

Richtlijn

‘Stotteren bij kinderen, adolescenten en volwassenen’

Initiatief

Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie (NVST)
Nederlandse stottervereniging Demosthenes

Organisatie

CBO

Mandaterende verenigingen / instanties

Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie (NVLF)
NVST
Demosthenes

Financiering

Deze richtlijn is tot stand gekomen met financiële steun van de NVLF, het Damsté-Terpstra Fonds, Demosthenes en de NVST

Colofon: **Richtlijn Stotteren bij kinderen, adolescenten en volwassenen**

© Copyright



NEDERLANDSE VERENIGING VOOR LOGOPEDIE EN FONIATRIE

Steinhagenseweg 2b

Postbus 75

3446 GP Woerden

3440 AB Woerden

T: 0348-457070

F: 0348-418290

E: logopedie@nvlf.nl

KvK Rotterdam 40464115

Verwijzing naar de richtlijn kan middels: 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). *Evidence-based Richtlijn Stotteren bij kinderen, adolescenten en volwassenen*. Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie, Woerden.

Alle rechten voorbehouden.

De tekst uit deze publicatie mag worden verveelvoudigd, opgeslagen in een geauto-matiseerd gegevensbestand, of openbaar gemaakt in enige vorm of op enige wijze, hetzij elektronisch, mechanisch door fotokopieën of enige andere manier, echter uitsluitend na voorafgaande toestemming van de uitgever.

Toestemming voor gebruik van tekst(gedeelten) kunt u schriftelijk of per e-mail en uitsluitend bij de uitgever aanvragen. Adres en e-mailadres: zie boven.

Het CBO, gevestigd in Utrecht, heeft tot doel individuele beroepsbeoefenaren, hun beroepsverenigingen en zorginstellingen te ondersteunen bij het verbeteren van de patiëntenzorg. Het CBO biedt via programma's en projecten ondersteuning en begeleiding bij systematisch en gestructureerd meten, verbeteren en borgen van kwaliteit van de patiëntenzorg.

Inhoudsopgave

Samenstelling Werkgroep	1
Samenstelling Klankbordgroep.....	1
Samenvatting van de aanbevelingen.....	2
1. Wat zijn de indicaties om kinderen, adolescenten en volwassenen met stotteren te behandelen?.....	2
2. Wat is de diagnostische waarde van tests bij kinderen en volwassenen met stotteren?	5
3. Wat zijn de effecten van stottertherapieën bij kinderen met stotteren tot zes jaar?	8
4. Wat zijn de effecten van stottertherapie bij adolescenten en volwassenen met stotteren? ...	10
5. Wat zijn de effecten van farmacotherapie in het kader van stottertherapie bij adolescenten en volwassenen met stotteren?	11
6. Wanneer en met welke reden dient een patiënt met stotteren door de logopedist te worden doorverwezen naar een logopedist-stotter-therapeut of naar een andere zorgverlener?	11
7. Hoe dient adequate nazorg te worden georganiseerd en uitgevoerd?	14
Hoofdstuk 1: Algemene inleiding en verantwoording.....	16
1.1 Achtergrond en aanleiding	16
1.2 Doelen van de richtlijn.....	17
1.3 Doelpopulatie	17
1.4 Beoogde gebruikers	17
1.5 Primair betrokkenen in de richtlijnontwikkeling	18
1.6 Werkgroep en klankbordgroep	18
1.7 Patiëntperspectief	18
1.8 Werkwijze	19
1.9 Disseminatie en Implementatie	22
1.10 Juridische betekenis richtlijnen	22
1.11 Herziening van de richtlijn.....	22
1.12 Financiering.....	22
Hoofdstuk 2: Stotteren en logopedie	24
2.1 Beschrijving van stotteren	24
2.1.1 Epidemiologie.....	24
2.1.2 Oorzaak stotteren.....	25
2.1.3 Stotteren en het International Classification of Functioning Disability and Health (ICF) model.....	27
2.1.4 De ontwikkeling van stotteren	29

2.1.5 Diagnostiek	30
2.2 Behandeling	31
2.2.1 Behandelaars	31
2.2.2 Werkwijze	32
2.2.3 Behandeling volwassenen en adolescenten	33
2.2.4 Behandeling kinderen.....	34
Hoofdstuk 3: Wat zijn de indicaties om kinderen, adolescenten en volwassenen met stotteren te behandelen?	37
3.1 Inleiding.....	37
3.2 Methode	37
3.3 Onderbouwing	37
3.3.1 Prevalentie en incidentie	38
3.3.2 Familiegeschiedenis	38
3.3.3 Geslacht	38
3.3.4 Stottersymptomen	39
3.3.5 Fonologische ontwikkeling	40
3.3.6 Receptieve en expressieve taal.....	40
3.3.7 Bijkomende stoornissen.....	40
3.3.8 Temperament en sociaal-emotioneel welbevinden.....	41
3.3.9 Therapie	41
3.4 Van bewijs naar aanbevelingen	42
Hoofdstuk 4: Wat is de diagnostische waarde van tests bij kinderen en volwassenen met stotteren?.....	47
4.1 Inleiding.....	47
4.2 Methode	48
4.3 Onderbouwing	49
4.4 Van bewijs naar aanbevelingen	57
Hoofdstuk 5: Wat zijn de effecten van stottertherapieën bij kinderen met stotteren tot zes jaar?	60
5.1 Inleiding.....	60
5.2 Methode	60
5.3 Onderbouwing	60
5.4 Van bewijs naar aanbeveling	66
5.4.1 Zekerheid ten aanzien van effectgrootte	66
5.4.2 Balans van gewenste en ongewenste effecten	66
5.4.3 Waarden en voorkeuren	66

