Wilson, L.A. (1996). A clinical trial of operant treatment for school-age children who stutter. *American Journal Speech Language Pathology*, 5, 73-85.
- Pertjys, M.A.J., Oonk, L.C., Beer, de J.J.A., Bunschoten, E.M., Bast, E.J.E.G., Ormondt van J., ... Veenendaal, van H. (2014). Evidence-based richtlijn stotteren bij kinderen, adolescenten en volwassenen. *Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie*, Woerden.
- Reilly, S., Onslow, M., Packman, A., Wake, M., Bavin, E.L., Prior, M., ... Ukoumunne, O.C. (2009). Predicting Stuttering Onset by the Age of 3 Years: A Prospective, Community Cohort Study. *Pediatrics*, 123(1), 270-277.
- Reilly, S., Onslow, M., Packman, A., Cini, E., Conway, L., Ukoumunne, O.C., ... Wake, M. (2013). Natural history of stuttering to 4 years of age: a prospective community-based study. *Pediatrics*, 132(3), 460-7.
- Yairi, E., & Ambrose, N. (2013). Epidemiology of stuttering: 21st century advances. *Journal of Fluency Disorders*, 38(2), 66-87.

FOCUSSED CLINICAL QUESTION

Wat is het effect van de behandeling van ontwikkelingsstotteren bij kinderen, adolescenten en volwassenen?

SUMMARY OF SEARCH

[Best evidence appraised and key findings]

Medline, Embase, CINAHL, The Cochrane Library, Google Scholar, Speechbite en ASHA zijn doorzocht op studies naar de effectiviteit van therapieën voor ontwikkelingsstotteren bij kinderen, adolescenten en volwassenen.

Een Nederlandse richtlijn, een systematic review en een RCT zijn geïnccludeerd.

Best Evidence en Key Findings:

- Het Lidcombe Programma werkt goed bij de behandeling van kinderen jonger dan zes jaar. De behandeling vermindert het hoorbare stotteren.
- Het Lidcombe Programma en therapie op basis van het Verwachtingen en Mogelijkheden model werken even goed na 1,5 jaar bij kinderen jonger dan zes jaar. Dit geldt voor het hoorbare stotteren en bijkomend gedrag.

CLINICAL BOTTOM LINE

Effectiviteit van stottertherapieën bij kinderen met stotteren tot zes jaar:

In vergelijking met andere stottertherapieën, is er relatief veel onderzoek van goede kwaliteit verricht naar de effectiviteit van het Lidcombe Programma. Uit deze studies blijkt dat behandeling van stotterende kinderen tot 6 jaar met het Lidcombe Programma op korte en middellange termijn (3 tot 9 maanden) effectiever is in het verminderen van het percentage gestotterde lettergrepen dan wanneer het stotteren niet wordt behandeld (Nye et al., 2013 in Sonnevile-Koedoot et al., 2015). Woods et al. (2002), Onslow et al. (2002) & Bonelli et al. (2000) via Pertijs et al. (2014) vonden geen nadelige effecten van het Lidcombe Programma op het kind of de ouders. De Sonnevile-Koedoot et al. (2015) tonen aan dat behandeling met het Lidcombe Programma en behandeling gebaseerd op het 'Verwachtingen en Mogelijkheden model' (RESTART (the Rotterdam Evaluation Study of Stuttering Therapy in preschool children – a Randomized Trial)-DCM) even effectief zijn. Achttien maanden na aanvang van de behandeling is geen verschil in effectiviteit tussen de twee interventies gevonden. Behandeling met het Lidcombe Programma zorgt wel voor een significant snellere reductie van het percentage gestotterde lettergrepen gedurende de eerste drie maanden ten opzichte van het DCM model. Ook is er geen relevant verschil gevonden 18 maanden na aanvang van de behandeling op de ernstbepaling door ouders en therapeut, ernstbepaling door het kind, kwaliteit van leven, emotionele en gedragsproblemen en de houding t.a.v. het spreken. Omdat deze studie een vergelijkend onderzoek zonder onbehandelde controlegroep betreft, kan geen uitspraak worden gedaan over de effectiviteit van de behandelingen. De Sonnevile-Koedoot et al. vonden evenmin nadelige effecten van de behandeling (De Sonnevile-Koedoot et al., 2015). Bij de keuze voor een behandeling moeten ouders worden betrokken.

Effectiviteit van stottertherapieën bij kinderen met stotteren van 6 tot 13 jaar:

Het aantal studies naar het effect van de behandeling van kinderen die stotteren in de leeftijd tussen 6 en 13 jaar is beperkt en de kwaliteit voor het bewijs van het effect is overwegend zeer laag (Pertijs et al., 2014). Volgens de studie van Craig et al. (1996) in Baxter (2015) en Hancock et al. (1998) in Baxter (2015), hebben Electromyografische feedback, Intensive Smooth Speech en Smooth Speech home een positief effect op de stotterfrequentie direct na de interventie en op lange termijn, variërend van 2 tot 14 jaar na de interventie.

Effectiviteit van stottertherapieën bij adolescenten en volwassenen:

Zeer verschillende typen interventies bleken effectief in de behandeling van adolescenten en volwassenen: interventies gericht op feedback en technologie, gedragstherapie, spraakmotorische interventies al dan niet in combinatie met cognitieve therapie en interventies bestaande uit meerdere componenten (Baxter, 2015). Echter, de kwaliteit van het meeste bewijs is laag waardoor de resultaten mogelijk een vertekend beeld van de werkelijkheid geven.

Geen enkele onderzochte behandeling van volwassenen en adolescenten kan garanderen dat op de langere termijn een normaal vloeiende spraak kan worden bereikt (Pertijs et al., 2014). Bij stotterende personen die ouder zijn dan zes jaar wordt veel individuele variatie waargenomen in reactie op interventies gericht op de behandeling van stotteren (Baxter, 2015). Dit impliceert dat niet iedere interventie voor iedereen succesvol is. Er kan geen uitspraak worden gedaan omtrent de meest effectieve behandelintensiteit omdat de behandeluren tussen personen die dezelfde interventie verkregen te veel varieerden (Baxter, 2015).

Important note on the limitation of this CAT

This critically appraised paper (or topic) has been peer-reviewed by one other independent person/lecturer:

Dr. Marie-Christine Franken, Mark Pertijs MSc

SEARCH STRATEGY

Terms used to guide the search strategy

- **P**atiënt/Client Group: personen met ontwikkelingsstotteren
- **I**ntervention: therapie gericht op de behandeling van stotteren

Terms used to guide the search strategy

- **C**omparison: geen therapie of een andere stottertherapie
- **O**utcome (primair): percentage gestotterde lettergrepen (%SS)¹

¹ Het percentage gestotterde lettergrepen is gebruikt tijdens de search, omdat dit een objectieve uitkomstmaat is en in de meeste interventiestudies van stotteren als (primaire) uitkomstmaat is gerapporteerd. Echter, meer uitkomstmaten zijn relevant. De secundaire uitkomstmaten van de CAT zijn: kwaliteit van leven, vermijdingsgedrag, participatie en natuurlijkheid van spreken. Binnen de geïncludeerde studies van deze CAT worden deze uitkomstmaten ook meegenomen, mits deze bekeken en aanwezig zijn en alleen op basis van kwalitatief goed onderzoek.

Databases and Sites Searched	Search Terms ²	Limits Used
Medline (Clinical Queries) (08-10-15) Embase (14-10-15) CINAHL (18-11-15)	stuttering; stammering; fluency; clutter; cluttering; therapeutics; treatment outcome; therap*; intervention*; treatment; efficacy; effectiveness	Engelse en Nederlandse full-text artikelen gepubliceerd tussen 1985-2015.
The Cochrane Library (08-07-15)	Stuttering	
Google Scholar (12-11-15)	stotteren; spraakstoornis; onvloeiendheden; behandeling; logopedie; therapie; interventie; effect; effectiviteit; spraaktherapie	
Speechbite (10-01-16)	Stuttering	
ASHA (10-01-16)	Stuttering	Alleen richtlijnen

² De zoekstrategie in Medline, Embase & CINAHL is tot stand gekomen m.b.v. een informatiespecialist. De precieze zoekstrategie per database is opvraagbaar bij de NVLF.

INCLUSION and EXCLUSION CRITERIA

Inclusion Criteria
* personen met ontwikkelingsstotteren (alle leeftijden, alle ernstgradaties) * alle niet-farmaceutische interventiestudies * de uitkomstmaat is het percentage gestotterde lettergrepen
Exclusion Criteria
-

RESULTS OF SEARCH

A total of 8 relevant studies were located and categorised as shown in Table 1 (based on levels of Evidence, Centre for Evidence Based Medicine, 2011)

Table 1: Summary of Study Designs of Articles Retrieved (dikgedrukte auteurs zijn geïncludeerd)

Study Design/Methodology of Articles Retrieved	Level	Number Located	Author (Year)
Evidence Based Richtlijnen ²	1A	4	Pertijs et al. (2014) CASLPO (2014) Royal college (2005) ASHA (1995)
SR (met homogeniteit) van RCTs	1B	1	Baxter et al. (2015)³
RCT (met smal Confidence Interval)	1C	1	De Sonnevile-Koedoot et al. (2015)
SR (met homogeniteit) van cohort studies	2A		
Individuele cohort studie (inclusief RCT van lage kwaliteit)	2B	1	Ingham et al. (2015)
SR (met homogeniteit) van case-control studies	3A		
Individuele Case-Control Studie	3B		
Case-series (en cohort studies van slechte kwaliteit and case-control studies)	4	1	Carey et al. (2014)
Mening van experts (zonder expliciete critical appraisal, of gebaseerd op fysiologie, bench research of "first principles")	5		

² Studies die gevonden zijn met de "search" maar ook zijn meegenomen in het systematic review staan in de referentielijst vermeld maar zijn niet ook apart in dit schema opgenomen.

³ In deze systematic review zijn verschillende study designs meegenomen waaronder ook RCT's.

BEST EVIDENCE

Hieronder volgt een opsomming van de studies met het beste bewijs die geselecteerd zijn voor critical appraisal.