5.4.4 Kosten van een therapie.....	67
Hoofdstuk 6: Effectiviteit van stottertherapieën bij kinderen in de leeftijd van van 6 tot 13 jaar	69
6.1 Inleiding.....	69
6.2 Methode.....	69
6.3 Onderbouwing.....	70
6.3.1 Overzicht van systematische reviews van studies naar effectiviteit van stottertherapieën bij kinderen tussen 6 en 13 jaar	70
6.3.2 Individuele (internationale) studies naar effectiviteit van stottertherapieën bij kinderen tussen 6 en 13 jaar	74
6.3.3 Sociaal-cognitieve gedragstherapie	76
6.4 Van bewijs naar aanbeveling	78
6.4.1 Zekerheid ten aanzien van effectgrootte.....	78
6.4.2 Balans van gewenste en ongewenste effecten	78
6.4.3 Waarden en voorkeuren	79
6.4.4 Kosten van een therapie.....	79
Hoofdstuk 7: Effectiviteit van stottertherapieën bij adolescenten en volwassenen.....	84
7.1 Inleiding.....	84
7.2 Methode.....	84
7.3 Onderbouwing.....	85
7.3.1 Overzicht van systematische reviews van studies naar effectiviteit van gedragsinterventies	85
7.3.2 Individuele (internationale) studies naar effectiviteit van cognitieve en/of gedragsinterventies, verschenen na publicatie van systematische reviews.....	92
7.3.3 Studies naar effectiviteit van cognitieve en gedragsinterventies, toegepast in Nederland in de afgelopen jaren.....	97
7.4 Van bewijs naar aanbeveling	105
7.4.1 Zekerheid ten aanzien van de effectgrootte	105
7.4.2 Balans van gewenste en ongewenste effecten	105
7.4.3 Waarden en voorkeuren	107
7.4.4 Kosten van een therapie.....	110
Hoofdstuk 8: Effectiviteit van farmacotherapie bij adolescenten en volwassenen.....	114
8.1 Inleiding.....	114
8.2 Methode.....	114
8.3 Onderbouwing.....	114
8.3.1 Overzicht van systematische reviews.....	114
8.3.2 Individuele studies naar de werkzaamheid en veiligheid van farmaca.....	116

8.4 Van evidence naar aanbeveling	118
8.5.1 Zekerheid ten aanzien van effectgrootte	118
8.5.2 Balans van gewenste en ongewenste effecten	118
8.5.3 Waarden en voorkeuren	118
Hoofdstuk 9: Wanneer en met welke reden dient een patiënt met stotteren door de logopedist te worden doorverwezen naar een logopedist-stottertherapeut of naar een andere zorgverlener?	120
9.1 Inleiding.....	120
9.2 Methode.....	120
9.3 Onderbouwing.....	121
9.3.1 Sociaal-emotionele problematiek	121
9.3.2 Verloop therapie	122
9.4 Van evidence naar aanbeveling	123
Hoofdstuk 10: Hoe dient adequate nazorg te worden georganiseerd en uitgevoerd?.....	129
10.1 Inleiding.....	129
10.2 Methode	129
10.3 Onderbouwing.....	131
10.4 Van onderbouwing naar aanbeveling.....	132
10.4.1 Gewenste en ongewenste effecten van nazorg versus zelfhulp	132
10.4.2 Professioneel en patiënten perspectief	132
10.4.3 Kosten van nazorg	133
Bijlage 1: De Gestandaardiseerde Logopedie Stottertherapie (GLS).....	135
Bijlage 2: Beoordeling studies	137
Bijlage 3: Evidence tabel effectiviteit van gedragsinterventies	140
Bijlage 4: Evidence tabel gedrags- en cognitieve interventies	141
Bijlage 5: Overzicht van zoekacties voor stotteren.....	142
Bijlage 6: Definities en begrippen	146
Bijlage 7: Knelpuntenanalyse richtlijn Stotteren.....	154
Bijlage 7: Afkortingen.....	158

Samenstelling Werkgroep

- Bast, dr. E.J.E.G., Demosthenes
- Bezemer M., Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie (NVST)
- Beer, dr. ir. J.J.A. de, CBO
- Bunschoten, E.M., Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie (NVST)
- Kalter, E., MSc., Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie (NVLF)
- Kuijpers, dr. A.C., CBO (tot maart 2013)
- Oonk, L.C., MSc., voorzitter werkgroep
- Ormondt, J. van, MSc., Demosthenes
- Pertijs, M.A.J., MSc., projectleider werkgroep
- Rosenbrand, drs. C.J.G.M., CBO
- Veenendaal, drs. H. van, CBO
- Wijngaarden, van, L.J., Vereniging Stottercentra Nederland (VSN)

Met dank aan:

Marie-Christine Franken voor haar bijdrage aan de richtlijn aanbeveling *Wat zijn indicaties om kinderen, adolescenten en volwassenen met stotteren te behandelen?*

Hanneke Kalf voor haar bereidwilligheid de rol van adviseur op afstand te aanvaarden.

Rikie Deurenberg (CBO) voor haar bijdrage aan het literatuuronderzoek en Mona van der Steeg (CBO) voor begeleiding van de focusgroepbijeenkomst.

Samenstelling Klankbordgroep

- Franken, drs. M.F.F., Nederlandse Vereniging van Keel-Neus-Oorheelkunde en Heelkunde van het Hoofd-Halsgebied
- Heijden, van der, D., Nederlandse Vereniging voor Arbeids- en Bedrijfsgeneeskunde
- Hofkamp, drs. M., Nederlandse Vereniging voor Kindergeneeskunde
- Diepeveen, drs. F.B., Artsen Jeugdgezondheidszorg Nederland
- Lamers, M.C.C., Landelijke Beroepsgroep voor Intern begeleiders
- Nobel, drs. S.J.M., Nederlands Huisartsen Genootschap
- Visscher, drs. A., Nederlands Instituut van Psychologen

Samenvatting van de aanbevelingen

1. Wat zijn de indicaties om kinderen, adolescenten en volwassenen met stotteren te behandelen?

Stotteren is een stoornis in de vloeiendheid van het spreken. De eerste symptomen worden meestal waargenomen in de eerste jaren van het leven, met name als een kind in zinnen gaat spreken. Stotteren kan uitgroeien tot een communicatieprobleem dat de sociale ontwikkeling en het persoonlijk welbevinden ernstig belemmert. Op latere leeftijd kan stotteren hardnekkig zijn en lastig te behandelen. Er zijn aanwijzingen uit klinische studies dat vroegtijdige interventie de kans op herstel van het stotteren vergroot. Een groot deel van de kinderen die beginnen te stotteren herstelt echter zonder een dergelijke interventie (50 tot 94%). Cijfers over spontaan herstel vertonen grote verschillen en de verschillende risicofactoren op blijvend stotteren zijn slechts in beperkte mate onderzocht.

In dit hoofdstuk worden aanbevelingen geformuleerd die het voor logopedisten en logopedist-stottertherapeuten mogelijk maken om weloverwogen beslissingen te nemen om de persoon die stottert te gaan behandelen of om de ontwikkeling van mogelijk spontaan herstel te monitoren. Het begrip monitoren wordt in het kader nader toegelicht.

Kwaliteit van bewijs

Voor de advisering met betrekking tot de vraag wanneer personen die stotteren dienen te worden behandeld spelen *spontaan herstel en effectiviteit van behandeling* een belangrijke rol.

Het effect van behandeling van kinderen voor de leeftijd van zes jaar op de frequentie van het stotteren is groot en er bestaat een redelijke zekerheid dat de schatting van deze effectgrootte overeenkomt met de werkelijke effectgrootte. Behandeling van oudere kinderen, adolescenten en volwassenen is minder effectief in het reduceren van het percentage gestotterde lettergrepen. Er zijn onvoldoende gegevens beschikbaar om te bepalen hoe effectief de behandeling van stotteren is op de uitkomstmaten kwaliteit van leven, vermijdingsgedrag, participatie en natuurlijkheid van spreken.

Monitoring

Monitoring is een actief proces waarbij de logopedist (of logopedist-stottertherapeut) de ontwikkeling van het stotteren systematisch volgt. Na het diagnose-adviesgesprek traint de logopedist de ouders in het gericht observeren en registreren van de stottersymptomen van het kind. De logopedist traint de ouders tot zij overeenstemming hebben over de waargenomen ernst van het stotteren. In overleg met de ouders wordt het te gebruiken registratiesysteem, de frequentie van registreren, als mede de wijze en frequentie van terugkoppelen van de geregistreerde gegevens naar de logopedist bepaald en vastgelegd. Gedurende het proces van monitoring houdt de logopedist contact met de ouders en bewaakt of de wijze van beoordelen van de stotterernst door de ouders nog in overeenstemming is met de eigen

beoordeling. Minimaal één keer per half jaar wordt een herhalingsonderzoek uitgevoerd. Deze herhalingsonderzoeken vinden bij voorkeur plaats een half jaar nadat het kind is gaan stotteren en één jaar nadat het kind is gaan stotteren.

Aanbevelingen

De onderstaande aanbevelingen dienen in samenhang beoordeeld te worden.