Table 2. Critical appraisal meta-analysis and systematic reviews

Beoordeling systematische reviews cochrane-lijst	Baxter et al. (2015)
Is de vraagstelling adequaat geformuleerd?	+
Is de zoekactie adequaat uitgevoerd?	+/- (er worden geen precieze zoektermen gegeven, de zoekstrategie is beschikbaar bij de auteurs indien vereist).
Is de selectieprocedure van artikelen adequaat uitgevoerd?	++ (onafhankelijk gedaan door twee reviewers, flow-chart aanwezig).
Is de kwaliteitsbeoordeling adequaat uitgevoerd?	+/- (m.b.v. Cochrane beoordelingslijsten & aangepaste versies, binnen het onderzoeksteam werd consensus bereikt over de beoordeling, niet bekend hoeveel

Beoordeling systematische reviews cochrane-lijst	Baxter et al. (2015)
Is adequaat beschreven hoe data-extractie heeft plaatsgevonden?	onderzoekers onafhankelijk van elkaar de studies beoordeelden).
Zijn de belangrijkste kenmerken van de oorspronkelijke onderzoeken beschreven?	+ (uitgevoerd door één lid van het onderzoeksteam en gecontroleerd door een ander lid).
Is meta-analyse op een correcte manier uitgevoerd?	+ (de tabellen en tekst bevatten de belangrijke kenmerken van de studies, gegevens zijn niet overzichtelijk weergegeven in één tabel)
	n.v.t. (vanwege heterogeniteit studies)

Table 3. Critical appraisal other study designs

Beoordeling overige artikelen	De Sonnevile-Koedoot et al. (2015)	
Doel van de studie		
	helder	+
Literatuur		
	achtergrond geschetst	+
Design		
	randomized (RCT)	X (zonder controle groep)
Sample		
	N =	199
	gedetailleerd beschreven	+
	grootte verantwoord	+ (middels power-analyse)
Uitkomsten		
	maten betrouwbaar	+
	maten valide	+
Interventie		
	gedetailleerd beschreven	+
	contaminatie vermeden	n.v.t.
	co-interventie vermeden	- (vanwege beperking externe validiteit)
Resultaten		
	statistische significantie	+
	geschikte analyse methode	+
	klinische relevantie gerapporteerd	-
Drop-outs		
	beschreven	+ (n=21, 11% drop- out rate)
Conclusies en implicaties		
	beschreven	+

17 studies zijn geïncorporeerd in de Nederlandstalige evidence based richtlijn stotteren bij kinderen, adolescenten en volwassenen (Pertijs et al., 2014). Deze richtlijn dient als uitgangspunt van het handelen van Nederlandse logopedisten en vormt de basis van de Evidence Summary. De in de richtlijn geïncorporeerde studies worden daarom niet nogmaals in deze CAT beoordeeld.

Vijf artikelen (Andrews et al., 2012; Femrell et al., 2012; O'Brian et al., 2008; Blomgren et al., 2005; Van Borsel et al., 2003) zijn niet in de richtlijn stotteren meegenomen maar wel in het later verschenen systematisch literatuuronderzoek van Baxter et al. (2015). Drie internationale richtlijnen (ASHA, 1995; CASPLO, 2014; Royal College, 2005) zijn geëxcludeerd, omdat deze niet van Nederlandse bodem zijn en daardoor minder te betrekken zijn op de Nederlandse situatie, daarnaast zijn twee van de drie richtlijnen verouderd. De studies van de Sonnevile-Koedoot et al. (2015), Ingham et al. (2015) en van Carey et al. (2014) zijn

niet meegenomen in de richtlijn en ook niet in het systematisch literatuuronderzoek. De Randomized Trial van de Sonnevile-Koedoot et al. (2015) is meegenomen in deze CAT vanwege de hoge methodologische kwaliteit en is daarnaast ook van Nederlandse bodem, de andere twee studies (Ingham et al. (2015); Carey et al. (2014)) zijn geëxcludeerd vanwege de lage evidentie ten gevolge van de zwakke studie designs.

Geïnccludeerde bronnen:

Baxter, S., Johnson, M., Blank, L., Cantrell, A., Brumfitt, S., Enderby, P., & Goyder, E. (2015). The state of the art in non-pharmacological interventions for developmental stuttering. Part 1: a systematic review of effectiveness. *International Journal of Language & Communication Disorders*, 50(5), 676–718.

Pertijns, M.A.J., Oonk, L.C., Beer, de J.J.A., Bunschoten, E.M., Bast, E.J.E.G., Ormondt van J., ... Veenendaal, van H. (2014). Evidence-based richtlijn stotteren bij kinderen, adolescenten en volwassenen. *Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie*, Woerden.

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), 1-17.

Geëxcludeerde bronnen:

Andrews, C., O'Brian, S., Harrison, E., Onslow, M., Packman, A., & Menzies, R. (2012). Syllable-Timed Speech Treatment for School-Age Children Who Stutter: A Phase I Trial. *Language, Speech, and Hearing Services in Schools*, 43(3), 359–369.

American Speech-Language-Hearing Association. (1995). Guidelines for practice in stuttering treatment [guidelines]. Verkregen op 10 januari 2016 via, www.asha.org/policy.

Blomgren, M., Roy, N., Callister, T., & Merrill, R.M. (2005). Intensive stuttering modification therapy : A multidimensional assessment of treatment outcomes. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 48(June), 509–523.

Van Borsel, J., Reunes, G., & Van den Bergh, N. (2003). Delayed auditory feedback in the treatment of stuttering: clients as consumers. *International Journal of Language & Communication Disorders / Royal College of Speech & Language Therapists*, 38(2), 119–29.

Bothe, A. K., Davidow, J. H., Bramlett, R. E., & Ingham, R. J. (2006). Stuttering treatment research 1970-2005: I. Systematic Review Incorporating Trial Quality Assessment of Behavioral, Cognitive, and Related Approaches, 15(November), 321–342.

Carey, B., O'Brian, S., Onslow, M., Block, S., Jones, M., & Packman, A. (2010). Randomized controlled non-inferiority trial of a telehealth treatment for chronic stuttering: The Camperdown Program. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 45(1), 108–120.

Carey, B., O'Brian, S., Lowe, R., & Onslow, M. (2014). Webcam delivery of the camperdown program for adolescents who stutter: a phase II trial. *Language, Speech, and Hearing Services in Schools*, 45(october), 314-324.

College of Audiologists and Speech-Language Pathologists of Ontario - CASLPO. (2014). Practice standards and guidelines for developmental stuttering, Ontario. Craig, A., Hancock, K., Chang, E., McCready, C., Shepley, A., McCaul, A., ... Reilly, K. (1996). A controlled clinical trial for stuttering in persons aged 9 to 14 years. *Journal of Speech, Language and Hearing Research*, 39(4), 808–826.

Cream, A., Brian, S.O., Jones, M., Block, S., Harrison, E., Lincoln, M., & Hewat, S. (2010). Self-Modeling Following Speech Restructuring Treatment for Stuttering. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 53(August), 887–898.

Femrell, L., Avall, M., & Lindstrom, E. (2012). Two-year follow-up of the lidcombe program in ten Swedish-speaking children. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 64(5), 248–253.

Franken, M.C.J., Kielstra-Van Der Schalk, C.J., & Boelens, H. (2005). Experimental treatment of early stuttering: A preliminary study. *Journal of Fluency Disorders*, 30(3), 189–199.

- Hancock, K., Craig, A., McCready, C., McCaul, A., Costello, D., Campbell, K., & Gilmore, G. (1998). Two- to six-year controlled-trial stuttering outcomes for children and adolescents. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 41(December), 1242-1252
- Harris, V., Onslow, M., Packman, A., Harrison, E. & Menzies, R. (2002). An experimental investigation of the impact of the Lidcombe. *Journal of Fluency Disorders*, 27(3), 203–213.
- Harrison, E., Onslow, M., & Menzies, R. (2004). Dismantling the Lidcombe Program of early stuttering intervention: verbal contingencies for stuttering and clinical measurement. *International Journal of Language & Communication Disorders / Royal College of Speech & Language Therapists*, 39(2), 257–67.
- Herder, C., Howard, C., Nye, C., & Vanryckeghem, M. (2006). Effectiveness of behavioral stuttering treatment: a systematic review and meta-analysis. *Contemporary Issues in Communication Science and Disorders*, 33, 61-73.
- Ingham, R.J., Ingham, J.C., Bothe, A.K., Wang, Y., & Kilgo, M. (2015). Efficacy of the modifying phonation intervals (MPI) stuttering treatment program with adults who stutter. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 24 (may), 256-271.
- Jones, M., Onslow, M., Packman, A., Williams, S., Ormond, T., Schwarz, I., & GebSKI, V. (2005). Randomised controlled trial of the Lidcombe programme of early stuttering intervention. *Bmj*, 331(7518), 659.
- 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), 649–61.
- Lattermann, C., Euler, H.A., & Neumann, K. (2008). A randomized control trial to investigate the impact of the Lidcombe Program on early stuttering in German-speaking preschoolers. *Journal of Fluency Disorders*, 33(1), 52–65.
- Lewis, C., Packman, A., Onslow, M., Simpson, J.M., & Jones, M. (2008). A phase II trial of telehealth delivery of the Lidcombe. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 17(2), 139–149.
- Menzies, R.G., O'Brian, S., Onslow, M., Packman, A., Clare, T., & Block, S. (2015). An experimental clinical trial of a Cognitive-Behavior Therapy Package for Chronic Stuttering. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 51(December 2008), 1451–1464.
- Nye, C., Vanryckeghem, M., Schwartz, J.B., Herder, C., Turner, H.M., & Howard, C. (2013). Behavioral Stuttering Interventions for Children and Adolescents: A Systematic Review and Meta-Analysis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 56(June), 921–932.
- O'Brian, S., Packman, A., & Onslow, M. (2008). Telehealth delivery of the Camperdown Program for adults who stutter: a phase I trial. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 51(1), 184–95.
- Onslow, M., Andrews, C., & Lincoln, M. (1994). A control/experimental trial of an operant treatment for early stuttering. *Journal of Speech and Hearing Research*, 37(6), 1244–59.
- Royal College of Speech & Language Therapists (2005). Clinical Guidelines, United Kingdom.
- Riley, G.D., & Ingham, J.C. (2000). Acoustic duration changes associated with two types of treatment for children who stutter. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 43(4), 965-78 .