1. De behandeling van stotteren, ontstaan bij kinderen voor de leeftijd van vier jaar, begint voor de leeftijd van vijf jaar.
2. De logopedist of logopedist-stottertherapeut monitort de ontwikkeling van het stotteren, ontstaan bij kinderen voor de leeftijd van vier jaar, gedurende één jaar nadat de eerste stotter signalen zijn waargenomen om na te gaan of er signalen van spontaan herstel optreden.
3. De logopedist of logopedist-stottertherapeut start de behandeling 12 maanden nadat de eerste stotter symptomen zijn waargenomen indien de ernst van het stotteren de laatste 3-6 maanden niet duidelijk* is afgenomen.
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.
5. De logopedist of logopedist-stottertherapeut start de behandeling, ook als het stotteren minder dan 6 maanden aanwezig is, indien het kind onder het stotteren lijdt, ouders bezorgd zijn over het stotteren of het kind weerszin krijgt om te communiceren.
6. Indien bij een kind onder de 6 jaar het vermoeden bestaat van de aanwezigheid van stotteren, dienen ouders de Screeningslijst Stotteren (SLS) in te vullen om te bepalen of nadere diagnostiek door de logopedist of logopedist-stottertherapeut nodig is.
7. De logopedist of logopedist-stottertherapeut informeert de zorgverleners, leerkrachten en begeleiders van peuterspeelzalen en kinderdagverblijven binnen zijn/haar netwerk over het doel en het gebruik van de SLS en zij stellen de SLS beschikbaar bijvoorbeeld door informatie te geven over websites waarop de SLS te raadplegen is.
8. Bij kinderen ouder dan 6 jaar, adolescenten of volwassenen met een hulpvraag op gebied van stotteren, bepaalt de logopedist of logopedist-stottertherapeut, samen met de hulpvrager, op grond van een inventarisatie van ICF-elementen op de voor de persoon die stottert (PDS) belangrijke uitkomstmaten of behandeling geïndiceerd is.

* een duidelijke afname van het stotteren komt overeen met een gemiddelde vermindering van minimaal 2 punten op de 8-puntsschaal voor stotterernst (Yairi & Ambrose, 2005) of een gemiddelde vermindering van 2 punten op de schaal voor stotterernst behorende bij het Lidcombe Programma. Deze afname in ernst dient zowel door de ouder als de logopedist / logopedist-stottertherapeut te worden geconstateerd.

Rationale voor de aanbevelingen

- Stotteren kan ernstige gevolgen hebben op de kwaliteit van leven van kinderen en volwassenen die stotteren.
- Behandelen van jonge stotterende kinderen is effectiever dan behandelen van kinderen die 6 jaar of ouder zijn: de kans op terugval is kleiner en de kans op blijvend herstel groter (Ingham & Cordes, 1998; Lincoln et al. 1996; Koushik et al. 2009).

- Behandeling van stotteren voordat het stotteren 15 maanden aanwezig is geeft een hogere kans op herstel dan behandeling van stotteren gestart als het stotteren meer dan 15 maanden aanwezig is (Ingham & Cordes, 1998).
- Waarneming van de eerste symptomen van stotteren na 4- of 5-jarige leeftijd wordt geassocieerd met een verhoogde kans op blijvend stotteren (Yairi & Ambrose, 2005; Seery & Yairi, 2011).
- Een grote groep kinderen die begint met stotteren herstelt volledig zonder behandeling. Er bestaan echter grote verschillen in de cijfers over spontaan herstel (Yairi & Ambrose, 2013; Onslow & O'Brian, 2013).
- Indien een jaar nadat de eerste stotteringsymptomen zijn waargenomen het stotteren nog aanwezig is, neemt zonder behandeling de kans op blijvend stotteren toe (Yairi & Ambrose, 2005; Seery & Yairi, 2011).
- Een neerwaartse trend in de stotterernst gedurende het eerste jaar nadat de eerste stotteringsymptomen zijn waargenomen is een duidelijk signaal voor mogelijk herstel.
- Afname van het aantal herhalingen, van het aantal units per herhaling, van blokkades en verlengingen en van bijkomende lichamelijke gedraging evenals verlaging van het tempo van de herhalingen zijn gunstige voorspellers voor herstel (Yairi & Ambrose, 2005; Seery & Yairi, 2011).
- De ernst van het stotteren is het eerste jaar geen voorspeller voor blijvend stotteren of voor herstel van het stotteren (Yairi & Ambrose, 2005; Seery & Yairi, 2011).
- Stotterernst, aanwezigheid van secundair gedrag, blokkades en verlengingen zijn voorspellers voor blijvend stotteren als het stotteren één jaar of langer aanwezig is (Yairi & Ambrose, 2005; Seery & Yairi, 2011).
- Wanneer ouders/verzorgers bezorgd zijn over het stotteren van hun kind, is therapeutische interventie geïndiceerd (Reilly et al, 2013).
- De gemiddelde gewogen Stuttering Like Dysfluencies (SLD1) score neemt een half jaar tot een jaar na het ontstaan van het stotteren met meer dan de helft af bij de groep kinderen die herstelt van het stotteren. De gemiddelde gewogen SLD-score bij de groep kinderen die blijft stotteren neemt een half jaar tot een jaar na het ontstaan van het stotteren minimaal af. Een vergelijkbare tendens is zichtbaar voor stotterernst (Yairi & Ambrose, 2005).
- Indien blijvend stotteren in de familie aanwezig is dan is de kans op blijvend stotteren van het kind 65%. Bij aanwezigheid van hersteld stotteren in de familie van het kind dat stottert is de kans op herstel 65% (Yairi & Ambrose, 2005; Seery & Yairi, 2011). Op jonge leeftijd is de verhouding jongens die stotteren en meisjes die stotteren 2:1. De ratio stotterende mannen-vrouwen bij volwassenen is ongeveer 4:1. Meisjes herstellen sneller. Indien bij een meisje dat stottert één jaar na het ontstaan van het stotteren geen duidelijk herstel merkbaar is dan neemt de kans op blijvend stotteren toe (Yairi & Ambrose, 2005; Seery & Yairi, 2011).
- Bijkomende stoornissen, een hogere negatieve reactiviteit en lagere zelfregulatie kunnen de stotterproblematiek compliceren en de kans op blijvend stotteren verhogen.
- Ouders van kinderen die stotteren melden regelmatig dat zij te laat zijn verwezen naar de logopedist of logopedist-stottertherapeut.

¹ De gewogen SLD-score is ontwikkeld om licht, maar duidelijk stotteren beter te kunnen onderscheiden van normaal onvloeiend spreken. In de gewogen SLD-score tellen blokkades en verlengingen twee keer zo zwaar mee, terwijl aanwezige herhalingen worden gewogen met hun aantal units, bijv: i-ik telt 1 keer mee en i-i-i-ik 3 keer.

- De SLS is in Nederland meest gehanteerde screeningsinstrument voor stotteren. De SLS is gratis beschikbaar via diverse websites.

2. Wat is de diagnostische waarde van tests bij kinderen en volwassenen met stotteren?

Stotteren wordt beschouwd als een multifactorieel probleem. Diagnostiek van stotteren is meer dan vaststellen of er al dan niet sprake is van stotteren. Tijdens de assessment fase dient de logopedist de verschillende ICF-domeinen (functies, externe factoren, contextuele factoren, persoonlijke factoren, participatie en activiteiten) uit te diepen en hun onderlinge samenhang te inventariseren, analyseren en interpreteren. De Gestandaardiseerde Logopedie Stottertherapie (GLS) (zie bijlage 1) biedt de logopedist hiertoe een handvat. Voor het verkrijgen van een zo compleet mogelijk beeld hanteert de logopedist de op dat moment beste beschikbare diagnostische instrumenten en betreft alle voor de diagnostiek relevante personen uit de omgeving van de cliënt in het assessment. In dit hoofdstuk wordt de waarde van de in Nederland meest gehanteerde diagnostische instrumenten besproken.

Conclusie over de diagnostische waarde van onderzoeksinstrumenten

De validiteit, betrouwbaarheid en normering van de onderstaande instrumenten zijn op verzoek van de werkgroep door middel van literatuuronderzoek onderzocht (zie hoofdstuk 4). Per instrument wordt de conclusie uit het literatuuronderzoek vermeld:

- **Nederlandse vertaling van de Overall Assessment of the Speaker's Experience of Stuttering voor kinderen** van 7-12 jaar (OASES-S-D)
Conclusie: De betrouwbaarheid van de OASES-S-D is nog onvoldoende onderzocht. Criteriumvaliditeit en begripsvaliditeit zijn adequaat. Informatie over de normering is incompleet.
- **Nederlandse vertaling van de Overall Assessment of the Speaker's Experience of Stuttering voor tieners** van 13-17 jaar (OASES-T-D)
Conclusie: De betrouwbaarheid van de OASES-T-D is nog onvoldoende onderzocht. Criteriumvaliditeit en begripsvaliditeit zijn adequaat. Informatie over de normering is incompleet.
- **Nederlandse vertaling van de Overall Assessment of the Speaker's Experience of Stuttering voor volwassenen** (OASES-A-D).
Conclusie: De betrouwbaarheid van de OASES-A-D is nog niet voldoende onderzocht om dit meetinstrument als een valide en betrouwbaar diagnostisch instrument te kunnen bestempelen. Informatie over de normering ontbreekt.
- **Communication Attitude Test** (onderdeel van Behavior Assessment Battery kinderen)
Conclusie: De validiteit van de CAT voor kinderen is adequaat getuige de positieve bevindingen ten aanzien van begripsvaliditeit, inhoudsvaliditeit en criteriumvaliditeit. De betrouwbaarheid lijkt evenals de normering adequaat.
- **Behavior Checklist** (onderdeel van Behavior Assessment Battery kinderen)
Conclusie: De validiteit van de Behavior Checklist bij kinderen is adequaat getuige de positieve bevindingen ten aanzien van begripsvaliditeit, inhoudsvaliditeit en criteriumvaliditeit. De betrouwbaarheid is niet onderzocht. De normering lijkt adequaat.