SUMMARY OF BEST EVIDENCE

Table 4. 1/3a: Description and appraisal of:

Evidence-based richtlijn stotteren bij kinderen, adolescenten en volwassenen, Pertijs, 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)

<p>Aim/Objective of the guideline:</p> <p>De Evidence Based Richtlijn Ontwikkelingsstotteren bij kinderen, adolescenten en volwassenen beoogt de kwaliteit en doelmatigheid van de geleverde zorg door logopedisten en logopedist-stottertherapeuten aan personen die stotteren en hun omgeving te verbeteren. De richtlijn doet duidelijke uitspraken over optimale logopedische zorg aan personen die stotteren op het gebied van diagnostiek, behandeling, doorverwijzing en nazorg, waarbij rekening is gehouden met de stand van zaken van de wetenschappelijke literatuur en inzichten binnen de beroepsgroep anno 2013. Verder beoogt de richtlijn de kennis over stotteren van logopedisten, logopedist-stottertherapeuten, artsen, onderwijsinstellingen en personen die stotteren en hun ouders te vergroten.</p>
<p>Study Design</p> <p>Dit artikel betreft een klinisch monodisciplinair logopedische richtlijn.</p>
<p>Zoekstrategie:</p> <p>Artikelen werden gezocht door het verrichten van systematische zoekacties in relevante databases zoals de Cochrane Library, Medline, Embase, Psychinfo en Cinahl. Bij elke uitgangsvraag hoort een aparte zoekstrategie. De volledige zoekstrategie was opvraagbaar bij het CBO. In bijlage 5 van de richtlijn zijn twee zoekacties in Medline uitgewerkt. Er is gezocht naar artikelen die gepubliceerd zijn vanaf 1995. Er zijn ook publicaties meegenomen uit de archieven van de werkgroepleden, mits zij aan de inclusiecriteria voldeden.</p> <p>Methode:</p> <p>Op basis van een knelpuntenanalyse zijn er conceptuitgangsvragen geformuleerd die vervolgens zijn beoordeeld door de werkgroep. De definitieve uitgangsvragen die zijn ontstaan na verwerking van het commentaar van de werkgroep vormen de basis voor de verschillende hoofdstukken in de richtlijn.</p> <p>De wetenschappelijke onderbouwingen zijn geschreven door methodologen. De conclusies uit de literatuur vormden de basis voor het opstellen van de aanbevelingen. De aanbevelingen zijn tot stand gekomen op basis van (informele) consensus binnen de werkgroep. Voor een beperkt aantal uitgangsvragen hebben de werkgroepleden een tekst geschreven die niet werd gebaseerd op resultaten van systematisch literatuuronderzoek omdat op voorhand duidelijk was dat hiervoor niet of nauwelijks wetenschappelijk bewijs aanwezig was. De betrokken beroeps- en patiëntenverenigingen hebben feedback gegeven op de conceptrichtlijn.</p> <p>Artikelen die betrekking hadden op therapeutische interventies werden beoordeeld op kwaliteit van het onderzoek en geclassificeerd naar mate van bewijs. De kwaliteit van bewijs werd beoordeeld met GRADE (Guyatt, 2008). De mate van zekerheid ten aanzien van de effectgrootte voor een uitkomstmaat werd beoordeeld als groot, matig, gering of zeer gering afhankelijk van de kwaliteit van het onderzoek.</p> <p>Resultaten:</p> <p>Het Lidcombe programma is een effectieve methode gebleken voor kinderen die stotteren tot zes jaar. Er zijn geen verschillen in effectiviteit aangetoond tussen het Lidcombe Programma en het Verwachtingen en Mogelijkheden model. Het is niet bekend of stottertherapieën voor kinderen in de leeftijd van 6 tot 13 jaar en adolescenten en volwassenen effectief zijn omdat er alleen studies van methodologisch lage kwaliteit beschikbaar zijn.</p>
<p>Setting</p> <p>Verschilt per geïnccludeerde studie.</p>
<p>Participants</p> <p>De richtlijn geeft aanbevelingen over diagnostiek, behandeling, nazorg, samenwerking van zorgverleners en begeleiding van kinderen, adolescenten en volwassenen, met stotteren. De richtlijn is uitsluitend gericht op het ontwikkelingsstotteren.</p>
<p>Interventions Investigated</p> <p>Kinderen met stotteren tot zes jaar:</p> <ul style="list-style-type: none"> - Lidcombe Programma (LP) - Verwachtingen en Mogelijkheden Model /Demands and Capacities Model (RESTART-DCM) - Speech Motor training (SMT) - Sociaal cognitieve gedragstherapie (SCG)

Kinderen met stotteren in de leeftijd van 6 tot 13 jaar:

- Ademregulatie
- Modificatie
- Delayed Auditory Feedback (DAF)
- Time Out
- Gradual Increase in Linguistic Complexity of Utterance (GILCU)
- Electromyography Feedback (EMG)
- Intensive Smooth Speech
- Speech Motor Training (SMT)
- Extended Length of Utterance (ELU)
- Sociaal cognitieve gedragstherapie (SCG)

Adolescenten en volwassenen met stotteren:

- Fluency shaping therapie
- prolonged/smooth speech
- Regulated breathing and airflow
- Alexander techniek
- Cognitieve en/of gedragsinterventies
- Farmacotherapie

Outcome Measures

- Stotterpercentage
- Stotterernst
- Vermijdingsgedrag (secundair gedrag)
- Participatie
- Kwaliteit van leven
- Natuurlijkheid van het spreken

Main Findings (m.b.t. de effectiviteit van behandeling)

Wat zijn de effecten van stottertherapieën bij kinderen met stotteren tot zes jaar?

In een meta-analyse van Nye et al. (2013), zijn drie studies (randomised controlled trials) opgenomen waarin een experimentele groep, behandeld met het Lidcombe Programma, werd vergeleken met een controlegroep. De gecombineerde effectgrootte bedraagt 0.97 (95% Betrouwbaarheidsinterval: 0.58 – 1.30, $p < .000$). Deze waarde kan als een groot effect worden beschouwd.

Studie	Statistische gegevens per studie					
	Interventie <i>n</i>	Controle <i>n</i>	Hedges' <i>g</i>	Ondergrens BI	Bovengrens BI	<i>P</i> waarde
Harris et al. (2002)	10	13	0.67	-0.23	1.56	.144
Jones et al. (2005)	27	20	0.94	0.34	1.54	.002
Latterman et al. (2008)	23	22	1.51	0.53	1.77	.000
Totaal effect			0.97	0.58	1.30	.000

In de tweede meta-analyse zijn vier randomised controlled trials waarin participanten werden toegewezen aan twee verschillende interventies met elkaar vergeleken, zonder vergelijking met een onbehandelde controlegroep. Er was geen significant verschil ($p > .05$) in de effectiviteit van de vergeleken interventies, gemeten direct na de interventie en eventuele follow-up. Het totaal gemiddeld effect varieert van -1.08 tot 0.30. Er kon geen gecombineerde effectgrootte gegeven worden omdat de studies verschillende interventies met elkaar vergeleken.

Studie	Interventie	Uitkomstmaten	Hedges' <i>g</i>	Ondergrens BI	Bovengrens BI	Interv ¹ .1 <i>n</i>	Interv.2 <i>n</i>
Ryan & Ryan (1995)	DAF vs. GILCU	SWM ²	0.30	-0.80	1.39	11	9
Riley & Ingham (2000)	SMT vs. ELU	%SS ³	-1.08	-2.21	0.05	6	6
Harrison et al. (2005)	LP	%SS	-0.14	-1.01	0.73	9-10	9-10

Franken et al. (2005)	LP vs. DCM	%SS	-0.28	-1.07	0.52	11	12
-----------------------	------------	-----	-------	-------	------	----	----

¹interventie; ²stuttered words per minute; ³percentage syllables stuttered

Wat zijn de effecten van stottertherapieën bij kinderen in de leeftijd van 6 tot 13 jaar?

Studie	Statistische gegevens per studie					
	Interventie <i>n</i>	Controle <i>n</i>	Hedges' <i>g</i>	Ondergrens BI	Bovengrens BI	<i>P</i> waarde
Craig et al. (1996)	26	20	1.75	1.05	2.45	.000

In de quasi-experimentele studie van Craig et al. (1996) wordt de effectiviteit van Electromyografische feedback, Intensive Smooth Speech en Smooth Speech Home vergeleken met een niet behandelde controlegroep op het gebied van percentage gestotterde lettergrepen en het aantal gesproken woorden per minuut bij kinderen die stotteren tussen 9 en 14 jaar oud. Het in de systematische review van Nye et al. (2013) berekende effect van de studie van Craig et al. (1996) bedraagt $g=1.75$ (95% BI: 1.05-2.45). Het gevonden effect zowel voor EMG, $g = 1.62$, als voor ISS, $g = 2.58$ kan als groot worden beschouwd. Twaalf en 52 weken na interventie werd geen statistisch verschil ($p > .05$) aangetoond in het percentage gestotterde lettergrepen en het aantal gesproken lettergrepen per minuut voor één van de interventies.

In de studie van Boey (2003) is gekeken naar het effect van de Sociaal Cognitieve Gedragstherapie. Het was een interventiestudie met een voor- en nameting, maar zonder controlegroep. Boey (2008) concludeert dat 32% van de therapiegroep bij follow-up nog als stotterend wordt gediagnosticeerd en 55% nog meldt te stotteren. Van de diagnosegroep stotterden 73% niet meer, na correctie voor mogelijk spontaan herstel. Van de drop-outgroep stottert 68% nog tijdens follow-up en meldt 79% nog te stotteren. Boey (2008) concludeert dat stotterernst post therapie onafhankelijk van de initiële stotterernst kan verminderen.

Wat zijn de effecten van stottertherapieën bij adolescenten en volwassenen?

De meta-analyse van Herder et al. (2006) laat zien dat ademtherapie en "response contingent reinforcement" direct na behandeling effectief zijn voor de uitkomstmaat percentage gestotterde lettergrepen. Er wordt in vergelijking met geen behandeling een effectgrootte van 0.91 gerapporteerd, ruim meer dan de drempelwaarde van 0.5 om van een relevant effect te spreken. Er lijkt op grond van vier geïnccludeerde studies geen (groot) verschil in effectgrootte tussen verschillende stottertherapieën te bestaan.

In het literatuuroverzicht van Bothe et al. (2006) komen therapieën waarin wordt geleerd "uitgerekt" te spreken, als effectieve therapieën naar voren. De reductie in stotterfrequentie varieert van 48 tot 81% in therapieën gebaseerd op het leren van "uitgerekt" spreken.

In de studie van Carey et al. (2010) wordt een telehealth versie van het Camperdown programma geëvalueerd. Dit is een programma voor herstructurering van de spraak met aandacht voor ademen, fonatie en articulatie. Uitkomst van deze studie is dat de telehealth versie mogelijk niet minder effectief is dan de face-to-face versie van dit programma.

Het toevoegen van cognitieve gedragstherapie aan een therapie gericht op herstructurering van de spraak lijkt angst, vermijdingsgedrag en problematische gedachten en opvattingen over stotteren te verminderen, maar heeft geen invloed op de stotterernst (Menzies et al., 2008).

Video zelf-modellering, door onderzoekers omschreven als 'a behavioral intervention during which people view video images of themselves free of a problem target behavior' lijkt als aanvulling op een therapie gericht op herstructurering van de spraak de stotterernst niet te verminderen. Op de kwaliteit van leven heeft video zelf-modellering misschien een gunstig effect (Cream et al., 2010).