- **Speech Situation Checklist** (onderdeel van Behavior Assessment Battery kinderen)
Conclusie: De validiteit van de SSC-ER en SSC-SD bij kinderen is adequaat getuige de positieve bevindingen ten aanzien van begripsvaliditeit, inhoudsvaliditeit en criterium validiteit. De betrouwbaarheid is ten dele onderzocht. De normering lijkt adequaat.
- **Erickson S-24** (onderdeel van Behavior Assessment Battery volwassenen)
Conclusie: De validiteit van de S-24 is adequaat getuige de positieve bevindingen ten aanzien van begripsvaliditeit, inhoudsvaliditeit en criterium validiteit. De betrouwbaarheid is ten dele onderzocht. De normering lijkt adequaat.
- **Behavior Checklist** (onderdeel van Behavior Assessment Battery **volwassenen**)
Conclusie: De validiteit van de Behavior Checklist is adequaat getuige de positieve bevindingen ten aanzien van begripsvaliditeit, inhoudsvaliditeit en criterium validiteit. De betrouwbaarheid is niet onderzocht. Voor de normering is verder onderzoek nodig.
- **Speech Situation Checklist** (onderdeel van Behavior Assessment Battery **volwassenen**)
Conclusie: De validiteit van de SSC is adequaat getuige de positieve bevindingen ten aanzien van begripsvaliditeit, inhoudsvaliditeit en criteriumvaliditeit. De betrouwbaarheid is ten dele onderzocht. De normering lijkt adequaat.
- **Communication Attitude Test-DR**
Conclusie: De begripsvaliditeit van de CAT-DR lijkt voldoende. Over andere aspecten van validiteit is geen informatie bekend. De betrouwbaarheid lijkt voldoende. Dit geldt echter niet voor de normering.
- **Screeningslijst stotteren**
Conclusie: Informatie over validiteit, betrouwbaarheid en normering is niet beschikbaar of toegankelijk.
- **Detectie instrument stotteren (DIS)**
Conclusie: Over de validiteit en betrouwbaarheid van het Detectie Instrument Stotteren en de Screeningslijst Stotteren is onvoldoende informatie bekend/beschikbaar om een oordeel over de validiteit en betrouwbaarheid van dit instrument te vellen.
- **Test voor stotterernst lezers / niet-lezers (TVS-L/TVS-NL)**
Conclusie: Over de inhoudsvaliditeit wordt matig gerapporteerd. De criterium validiteit van de TVS-L/TVS-NL lijkt voldoende. Er wordt geen informatie over de begripsvaliditeit gegeven. De betrouwbaarheid lijkt niet in alle opzichten voldoende. Dit geldt eveneens voor de normering.
- **Stuttering severity instrument (SSI)** (Engelstalige versie 3/4)
Conclusie: De validiteit en betrouwbaarheid van de Engelstalige SSI-4 zijn beter onderzocht dan die van de Engelstalige SSI-3. De validiteit voldoet aan de criteria die aan een daadwerkelijk valide test kunnen worden gesteld. Dit kan niet worden gezegd van de normering, terwijl de betrouwbaarheid moeilijk valt te beoordelen.

Kwaliteit van bewijs

Voor geen enkel instrument zijn alle facetten van validiteit en betrouwbaarheid onderzocht. Dit houdt in dat er geen volledig bewezen valide en betrouwbare test voorhanden is, met adequate normering. Nochtans komen de Behavior Assessment Battery (BAB) (kinderen en volwassenen) en de SSI als meest valide en betrouwbare instrumenten naar voren.

Waarden en voorkeuren

a. Personen die stotteren

Voordelen van de SSI 3/4:

- is voor de cliënt/patiënt weinig belastend met een minimum aan tijdsinvestering;

Nadelen van de SSI 3/4:

- De SSI 3/4 betreft een Engelstalige test, er is geen Nederlandse vertaling voorhanden.

Nadelen van de BAB (volwassenen en kinderen):

- is tijdsintensief;
- bevat Vlaamse uitdrukkingen;
- vraagt een goede beheersing van de Nederlandse taal.

b. Logopedisten - stottertherapeuten

Voordelen van de SSI 3/4:

- is voor de cliënt/patiënt weinig belastend met een minimum aan tijdsinvestering;
- wordt internationaal toegepast;
- meet zowel binnen als buiten de praktijksetting.

Nadelen van de SSI 3/4:

- De SSI 3/4 betreft een Engelstalige test, er is geen Nederlandse vertaling voorhanden.

Voordelen van de BAB:

- het best onderzocht en scoort goed op validiteit en betrouwbaarheid;
- sluit goed aan op het ICF-kader.

Nadelen van de BAB (volwassenen en kinderen):

- is tijdsintensief;
- bevat Vlaamse uitdrukkingen;
- vraagt een goede beheersing van de Nederlandse taal.

De OASES biedt mogelijkheden voor de toekomst, maar is nog niet verkrijgbaar in het Nederlands.

c. Kosten

Nadelig is de hoge aanschafprijs van de Behavior Assessment Battery (BAB) voor kinderen en volwassenen.