Self-imposed time-out (het aanleren van het even pauzeren na een moment van stotteren) lijkt als therapie minder effectief dan therapie gebaseerd op herstructurering van de spraak (Hewat et al., 2006). In de onderzoeken naar delayed auditory feedback (Lincoln et al., 2010; Ingham & Andrews, 1973) komt geen statistisch significant verschil in stotterpercentage tussen de experimentele- en controlegroep naar voren.

Volgens de studie van Huinck en Peters (2004) lijkt het "Comprehensive stuttering program" het meest effectief in termen van reductie van de stotterfrequentie en het verbeteren van de emotionele, sociale en cognitieve factoren, gemeten met gestandaardiseerde, zelf ingevulde vragenlijsten, gevolgd door de "individuele stottertherapie" en daarna de "Doetinchemse methode".

Original Authors' Conclusions

De studies die besproken worden in de richtlijn maar waarvan de kwaliteit van het onderzoek door de werkgroepleden als "zeer gering" is beoordeeld, worden niet meegenomen in de verdere uitwerking van deze CAT, omdat er weinig waarde aan het resultaat gehecht kan worden.

Effectiviteit van stottertherapieën bij kinderen die stotteren tot zes jaar:

Behandeling van stotterende kinderen tot 6 jaar met het Lidcombe Programma is op korte en middellange termijn (3 tot 9 maanden) effectiever in het verminderen van het percentage gestotterde lettergrepen dan wanneer het stotteren niet wordt behandeld (Nye et al., 2013). De mate van zekerheid ten aanzien van de effectgrootte wordt als matig beoordeeld.

Er werd geen significant verschil in reductie van het stotterpercentage na behandeling aangetoond tussen de Verwachtingen en Mogelijkheden Model-groep en de Lidcombe Programma-groep. Er bestaat echter grote onzekerheid over deze conclusie gezien de breedte van het 95% betrouwbaarheidsinterval (Franken et al., 2005).

Effectiviteit van stottertherapieën bij kinderen die stotteren van 6 tot 13 jaar:

Het aantal studies naar het effect van de behandeling van kinderen die stotteren in de leeftijd tussen 6 en 13 jaar is beperkt en de kwaliteit voor het bewijs van het effect is overwegend zeer laag.

Volgens de studie van Craig et al. (1996) heeft Electromyografische feedback, Intensive Smooth Speech en Smooth Speech home een positief effect op de stotterfrequentie direct na de interventie en op lange termijn, variërend van 2 tot 14 jaar na de interventie. Ook de Sociaal Cognitieve Gedragstherapie gebaseerd op de studie van Boey (2008) toonde deze positieve effecten. De kwaliteit van het gevonden bewijs wordt als "gering" beoordeeld.

Effectiviteit van stottertherapieën bij adolescenten en volwassenen:

Diverse stottertherapieën, variërend van ademtherapie, "response contingent reinforcement" via "fluency shaping", "Comprehensive stuttering program", de "Doetinchemse methode", tot de "individuele stottertherapie" hebben direct na behandeling positieve effecten op de stotterfrequentie laten zien die echter in grootte uiteenlopen. Wanneer follow-up informatie van tenminste zes maanden na het einde van de therapie beschikbaar was lieten sommige studies zien dat de positieve effecten behouden bleven, terwijl andere studies (enige) terugval lieten zien.

In de onderzoeken naar Delayed Auditory Feedback (Lincoln et al., 2010; Ingham & Andrews, 1973) komt geen statistisch significant verschil in stotterpercentage tussen de experimentele en controlegroep naar voren. Ook is er geen follow-up gedaan. De zekerheid ten aanzien van de effectgrootte is gering.

Toevoegen van video zelf-modellering of self-imposed time-out lijkt als therapie minder effectief dan therapie gebaseerd op herstructurering van de spraak.

Het toevoegen van cognitieve gedragstherapie aan een therapie gericht op herstructurering van de spraak lijkt geen toegevoegde waarde te hebben voor vermindering van de stotterfrequentie, maar wel voor vermindering van angst en vermijdingsgedrag en van problematische gedachten en opvattingen over stotteren.

Zowel de telehealth versie als de reguliere versie van het Camperdown Program geeft een reductie van circa 60% in stotterpercentage na 12 maanden follow-up. Zij zijn even effectief, maar het Camperdown programma zelf is niet in een RCT met andere stottertherapieën vergeleken. Het is dus niet bekend of het Camperdown programma überhaupt wel een effectief programma is, omdat deze niet is vergeleken met een onbehandelde controlegroep.

De zekerheid over de effectgrootte is gering voor de uitkomstmaat stotterfrequentie. Andere uitkomstmaten dan stotterfrequentie zoals vermijdingsgedrag (situatievermijding en woordvermijding), natuurlijkheid van het spreken, participatie of kwaliteit van leven zijn veelal onvoldoende onderzocht en gerapporteerd om een uitspraak over de mate van zekerheid ten aanzien van de effectgrootte te doen.

Critical Appraisal

Validity

Met AGREE II is beoordeeld of de richtlijn is opgezet volgens het internationale format. De volledige beoordeling is te vinden in tabel 4 1/3b. De AGREE beoordeling is streng op het gebied van transparantie. De huidige richtlijn behaalt een totale kwaliteitsscore van 43% op een schaal van 100%. De lagere score wordt voornamelijk veroorzaakt door onduidelijkheid over de totstandkoming van bepaalde aanbevelingen.

De meeste hoofdstukken uit de richtlijn zijn gebaseerd op systematische literatuuronderzoeken, maar het is niet altijd duidelijk beschreven hoe de literatuursearch is uitgevoerd. De vragen in H9 en H10 zijn niet beantwoord met een systematische literatuuronderzoek; deze vragen lijken daarvoor ook minder geschikt. Hier is gebruik gemaakt van focusgroepen en meningen van experts.

Interpretation of Results

De richtlijn omvat de meest up-to-date kennis en draagt bij aan de verbetering van kwaliteit en doelmatigheid van de geleverde zorg door logopedisten en stottertherapeuten. Deze richtlijn levert een essentiële bijdrage aan de professionalisering van de logopedie.

Summary/Conclusion

De studies met de hoogste kwaliteit zijn uitgevoerd omtrent de effectiviteit van stottertherapieën bij kinderen tot zes jaar. Het Lidcombe programma is een effectieve methode gebleken. Er zijn geen verschillen in effectiviteit aangetoond tussen het Lidcombe Programma en het Verwachtingen en Mogelijkheden model.
--

Het aantal studies naar het effect van de behandeling van kinderen die stotteren in de leeftijd tussen 6 en 13 jaar is beperkt en de kwaliteit voor het bewijs van het effect is overwegend zeer laag. De kwaliteit van het gevonden bewijs omtrent de effectiviteit van de behandelingen van adolescenten en volwassenen die stotteren wordt ook als gering beoordeeld. Er moeten meer kwalitatief hoogwaardige studies worden uitgevoerd om met zekerheid te kunnen vaststellen dat een bepaalde stottertherapie effectief is. Op basis van de nu beschikbare studies kan hier niet met zekerheid een uitspraak over worden gedaan.

Table 4. 1/3b Critical appraisal Evidence Based Richtlijn Ontwikkelingsstotteren bij kinderen, adolescenten en volwassenen

Beoordeling guidelines AGREE II Overall quality: 43%		Pertijs et al. (2014)	Toelichting
<i>Domein 1. Onderwerp en doel (67%)⁵</i>		Beoordelaar ⁴	
Specifiek beschreven zijn:	1. Het doel	5 ⁶	De richtlijn beoogt de kwaliteit en doelmatigheid van de geleverde zorg door logopedisten en logopedist-stottertherapeuten aan personen die stotteren en hun omgeving te verbeteren. De verwachte gezondheidswinst op elk onderdeel zou nog concreter kunnen worden geformuleerd.
	2. De vraag/vragen	3	De vragen staan niet in een aparte paragraaf beschreven, waardoor een overzicht ontbreekt. Er is bijvoorbeeld geen nummering zodat onbekend is wat vraag 1 is, vraag 2 etc. De vragen zijn wel te achterhalen in de samenvatting en in de hoofdstuktitels. In twee hoofdstuktitels ontbreekt echter de doelpopulatie (H8 en H10); de vragen staan soms verder specifiek genoemd in de hoofdstukken zelf, maar niet altijd.
	3. De populatie	7	De richtlijn richt zich alleen op ontwikkelingsstotteren, zowel kinderen als volwassenen. Ook is genoemd welke vormen hier dus niet onder vallen. Het is goed te vinden in de richtlijn in een aparte paragraaf met een helder kopje.
<i>Domein 2. Betrokkenheid van belanghebbenden (67%)</i>			
	4. De leden van de werkgroep komen uit alle relevante beroepsgroepen.	3	Bij de werkgroepleden staat niet aangegeven wat zijn of haar discipline of inhoudelijke expertise was. Tevens ontbreekt de rol van de individuele werkgroepleden. Bij de voorzitter van de werkgroep wordt niet aangegeven vanuit welke instelling of vereniging deze afkomstig was. De plaatsen staan ook niet beschreven. Er zijn wel methodologische experts opgenomen in de werkgroep. In de richtlijn wordt het volgende vermeld: <i>Bij het samenstellen van de werkgroep is rekening gehouden met de geografische spreiding van de werkgroepleden en een evenredige vertegenwoordiging van de verschillende verenigingen en academische achtergrond.</i>
	5. Het perspectief en de voorkeuren van de doelpopulatie zijn nagegaan.	6	Er zaten vertegenwoordigers vanuit de patiëntenvereniging in de werkgroep. Er is een knelpuntenanalyse opgesteld vanuit zowel het patiënten- als het zorgverlenersperspectief. De knelpunten zijn nader uitgediept tijdens een focusgroepbijeenkomst met personen die stotteren en ouders van kinderen die stotteren. Op basis van de knelpuntenanalyse zijn er concept-uitgangsvragen geformuleerd die vervolgens zijn beoordeeld door de werkgroep. Een definitieve lijst met uitgangsvragen is opgesteld, na verwerking van het commentaar van de werkgroep, gericht op de meest belangrijke knelpunten in de dagelijkse praktijk. De knelpunten die naar voren kwamen zijn beschreven en er is een prioritering vastgesteld op basis waarvan de uitgangsvragen zijn opgesteld. Het is niet beschreven wie de prioritering heeft bepaald. Tevens is de conceptrichtlijn voor commentaar aangeboden aan de patiëntenvereniging.
	6. De beoogde gebruikers van de richtlijn zijn duidelijk benoemd.	6	De richtlijn is opgesteld voor logopedisten en logopedist-stottertherapeuten. Andere zorgverleners die in aanraking komen met volwassenen, kinderen en adolescenten met stotteren zoals huisartsen, jeugdartsen, kinderartsen, KNO-artsen, psychologen, bedrijfsartsen, leraren en