Aanbevelingen

Uitgangspunt voor onderstaande aanbevelingen is dat de logopedist werkt conform het logopedisch methodisch handelen. Er wordt vanuit gegaan dat de klachten en de hulpvraag zijn verkend en dat een anamnestic interview heeft plaatsgevonden met de PDS en/of ouders/verzorgers.

9. De logopedist of logopedist-stottertherapeut dient de ernst van het stotteren te bepalen met een daarvoor geschikt instrument. De Stuttering Severity Instrument (SSI) - zowel binnen als buiten praktijk setting - heeft de voorkeur boven de Test voor stotterernst lezers / niet-lezers (TVS-L/NL) omdat de SSI internationaal gangbaar is, valide is en betrouwbaar lijkt.
10. De logopedist of logopedist-stottertherapeut dient stotterproblematiek op basis van de ICF te inventariseren. Daarbij dient aandacht te zijn voor functies, externe factoren, contextuele factoren, persoonlijke factoren, participatie en activiteiten. Als diagnostisch instrument wordt voor *kinderen vanaf 6 jaar, adolescenten en volwassenen* de Behavior Assessment Battery aanbevolen (*in de rationale zullen we erop wijzen dat er met name vanwege de Vlaamstaligheid wel beperkingen aan kleven*). Voor *kinderen jonger dan 6 jaar* wordt geen specifieke aanbeveling gegeven vanwege het ontbreken van voor deze leeftijdsgroep specifieke diagnostische instrumenten. Er wordt in dit verband verwezen naar de GLS (zie bijlage 1).

Rationale voor de aanbevelingen

- Aan de validiteit, betrouwbaarheid, beschikbaarheid, en aansluiten bij internationale ontwikkelingen is een relatief groot gewicht toegekend, en minder aan factoren als kosten, tijdsbeslag en taal van de BAB.

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

De meest gehanteerde interventies voor de behandeling van stotteren bij kinderen tot 6 jaar. In Nederland zijn het 'Lidcombe Programma' en therapie gebaseerd op het 'Verwachtingen en Mogelijkheden Model'. In dit hoofdstuk wordt de werkzaamheid van het 'Verwachtingen en Mogelijkheden Model' en het 'Lidcombe Programma' beschreven. Aanvullend wordt de werkzaamheid van behandeling met Speech Motor Training en Sociaal-cognitieve gedragstherapie besproken.

Uitgangspunt is dat de werkzaamheid van een stottertherapie in interventiestudies met een controlegroep, bij voorkeur in een 'randomised controlled trial (RCT)', is geëvalueerd. Studies waarbij een stottertherapie met 'niets doen' wordt vergeleken en studies waarbij verschillende stottertherapieën worden vergeleken, komen aan bod. De effectiviteit van stottertherapieën is geëvalueerd voor de volgende uitkomstmaten:

- stotterernst;
- vermijdingsgedrag (secundair gedrag);
- participatie;
- kwaliteit van leven;
- natuurlijkheid van het spreken.

Vanuit het perspectief van de persoon die stottert zijn alle uitkomstmaten cruciaal, behalve natuurlijkheid van het spreken, die een lagere relevantie heeft. Een strikte vergelijking tussen de studies is lastig omdat vaak verschillende uitkomstmaten worden gehanteerd.

Voor de volgende hoofdstukken over de effectiviteit van stottertherapie en farmacotherapie bij andere doelgroepen, zijn dezelfde uitgangspunten en uitkomstmaten gehanteerd.

Aanbeveling

- | |
|---|
| 11. Informeer ouders van stotterende kinderen tot 6 jaar over de voordelen van behandelen van het stotteren in vergelijking met afwachten (vermindering van percentage gestotterde lettergrepen en stotterernst). Bepaal in overleg met de ouders van het jonge stotterende kind welke behandelmethode de voorkeur verdient, het 'Lidcombe Programma' of behandeling gebaseerd op het 'Verwachtingen en Mogelijkheden Model'. Bespreek hiervoor met de ouders de verschillen tussen de beide behandelingen. |
|---|

Rationale voor de aanbeveling

- Er is een redelijke mate van zekerheid dat behandelen van stotterende kinderen tot 6 jaar met het 'Lidcombe Programma' effectiever is in het verminderen van het percentage gestotterde lettergrepen in vergelijking met niet behandelen.
- Schadelijke effecten van behandeling met het 'Lidcombe Programma' werden niet aangetoond.
- Er is een geringe mate van zekerheid dat het effect van behandeling met het 'Lidcombe Programma' niet effectiever is dan behandeling gebaseerd op het 'Verwachtingen en Mogelijkheden Model' en vice versa.
- Het 'Lidcombe programma' en het 'Verwachtingen Mogelijkheden Model' verdienen de voorkeur boven behandelen met Speech Motor Training of Sociaal Cognitieve Gedragstherapie gezien de mate van zekerheid over de grootte van het behandel-effect

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

In dit hoofdstuk wordt de werkzaamheid van verschillende stottertherapieën bij kinderen in de leeftijd tussen 6 en 13 jaar beschreven.