			maatschappelijk werkers, kunnen de richtlijnen raadplegen om de zorg aan personen die stotteren te optimaliseren. Tevens kan de richtlijn worden gebruikt door zorgverzekeraars en personen die stotteren, zodat zij weten wat zij van de zorg mogen verwachten. Expliciet zou nog kunnen worden verwoord hoe de richtlijn door de doelgroep kan worden gebruikt.
<i>Domein 3. Methodologie (38%)</i>			
	7. Systematische methoden zijn gebruikt voor het zoeken naar wetenschappelijk bewijsmateriaal.	2	Voor twee vragen is geen systematische zoektocht in de literatuur gedaan, maar is de vraag voornamelijk beantwoord op basis van uitkomsten van de focusgroep en kennis en ervaring van de werkgroepleden (alhoewel ook gebruik is gemaakt van literatuur, maar het is niet duidelijk hoe die gevonden is voor deze hoofdstukken H9 en H10). Deze vragen zijn inderdaad wellicht minder geschikt om via alleen literatuur te beantwoorden. Bij een andere vraag (H3) staat dat er niet systematisch is gezocht, maar de motivatie hiervoor ontbreekt en er wordt ook niet opgeschreven hoe men dan wel aan de beschreven literatuur is gekomen. Tevens staat vermeld dat de onderbouwing van H3 voornamelijk gebaseerd is op 1 artikel, en dat dat artikel vanuit methodologisch oogpunt het beste is. Hoe men tot die beoordeling is gekomen, zou beschreven moeten worden. Voor de andere hoofdstukken geldt dat soms alleen gemeld wordt dat er systematisch is gezocht, soms ook met een datum en soms de databases waarin is gezocht. De zoekstrategie die in de bijlage wordt beschreven lijkt niet compleet te zijn. De searches die in de tabel staan die uitgevoerd zijn op 20120808 staan bijvoorbeeld niet uitgewerkt. Ook is niet duidelijk of de beschreven zoekstrategie voor alle vragen waarvoor systematisch is gezocht, is gebruikt. Termen voor behandeling staan bijv. wel in de zoekstrategie, maar die voor diagnostische tests lijken er niet in de staan.
	8. Selectiecriteria zijn duidelijk beschreven.	2	Dit is slechts voor één vraag beschreven, voor de andere vragen ontbreekt dit.
	9. Sterke punten en beperkingen van wetenschappelijk bewijsmateriaal zijn beschreven.	5	In enkele hoofdstukken komt dit wel aan de orde, H4, H5, H6, H7. Hierin wordt ook aangegeven welke designs meegenomen worden. Consistentie en directheid komt soms aan de orde, maar niet overal. Deels is GRADE gebruikt en daar is duidelijk waarop is gedowngrade. In andere hoofdstukken wordt dit niet zo expliciet benoemd (H3, H9 en H10). Hoofdstuk 9 en 10 maakt ook gebruik van uitkomsten focusgroep en kennis en ervaring werkgroep, maar de gebruikte literatuur wordt niet van een oordeel over kwaliteit voorzien. In hoofdstuk 8 wordt genoemd dat de kwaliteit van bewijs niet bepaald is, omdat deze vraag eigenlijk niet van toepassing is voor de Nederlandse situatie.
	10. Gebruikte methoden voor het opstellen van de aanbevelingen zijn duidelijk beschreven.	2	Het enige dat hierover is opgenomen is het volgende: De werkgroep heeft gedurende een periode van ongeveer anderhalf jaar gewerkt aan de beantwoording van de uitgangsvragen en opstellen van de tekst voor de conceptrichtlijn. De methodologen hebben de wetenschappelijke onderbouwingen geschreven. De conclusies uit de literatuur vormden de basis voor het opstellen van de aanbevelingen. De verantwoordelijke werkgroepleden deden daarvoor een voorzet, die tijdens de werkgroepvergadering werd besproken en desgewenst aangevuld met praktijkinformatie. De aanbevelingen zijn tot

			stand gekomen op basis van (informele) consensus binnen de werkgroep. De resultaten van het proces voor het opstellen van de aanbevelingen en hoe het proces de aanbevelingen heeft beïnvloed zijn niet opgeschreven.
	11. Gezondheidswinst, bijwerkingen en risico's zijn overwogen bij het opstellen van de aanbevelingen.	5	Deze zijn meegenomen voor zover beschikbaar. Bijwerkingen en risico's zijn niet altijd bepaald, maar liggen gezien de aard van de behandeling ook minder voor de hand.
	12. Er bestaat een expliciet verband tussen de aanbevelingen en het onderliggende bewijsmateriaal.	3	Voor de meeste vragen is de bewijskracht niet zo groot. Dat maakt aanbevelingen doen lastig. Bijv. voor de behandeling van kinderen tussen zes en dertien jaar ontbreekt redelijke of grote zekerheid ten aanzien van de effectgrootte voor alle uitkomstmaten. De aanbeveling is: Behandeling van stotteren bij kinderen in de leeftijd tussen 6 en 13 jaar wordt bij voorkeur gebaseerd op een behandelplan dat alle ICF-elementen bevat en richt zich op behandeling van die categorie gedragingen, emoties en cognities die op grond van het assessment en in overleg met het kind dat stottert en zijn ouders zijn bepaald. Hier is geen expliciet verband tussen de aanbeveling en het onderliggend bewijsmateriaal. De ICF komt in de tekst van het betreffende hoofdstuk niet voor. Er wordt niet expliciet besproken of de optie 'niets doen' is overwogen. Dit komt impliciet aan de orde in het hoofdstuk over volwassenen, maar de motivatie had hier beter opgeschreven kunnen worden. De richtlijn richt zich voornamelijk op wel behandelen. Bij elke aanbevelingen zou moeten worden aangegeven of die gebaseerd is op wetenschappelijke onderbouwing of op expert opinion. Er wordt ook geen onderscheid gemaakt tussen sterkere en zwakkere aanbevelingen.
	13. De richtlijn is voor publicatie door externe experts beoordeeld.	2	De klankbordgroep heeft commentaar op de conceptrichtlijn gegeven, evenals de betrokken beroeps- en patiëntenverenigingen (deze staan niet specifiek genoemd). Er wordt niet aangegeven wat het doel en de opzet van de externe beoordeling was, tevens ontbreken de methode waarmee de externe beoordeling is uitgevoerd, de beschrijving van de referenten, de uitkomsten van de beoordeling en wijze waarop men met het commentaar is omgegaan.
	14. Een procedure voor herziening van de richtlijn is vermeld.	5	Het volgende staat aangegeven: uiterlijk in 2019 wordt door de NVLF en de NVST, na raadpleging van of op advies van aan de richtlijn participerende verenigingen, bepaald of deze richtlijn nog actueel is. Zo nodig wordt een nieuwe werkgroep geïnstalleerd om (delen van) de richtlijn te herzien. De geldigheid van de huidige richtlijn komt eerder te vervallen indien nieuwe ontwikkelingen aanleiding zijn om een herzieningstraject te starten. De methodologie voor de herzieningsprocedure is niet beschreven.
Domein 4. Helderheid en presentatie (39%)			

	15. Aanbevelingen zijn specifiek en ondubbelzinnig.	3	<p>Veel van de aanbevelingen zijn heel specifiek en helder beschreven. Enkelen (niet uitputtend!) voorbeelden van vagere aanbevelingen zijn: Aanbeveling 4: De logopedist betreft in de overweging om de behandeling al na zes maanden te starten (in plaats van het verloop tot 12 maanden af te wachten): het herstelpatroon van stotteren in de familie, het geslacht van het kind, de fonologische vaardigheden van het kind, aanwezige bijkomende stoornissen en het temperament van het kind. Hierin zou aangegeven moeten worden hoé daar dan rekening mee te houden.</p> <p>Aanbeveling 9: de aanbevolen vragenlijst is niet in het Nederlands beschikbaar. Dat staat wel in de tekst genoemd, maar als aanbeveling kan deze dus nog niet zomaar worden gebruikt (in de aanbeveling zelf staat niet vermeld dat deze niet in het Nederlands beschikbaar is).</p> <p>Aanbeveling 11: Dit gaat over kinderen tot zes jaar, en dat ouders geïnformeerd moeten worden over de voordelen van behandelen t.o.v. afwachten. Echter, in aanbeveling 3 staat dat met behandeling 12 maanden gewacht wordt bij kinderen van 4 jaar, [red. dat staat er niet letterlijk, maar kan uit aanbeveling 1 en 2 worden gehaald]. Aanbeveling 11 zou specifiek gemaakt moeten worden wat betreft leeftijd. In aanbeveling 16 wordt aangegeven dat in specifieke situaties apparatuur bij een deel van de personen die stotteren voor een verlaging van stotterpercentage kan geven. De afkorting AAF is niet uitgewerkt en er staat niet beschreven wat onder een specifieke situatie valt. Aanbeveling 17: het is niet beschreven welke farmaca dit betreft, en dat een passende dosis moet worden gezocht lijkt een open deur. Aanbeveling 18 lijkt, op de wijze zoals het nu beschreven is, een open deur.</p>
	16. Verschillende beleidsopties zijn duidelijk vermeld.		niet van toepassing
	17. Kernaanbevelingen zijn gemakkelijk te herkennen.	6	<p>De aanbevelingen staan in een kader aan het eind van elk hoofdstuk. Deze zijn gemakkelijk te herkennen en vallen voldoende op als men door het document gaat. Ze staan na de samenvatting van het bewijs.</p> <p>Ze lijken de kernboodschappen weer te geven, alhoewel niet alle aanbevelingen specifiek zijn, zie hierboven. Voor de score van item 17 is voornamelijk beoordeeld op vindbaarheid en groepering</p>
Domein 5. Toepassing (21%)			
	18. De richtlijn geeft advies en hulpmiddelen voor toepassing van de aanbevelingen in de praktijk.	4	<p>Rr is een patiëntenversie ontwikkeld. De richtlijn wordt verspreid onder alle relevante beroepsgroepen, patiëntenorganisaties en onderwijsinstellingen. Er wordt aandacht voor de richtlijn gevraagd via publicaties in tijdschriften en websites van de verschillende verenigingen. In de samenvatting van de richtlijn zijn alle aanbevelingen opgenomen en de rationale voor de aanbevelingen, sommige vragen zijn ook voorzien van een korte samenvatting/inleiding.</p> <p>Wat ontbreekt is bijv. de oplossing hoe om te gaan met de aanbevolen test SSI die niet in het Nederlands beschikbaar is.</p> <p>Pilot tests en geleerde lessen zijn niet beschreven.</p>
	19. De richtlijn beschrijft bevorderende en	2	De richtlijn geeft de aanbeveling: <i>De logopedist dient de aanbevelingen uit deze richtlijn voor diagnostisch en therapeutisch handelen te kunnen uitvoeren. Indien de</i>

	belemmerende factoren bij de toepassing.		<i>logopedist zich daartoe onvoldoende in staat acht, dient te worden doorverwezen naar een logopedist met meer expertise op het gebied van stotteren of naar een logopedist-stottertherapeut. Verder zijn er geen andere bevorderende of belemmerende factoren genoemd. Er wordt alleen vermeld dat expliciet is gelet op factoren die de invoering van de richtlijn in de praktijk kunnen bevorderen of belemmeren. Er staat echter niet vermeld welke dit waren en hoe er op gelet is. Zo wordt bijvoorbeeld in aanbeveling 9 gezegd dat de SSI voorkeur heeft boven de TVS-L/NL, maar dat de SSI alleen in het Engels beschikbaar is, wordt daarbij niet als belemmerende factor genoemd, en is er geen advies hoe daar mee om te gaan.</i>
	20. De mogelijke implicaties van het toepassen van de aanbevelingen voor de kosten en benodigde middelen zijn overwogen.	2	Bij de aanbeveling voor het gebruik van een bepaalde vragenlijst is aangegeven dat de kosten van de lijst hoog zijn. In de richtlijn wordt aangegeven dat er op dit moment geen inzicht is in de kosten van stottertherapie. Dit zou dan achterhaald moeten worden via bijv. een gezondheidseconoom. Het lijkt voor de hand te liggen dat in ieder geval een inschatting van de kosten van stotterbehandeling beschikbaar moet zijn. Men weet bijv. wel hoeveel behandelingen nodig zijn. Kosten per gedeclareerde behandeling zouden bekend moeten zijn. Dit zelfde geldt voor kosten voor nazorg. Het is niet beschreven of de werkgroep een gezondheidseconoom heeft geraadpleegd om te onderzoeken welke mogelijkheden er op dit moment zijn om een beeld van de kosten te krijgen. De werkgroep raadt aan dat kosteneffectiviteitsstudies worden uitgevoerd [dit is uitgebreider dan inzicht in de kosten].
	21. De richtlijn geeft criteria om te toetsen of de richtlijn wordt gevolgd.	1	Dit staat niet beschreven.
Domein 6. Onafhankelijkheid van de opstellers (42%)			
	22. De opvattingen van de financierende instantie hebben de invloed van de richtlijn niet beïnvloed.	2	Over financiering staat het volgende vermeld: <i>De richtlijn is mede mogelijk gemaakt door cofinanciering van de Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie, Demosthenes, de patiëntenvereniging voor (ouders van) kinderen en volwassen die stotteren, de Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie (NVST) en het Damsté-Terpstra Fonds. Er staat niet expliciet aangegeven dat de inhoud van de richtlijn niet is beïnvloed door de financierende instanties.</i>
	23. Conflicterende belangen van leden van de richtlijnwerkgroep zijn vastgelegd en besproken.	5	Alle werkgroepleden hebben een belangenverklaring ingevuld. Geen van hen heeft relevante belangen gemeld. Er is echter geen voorbeeld gegeven of een beschrijving van wat er in de belangenverklaring staat.

⁴ De beoordeling van de richtlijn is uitgevoerd op 12 mei 2016 door Pallas health research and consultancy (onderzoeks- en adviesbureau biomedische en gezondheidswetenschappen, volksgezondheid en zorg).

⁵ Tussen haakjes staat de gestandaardiseerde domeinscore, de berekening hiervoor is: $(\text{verkregen score} - \text{minimaal mogelijke score}) / (\text{maximaal mogelijke score} - \text{minimaal mogelijke score}) \times 100$.

⁶ Elk item wordt gescoord op een zevenpuntsschaal: 1 punt betekent "zeer oneens", 7 punten betekent "zeer eens".

Table 5. 2/3: Description and appraisal of:

The state of the art in non-pharmacological interventions for developmental stuttering Part 1: a systematic review of effectiveness, Baxter, S., Johnson, M., Blank, L., Cantrell, A., Brumfitt, S., Enderby, P., & Goyder, E. (2015)

<p>Aim/Objective of the Systematic Review:</p> <p>Het op systematische wijze identificeren, beoordelen en synthetiseren van kwantitatieve en kwalitatieve evidentie van interventies voor het behandelen van ontwikkelingsstotteren van alle leeftijdsgroepen en het verstrekken van een “state of the art review” van stottertherapie.</p>
<p>Study Design</p> <p>Dit artikel betreft een systematic review van verschillende study designs.</p>
<p>Zoekstrategie:</p> <p>P: Personen met ontwikkelingsstotteren van alle leeftijden. I: Niet-farmaceutische behandeling, geleverd in iedere setting. C: Alternatieve interventie/ controlegroep/ “usual care” maar ook studies zonder vergelijkingsgroep. O: Uitkomsten gerelateerd aan een positief effect op de communicatie of het sociale of emotionele welzijn.</p> <p>Methode:</p> <p><i>Zoekactie</i> Op systematische wijze is gezocht naar literatuur tussen augustus 2013 en februari 2014. Engelstalige artikelen gepubliceerd in 1990 of later werden meegenomen indien relevant. Er is gezocht in databases, waaronder Medline (Ovid), Psychinfo (Ovid), the Cochrane Library en CINAHL. Vakexperts en clinici zijn bevroegd naar relevante zoektermen en studies. De zoekstrategie is ontwikkeld door een informatiespecialist van het team. De eerste search bevatte het combineren van zoektermen voor de populatie (personen die stotteren) met zowel brede en meer specifieke termen voor interventie. De zoekstrategie met daarin de specifieke zoektermen en “strings” is beschikbaar bij de auteurs.</p> <p><i>Studieselectie</i> Verkregen artikelen zijn geüpload in een Reference Manager database. De database werd onafhankelijk gescreend op titels en abstracts door 2 reviewers. Ieder verschil in hun inclusie/exclusiebesluit werd opgelost door het consulteren van andere leden van het team. Er werd gebruik gemaakt van coderen, waardoor de publicaties werden gecategoriseerd naar in- en exclusie. De volledige tekst van de publicaties is gelezen, indien geëxcludeerd dan werden de redenen hiervan genoteerd, deze zijn opvraagbaar. Middels een flow-chart hebben de auteurs inzichtelijk gemaakt welke studies zijn afgevallen en waarom.</p> <p><i>Data-extractie</i> Er was een “extractie format” ontwikkeld door het review team, zodat de data-extractie per studie op een consequente manier werd gedaan. De data-extractie werd voor iedere studie door een reviewer verricht, elke data-extractie werd gecontroleerd door een tweede lid van het team. De extractietabellen zijn opvraagbaar bij de auteurs.</p> <p><i>Kwaliteitsbeoordeling</i> Een flexibel beoordelingsinstrument was nodig, omdat de review een hoop verschillende study designs heeft geïnccludeerd. De kwaliteitsbeoordeling was gebaseerd op de Cochrane criteria voor het beoordelen van de risk of bias. Het Cochrane beoordelingsinstrument is door het onderzoeksteam aangepast voor studies die geen RCT study design hadden. De kwaliteitsbeoordeling van iedere studie werd afgerond in een teambijeenkomst, waarin consensus werd bereikt.</p> <p>Resultaten:</p> <p>Het Lidcombe Programma is een effectieve interventie voor stotterende kinderen tot 6 jaar. Van de andere type interventies is de mate van effectiviteit in het reduceren van het aantal gestotterde lettergrepen onzeker vanwege de beperkte kwaliteit van dit bewijs.</p>
<p>Setting</p> <p>Verschildt per geïnccludeerde studie.</p>
<p>Participants</p> <p>Personen met ontwikkelingsstotteren van alle leeftijden.</p>
<p>Intervention Investigated</p> <p>De auteurs hebben de publicaties gegroepeerd naar inhoud van de interventies om vervolgens de effectiviteit te kunnen onderzoeken en vergelijken. De literatuur gebruikt een verscheidenheid aan termen en daarom hebben de auteurs een classificatie overgenomen om mogelijke verwarring te voorkomen. De classificatie onderscheidt zeven type studies: 1. Interventies gericht op feedback en technologie (waaronder Delayed Auditory Feedback (DAF)), met als doel het veranderen van het systeem van de auditieve feedback.</p>

2. Cognitieve interventies, met als doel psychologische verandering.
3. Gedragsinterventies, met als doel het gedrag van het kind of ouder te veranderen of het gedrag van een volwassene die stottert.
4. Spraakmotorische interventies, met als doel het beïnvloeden van het mechanisme van de spraakproductie, zoals de ademhaling, laryngeale of articulatorische systemen.
5. Spraakmotorische interventies in combinatie met cognitieve interventies.
6. Interventies bestaande uit meerdere componenten. De behandelprogramma's bevatten combinaties van elementen zoals: EMG feedback, smooth speech, ontspanning, training gericht op de ademhaling, cognitieve aspecten, zelf-management componenten, sociale aanmoediging, en specifieke elementen om een terugval te voorkomen.

Outcome Measures

Uitkomstmaat:

Uitkomsten gerelateerd aan een positief effect op de communicatie of het sociale of emotionele welzijn van de persoon die stottert. De spraakproductie is ook als uitkomstmaat meegenomen.

Main Findings

Interventies gericht op feedback en technologie:

Tweeëntwintig publicaties beschreven de effectiviteit van deze interventie.

Veertien studies hadden een "before and after" design, zeven een cross-sectioneel design en één een RCT design. Twintig studies zijn als "higher risks of bias" beoordeeld. De behandelde personen die stotteren waren voornamelijk volwassenen. De meerderheid van de studies had een sample size die kleiner was dan 15 personen. Auteurs van deze studies hebben een reductie in gestotterde lettergrepen gerapporteerd tussen 3% en 87%.

Het grootste deel van de technologie die beschreven was, ging om apparaten die de manier veranderen waarop een persoon die stottert zijn eigen spraak hoort (altered auditory feedback – AAF). Dit werd veroorzaakt door het veranderen van de frequentie (frequency altered feedback – FAF), en/of het introduceren van vertraging voordat de spraak werd gehoord (delayed auditory feedback – DAF).

Het gebruik van de "SpeechEasy" werd gerapporteerd in zes studies (Armson et al., 2006; Armson & Kiefe 2008; Pollard et al., 2009; Foundas et al., 2013; O'Donnell et al., 2008; Gallop & Runyan, 2012). Alle studies rapporteerden enkele mate van reductie in de stottersnelheid. Effect sizes van 0.10 en 0.72 zijn gegeven (Armson et al., 2006; Armson & Kiefe, 2008). Geen bijkomende effecten op de spreesnelheid zijn gerapporteerd in deze studies. Follow-up data, op lange termijn, gebaseerd op een studie, geven aan dat er wat effect blijvend is.

In sommige studies werden DAF en FAF gecombineerd met andere apparaten om de vloeiendheid van het spreken te bevorderen. Alle bevindingen geven een positief effect op de vloeiendheid aan.

Electromyografie (EMG) en video self-modeling (VSM) werden ook geëvalueerd. Twee studies die EMG evalueerden, hebben een verbetering gerapporteerd bij kinderen; een reductie van minder dan 1% gestotterde syllabes (Craig et al., 1996) en een gemiddelde reductie van 37% (Block et al., 2004). De behandelvorm zou mogelijk een negatief effect hebben op de spreesnelheid. Drie studies hebben VSM onderzocht, zij vonden een reductie in gestotterde woorden of syllabes (Bray & Kehle, 1998; Cream et al., 2009). VSM zou een beperkte impact hebben op de vloeiendheid van het spreken wanneer dit wordt toegevoegd aan een onderhoudsprogramma (Cream et al., 2010).

Cognitieve interventies:

Zes publicaties beschreven de effectiviteit van deze interventies.

Vijf studies hadden een "before and after" design en één studie een RCT design. Alle studies zijn als "higher risk of bias" beoordeeld. De participanten in de studies zijn volwassenen. Twee studies hebben het effect van de cognitieve gedragstherapie onderzocht (Reddy et al., 2010; Amster & Klein, 2008). Een studie keek naar het effect van "Personal Construct Psychology" sessies (Leahy & Collins, 1991), twee studies naar het gebruik van hypnose (Kaya, 2011; Kaya & Alladin, 2012) en een studie naar een op Mindfulness gebaseerd stress reductie programma (de Veer et al., 2009). In de studies werd als uitkomstmaat niet "het percentage gestotterde lettergrepen" gebruikt en de studies hebben een lage bewijslast. Om deze redenen worden de resultaten hier niet verder uitgewerkt.

Gedragsinterventies:

Negenentwintig publicaties beschreven de effectiviteit van deze interventies.

Tweeëntwintig studies waren gerelateerd aan het Lidcombe Programma (LP): 12 studies hadden een "before and after" design, één studie een "controlled before and after" design, vier studies een cross-sectioneel design, twee een Quasi-RCT design en drie waren RCT's. Twaalf studies zijn als "lower risk of bias" beoordeeld. Auteurs van deze studies hebben een reductie in het percentage gestotterde lettergrepen gerapporteerd tussen 69% en 97%.

Elf studies die zich hoofdzakelijk hebben gericht op het klinische effect van LP, hebben positieve effecten op het percentage gestotterde lettergrepen gevonden. Harris et al. (2002) hebben bijvoorbeeld een significant effect gevonden in de gemiddelde reductie van het percentage gestotterde lettergrepen van 39% ($p < 0.001$) in de negen kinderen in de LP interventie groep. Jones et al. (2005, 2008) hebben na 5 jaar follow-up een percentage gestotterde lettergrepen van 0 tot 1.1% gemeten, drie kinderen hadden een terugval. Door Latterman et al. (2008) werden ook positieve resultaten gevonden en dit bevestigde dat de reductie in %SS niet ten koste ging van de spreesnelheid. Geen nadelige effecten van het LP op het kind of de ouders zijn gevonden (Woods et al., 2002; Onslow et al., 2002; Bonelli et al., 2000).

Zeven studies waren gericht op gedragsinterventies, maar niet gebaseerd op het Lidcombe Programma: vier studies hadden een “before and after” design en twee waren Quasi-RCT’s. Zes studies zijn als “lower risk of bias” beoordeeld. De therapie was gericht op het veranderen van gedragingen binnen de familie, voornamelijk gericht op de ouder en de ouder-kind interactie. Twee studies richtten zich op volwassenen. In deze groep zijn alleen positieve uitkomsten gerapporteerd na behandeling.

Spraakmotorische interventies:

Achttien publicaties beschreven de effectiviteit van deze interventies, deze studies hadden allemaal een “before and after” design. Zeven studies zijn als “lower risk of bias” beoordeeld. Auteurs van deze studies hebben een reductie in het percentage gestotterde lettergrepen gerapporteerd tussen 22% en 96%.

De meeste studies hebben naar het effect van “prolonged speech” (PS) gekeken. De studies rapporteerden allemaal verbetering in het %SS na behandeling met PS en tot 5 jaar follow-up.

In deze studies was er na therapie geen sprake van een significante impact op de natuurlijkheid van het spreken (Onslow et al., 1992, 1996) en de spreksnelheid werd niet nadelig beïnvloed (O’Brian et al., 2013).

Vier studies hebben spraakmotorische interventies bij kinderen geëvalueerd. Ook deze studies rapporteerden positieve uitkomsten (Von Gudenberg, 2006; Druce et al., 1997) en dit gold ook voor de interventie genaamd “Syllable-Timed-speech” (Andrews et al., 2012; Trajovski et al., 2011).

Spraakmotorische interventies in combinatie met cognitieve interventies:

Achttien publicaties beschreven de effectiviteit van deze interventies. Zeventien studies hadden een “before and after” design en één studie een mixed method design. Zes studies zijn als “lower risk of bias” beoordeeld. Alle publicaties hebben een positieve impact op de participanten gerapporteerd na interventie, waaronder ook een reductie in het %SS.

Interventies bestaande uit meerdere componenten:

Elf publicaties beschreven de effectiviteit van deze interventie bestaande uit meerdere componenten. Tien studies hadden een “before and after” design en een studie een cross-sectioneel design. Alle studies, op één na zijn als “higher risk of bias” beoordeeld. Reducties van 52% en 89% zijn beschreven.

Studies die verschillende interventies met elkaar vergeleken:

Acht studies vergeleken verschillende interventies met elkaar. Deze studies waren in het algemeen van redelijke kwaliteit, twee studies zijn als “higher risk of bias” beoordeeld.

In de studie van Franken et al. (2005) daalde de gemiddelde stotterfrequentie bij zowel de groep kinderen die werk behandeld met LP als met het Verwachtingen en Mogelijkheden model. Er was geen significant verschil in effectiviteit tussen de behandelprogramma’s.

In de studie van Menzies et al. (2008) was de spraakmotorische interventie vergeleken met een spraakmotorische interventie in combinatie met cognitieve gedragstherapie bij volwassenen die stotteren. Er was geen verschil in effect op het %SS tussen de twee groepen.

In de studie van Craig et al. (1996) is EMG vergeleken met zowel intensive smooth speech als met home based speech programma’s voor kinderen en adolescenten. De drie behandelingen zijn in gelijke mate effectief bevonden.

Original Authors’ Conclusions

Het systematische review geeft evidentie over de effectiviteit van de verschillende beschikbare behandelingen voor mensen die stotteren. Er zijn veel onderzoeken met een klein sample, met een “baseline follow-up design”. Alternatieve study designs zijn nodig zoals onderzoek waarin interventies worden vergeleken. Onderzoek gericht op de effectiviteit van stottertherapieën heeft de neiging om zich te richten op het demonstreren dat een bepaalde interventie effectief is. Het is nodig om te onderzoeken “waarom” en “hoe” een therapie werkt, en in het bijzonder het onderzoeken naar individuele variaties in effectiviteit. Factoren zoals de ernst van het stotteren en de tijd dat iemand stottert heeft invloed op de uitkomst, maar er is nog veel variatie in de uitkomst niet verklaard. Het vergelijken van studies is uitdagend doordat verschillende studies verschillende uitkomstmaten voor het stotteren blijven hanteren. Metingen van openlijke stottergedragingen blijven in de evaluaties dominant. Het heeft dringende prioriteit om naar overeengekomen “kernuitkomsten” te kijken die belangrijk en relevant zijn voor personen die stotteren.

Critical Appraisal

Validity

In het systematisch literatuuronderzoek zijn veel studies geïncludeerd. De kwaliteitsbeoordeling van de studies is als bijlage toegevoegd en daardoor transparant.

Relevante participantkarakteristieken hadden per studie beter beschreven kunnen worden, uit de beschrijving is alleen af te leiden tot welke leeftijdscategorie de participant globaal behoort.

Per studie miste een heldere beschrijving van de interventie die was toegepast; hoe lang werd een participant behandeld met het interventie programma, hoe veel sessies en de duur van iedere sessie. Dit is van belang voor de implementatie van de behandeling.

Er is sprake van attrition bias bij de meerderheid van de studies. Dit onderdeel is wel als bijlage meegenomen in de kwaliteitsbeoordeling maar niet in de beschrijving van de studies. Dit ongelijke verlies van participanten kan zorgen voor een

significant verschil in participantkarakteristieken tussen de experimentele en controlegroepen. Dit kan leiden tot significante verschillen in bijvoorbeeld leeftijd tussen de experimentele en controlegroep.

Interpretation of Results

Alle type interventies zijn effectief bevonden in het reduceren van het percentage gestotterde lettergrepen. Er wordt veel individuele variatie in reactie op een interventie waargenomen. De kwaliteit van dit bewijs varieert echter enorm onder de studies. Het merendeel van de studies had een "before and after" design, zonder vergelijkingsgroep en zonder herhaalmeting na de interventie. Daarnaast zijn de participanten in het grote merendeel van de studies niet gerandomiseerd toegewezen aan een behandelarm en is er geen rekening gehouden bij aanvang van de therapie met de stotterernst en de "time since onset". De resultaten uit de studies met een zwak design geven zeer waarschijnlijk een vertekend beeld van de werkelijkheid. Op basis van kwalitatief goed bewijs, is het Lidcombe programma een effectieve interventie bevonden voor stotterende kinderen tot 6 jaar.

Summary/Conclusion

Op basis van de beste evidentie blijkt het Lidcombe Programma een effectieve interventie voor stotterende kinderen tot 6 jaar. Van de andere typen interventies is de mate van effectiviteit in het reduceren van het aantal gestotterde lettergrepen onzeker vanwege de beperkte kwaliteit van dit bewijs.

SUMMARY OF BEST EVIDENCE

Table 5. 3/3: Description and appraisal of:

Direct versus indirect treatment for preschool children who stutter: The RESTART randomized trial, De Sonnevle-Koedoet, C., Stolk, E., Rietveld, T., & Franken, M.C. (2006).

<p>Aim/Objective of the Study:</p> <p>Er is weinig bewijs van hoge kwaliteit met betrekking tot verschillende therapiemodellen opties voor de beste behandeling van stotteren. Het doel van deze studie is om het effect te vergelijken van directe behandeling (Lidcombe programma) met indirecte behandeling (Verwachtingen en Mogelijkheden (DCM) model) bij jonge kinderen die stotteren.</p>
<p>Study Design</p> <p>Dit artikel betreft een Randomized Trial.</p>
<p>Zoekstrategie:</p> <p>P: Stotterende jonge kinderen. I: Directe behandeling, het Lidcombe Programma (LP). C: Indirecte behandeling, gebaseerd op het DCM model. O: Percentage niet stotterende kinderen (waarbij het percentage gestotterde lettergrepen $\leq 1.5\%$).</p> <p>Methode:</p> <p>199 kinderen zijn gerandomiseerd toegewezen aan een van de twee behandelgroepen: een groep werd behandeld volgens het Lidcombe Programma en de andere groep volgens een behandeling gebaseerd op het DCM model. Er werd een softwareprogramma gebruikt voor de toewijzing van de kinderen aan een van de twee behandelarmen, waarbij rekening werd gehouden met factoren die mogelijk gerelateerd zijn aan de behandeluitkomst zoals geslacht, stotterernst in de kliniek (gebaseerd op de SSI-3 score; mild, matig, ernstig), time since onset, een eerste, tweede of derde graad familielid met persistent stotteren en/of een geschiedenis van hersteld stotteren, behandeling voor stotteren in de afgelopen 12 maanden. De beoordelaars van de stotterfrequentie waren geblindeerd voor de toewijzing van de behandelarm en het meetmomen. De behandeling werd uitgevoerd door logopedisten die getraind en ervaren waren in het geven van beide behandelvormen. Om een uniforme toepassing van een behandeling gebaseerd op het DCM model te verzekeren, was er een handleiding ontworpen in samenwerking met alle deelnemende klinici aan het begin van de trial. Alle logopedisten hadden een driedaagse LP cursus gevolgd, gegeven door een gecertificeerde LP trainer. De logopedisten hadden gemiddeld 15 jaar ervaring met het geven van therapie gebaseerd op het DCM model en 3.7 jaar met LP. Ouders werden verzocht om drie audio-opnames te maken van 10-15 min, elk in een periode van twee weken. Een audio-opname moest gemaakt worden in een situatie waarbij het kind tegen de ouder spreekt en één waarbij het kind spreekt tegen iemand die geen familie is zowel in huis als buitenshuis. Acht logopedisten die niet betrokken waren in de studie waren getraind voor het bepalen van de percentage gestotterde syllabes van de samples met een voldoende intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid. Om een voldoende interbeoordelaarsbetrouwbaarheid te garanderen werd 64% van alle samples gescoord door tenminste twee beoordelaars. Onenigheden in de beoordelingen werden bediscussieerd en een derde geblindeerde senior beoordelaar werd geconsulteerd in zeldzame gevallen wanneer geen consensus bereikt kon worden. Er werd een power van 80% aangehouden voor het detecteren van een verschil van 15% voor het percentage van niet-stotterende kinderen, waarbij een drop-out rate van 22% werd toegestaan.</p> <p>Resultaten:</p> <p>Na 18 maanden behandeling met het Lidcombe Programma was 76.5% van kinderen stottervrij t.o.v. 71.4% na behandeling gebaseerd op het DCM model. Het effect van behandeling met het Lidcombe Programma is niet significant effectiever dan behandeling gebaseerd op het DCM model en vice versa. Behandeling met het Lidcombe Programma zorgt wel voor een significant snellere reductie van het percentage gestotterde lettergrepen gedurende de eerste drie maanden t.o.v. het DCM model.</p>
<p>Setting</p> <p>Twintig verschillende spraakcentra in Nederland.</p>
<p>Participants</p> <p>199 jonge kinderen die geregistreerd zijn bij één van de 20 deelnemende spraakcentra in Nederland. De leeftijd van de kinderen loopt uiteen van 3;0 tot 6;3 jaar. De stotterernst van deze kinderen was ≥ 2 ("mild") op een 8-puntsschaal, beoordeeld door de ouder en een clinicus. Het percentage gestotterde lettergrepen was $\geq 3\%$ voor tenminste 6 maanden. Kinderen met een diagnose van een emotionele of neurologische stoornis of een leer- of gedragsstoornis werden geëxcludeerd. Kinderen die het afgelopen jaar voor stotteren zijn behandeld, werden vijf maanden na de start van de studie ook toegelaten tot de onderzoeksgroep.</p>
<p>Intervention Investigated</p> <p>Een directe behandeling, het Lidcombe Programma. Een indirecte behandeling gebaseerd op het DCM model.</p>

<p>Outcome Measures (Primary and Secondary)</p> <p>Primaire uitkomstmaat: het percentage kinderen dat geen stotTERS liet horen/ waarbij het percentage gestotTERde lettergrepen na 18 maanden \leq 1.5% was.</p> <p>Secundaire uitkomstmaten werden getoetst aan het begin, en na 3, 6, 12 en 18 maanden na de start van de behandeling. Secundaire uitkomstmaten waren de stotTERfrequentie, ernstbepaling van het stotTERen op een 8-puntsschaal door de ouder en kwaliteit van leven gerelateerd aan gezondheid (EuroQoL EQ-VAS).</p> <p>Secundaire uitkomstmaten, getoetst aan het begin en na 18 maanden, waren ook de spreekattitude van het kind (KiddyCAT) en emotionele en gedragsproblemen gemeten met de "Child Behavior Checklist (CBCL)". Ook de ernstbepaling van het stotTERen op een 8-puntsschaal door de logopedist en op een 4-puntsschaal door het kind werd meegenomen als secundaire uitkomstmaat.</p>
<p>Main Findings</p> <p>Primaire uitkomsten: Het percentage niet stotTERende kinderen, na behandeling met het Lidcombe Programma, was 76.5% (65/85) versus 71.4% (65/91) na behandeling gebaseerd op het DCM model (Odds Ratio (OR), 0.6; 95% betrouwbaarheidsinterval, 0.1-2.4, $p=$.42). Kinderen die behandeld waren met het Lidcombe Programma lieten na 3 maanden een significant grotere afname zien van het percentage gestotTERde lettergrepen dan de kinderen die behandeld waren volgens het DCM model (significant interaction time x therapy: $\beta = -1.89$; $t(282.82) = -2.807$, $p = .005$). Na 18 maanden was de stotTERfrequentie 1.2% (SD 2.1) voor het Lidcombe Programma en 1.5% (SD 2.1) voor behandeling gebaseerd op het DCM model.</p> <p>Secundaire uitkomsten: Voor de uitkomstmaat ernstbepaling van het stotTERen door de ouder, werd een significant effect van tijd (adjusted $p < .001$), als ook een significante interactie tussen tijd en therapietype (adjusted $p < .001$) waargenomen. Er is sprake van een iets grotere afname in de scores van de LP groep over de periode van 18 maanden. Voor de uitkomsten EQ-VAS en KiddyCAT werd geen significant verschil van therapie type gevonden. De factor therapietype was significant voor alle CBCL schaalcores, maar dit effect was toe te schrijven aan significant hogere scores van de LP groep bij de beginmeting. Significante interacties tussen therapie type en leeftijd werden vastgesteld (clinicus: adjusted $p = .01$; kind: adjusted $p = .01$) voor de ernstbepaling door de clinicus als ook door het kind na 18 maanden. De kleine eta-squared waardes (0.079 en 0.088, respectievelijk) suggereren dat deze verschillen te verwaarlozen zijn.</p>
<p>Original Authors' Conclusions</p> <p>Achtien maanden na de start van de behandeling hebben Lidcombe en DCM even goede resultaten opgeleverd. Het Lidcombe Programma reduceert het stotTERen sneller gedurende de eerste drie maanden t.o.v. behandeling met het DCM model. Toekomstig onderzoek gericht op de rol van de cliënt en factoren gerelateerd aan de clinicus, de effectiviteit van een gecombineerde directe en indirecte benadering en kosteneffectiviteit van een gelimiteerde behandelduur of -frequentie moet meer duidelijkheid verschaffen omtrent de effectiviteit van stotTERtherapie bij jonge stotTERende kinderen.</p>
<p>Critical Appraisal</p> <p>Validity</p> <p>Toewijzing van de interventie aan de kinderen was gerandomiseerd. Een softwareprogramma werd gebruikt voor de toewijzing van de kinderen aan een behandelarm. Effectbeoordelaars waren geblindeerd voor de behandeling en het meetmoment. De groepen waren aan het begin van de trial vergelijkbaar, dit was statistisch getoetst, hierdoor zijn significante verschillen tussen de groepen bij aanvang van de therapie uitgesloten. Van een voldoende proportie van alle ingesloten kinderen was een volledige follow-up beschikbaar; er is een powerberekening uitgevoerd waarbij een 22% drop-out rate was toegestaan, de drop-out rate is 11% geweest. Alle ingesloten cliënten zijn geanalyseerd in de groep waarin ze waren gerandomiseerd. Alle spraak- taalpathologen waren getraind en ervaren in het geven van beide behandelingen. Om ethische redenen ontbrak er een controlegroep waardoor het potentiële effect niet onderscheiden kan worden van spontaan herstel. In de discussie wordt goed onderbouwd met literatuur waarom het gevonden effect niet (volledig) is toe te schrijven aan spontaan herstel. Co-interventie is niet vermeden omdat dit de externe validiteit beperkt. Veel kinderen bleken niet geschikt voor deelname (voldeden niet aan de inclusie criteria), hierdoor zijn de resultaten mogelijk niet volledig generaliseerbaar naar alle jonge kinderen die naar een kliniek gaan voor hun stotTERen.</p>
<p>Interpretation of Results</p> <p>Deze studie toont aan dat beide behandelingen ten opzichte van elkaar even effectief zijn. Er is geen significant verschil aangetoond, na 18 maanden, tussen de verschillende soorten behandeling. Dit resultaat is gebaseerd op een studie van gemiddeld-sterke kwaliteit, de studie is goed uitgevoerd maar er ontbreekt een controlegroep die geen behandeling onderging. Omdat deze studie een vergelijkend onderzoek zonder onbehandelde controlegroep betreft, kan geen uitspraak worden gedaan over de effectiviteit van de behandelingen. Ethische aspecten zullen hierbij een rol hebben gespeeld. Het Lidcombe Programma had iets betere scores op de meeste andere secundaire uitkomstmaten, maar er was geen sprake van een significant verschil.</p>
<p>Summary/Conclusion</p> <p>Na 18 maanden was het effect van behandeling met het Lidcombe Programma niet significant effectiever dan behandeling gebaseerd op het DCM model en vice versa.</p>