Aanbeveling

- | |
|---|
| 12. 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 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. |
|---|

Rationale voor de aanbeveling

- Er is een (zeer) geringe mate van zekerheid over de omvang waarmee na behandeling van stotteren bij kinderen tussen 6 en 13 jaar het aantal gestotterde lettergrepen is gereduceerd.

- Er is onvoldoende bewijs dat één stottertherapie bij de behandeling van kinderen die stotteren in de leeftijd tussen 6 en 13 jaar effectiever is dan een andere stottertherapie.
- Er is een (zeer) geringe mate van zekerheid over de reductie van het aantal gestotterde lettergrepen na behandeling bij kinderen tussen 6 en 13. Deze is minder sterk dan bij kinderen tot 6 jaar en sterker dan bij adolescenten en volwassenen.
- Gezamenlijk bepalen van de doelstellingen op grond van diagnostiek en in overleg met het kind dat stottert en de ouders is gezien het multifactoriële karakter van stotteren gepast.

4. Wat zijn de effecten van stottertherapie bij adolescenten en volwassenen met stotteren?

In dit hoofdstuk wordt de werkzaamheid van diverse stottertherapieën bij adolescenten en volwassenen beschreven.

Aanbevelingen

13. Behandeling van stotteren voor adolescenten en volwassenen dient individueel gericht te zijn. Dit kan in een individuele en/of groepssetting plaatsvinden. De behandeling is gebaseerd op een in samenspraak tussen de logopedist/logopedist-stottertherapeut en de persoon die stottert ('shared decision making') opgesteld behandelplan dat alle ICF-elementen omvat. De wensen en behoeften van de persoon die stottert zijn de basis van dat behandelplan.
14. Afhankelijk van wat de persoon die stottert en de logopedist/logopedist-stottertherapeut overeengekomen zijn is de behandeling gericht op de psychosociale aspecten ((spreek-)angst en vermijdingsgedrag), op verbaal-motorische aspecten of op beide. Bij de behandeling van de psychosociale aspecten wordt cognitieve gedragstherapie aanbevolen.
15. Overige elementen van stottertherapie dienen te zijn: Bevorderen van transfer. Het is essentieel dat de persoon die stottert de geleerde vaardigheden en inzichten in het dagelijks leven toepast. Bevorderen van zelfmanagement en onderhoud. De persoon die stottert is in staat het stotteren en het daarmee samenhangende gedrag te evalueren en dit zo nodig bij te sturen.
16. In algemene zin wordt het gebruik van op AAF gebaseerde apparaten afgeraden. Echter, in specifieke situaties kan apparatuur bij een deel van de personen die stotteren voor een verlaging van het stotterpercentage zorgen. Men dient er rekening mee te houden dat het effect doorgaans uitdooft.

Rationale voor de aanbevelingen

- Diverse stottertherapieën hebben direct na behandeling positieve effecten op de stotterfrequentie die echter in grootte uiteenlopen. Zes maanden na de therapie rapporteren sommige studies behoud van de positieve effecten en andere studies (enige) terugval. De zekerheid over de effectgrootte is gering voor de uitkomstmaat stotterfre-

quentie, door beperkingen in de studie-opzet en aantal deelnemers. Andere uitkomstmaten dan stotterfrequentie zoals vermijdingsgedrag (situatievermijding en woordvermijding), natuurlijkheid van het spreken, participatie of kwaliteit van leven zijn onvoldoende onderzocht.

- De wetenschappelijke literatuur levert geen sterk bewijs dat de ene stottertherapie (veel) effectiever is dan een andere stottertherapie.
- Gezamenlijk bepalen van de keuze voor een specifieke stottertherapie op geleide van de wensen en behoeften van de persoon die stottert is dan ook gepast.
- Aan de kosten van stottertherapie heeft de werkgroep bij het opstellen van deze aanbeveling geen groot gewicht kunnen toekennen, onder meer vanwege het ontbreken van informatie over de huidige kosten.
- De aanbeveling voor therapie in een groepssetting berust op de ervaring van werkgroepleden en op de ervaringen van personen die stotteren, zoals verwoord tijdens een in het kader van deze richtlijn georganiseerde focusgroep. Therapie in een groepssetting kan de motivatie voor therapie versterken en een aanvulling zijn op lotgenotencontact.

5. Wat zijn de effecten van farmacotherapie in het kader van stottertherapie bij adolescenten en volwassenen met stotteren?

In dit hoofdstuk wordt de werkzaamheid van diverse farmaca bij adolescenten en volwassenen beschreven.

Aanbeveling

- | |
|--|
| 17. Gebruik van farmaca in het kader van stottertherapie wordt niet aanbevolen. Wanneer sprake is van co-morbiditeit en stotteren, wordt aanbevolen om in samenspraak met de PDS (en diens directe omgeving) en de voorschrijver van de farmaca te zoeken naar een passende dosis farmaca. |
|--|

Rationale voor de aanbevelingen

- Vrijwel alle farmaca gaan gepaard met bijwerkingen bij gebruik op langere termijn. Gegeven het in het algemeen ontbreken van significante effecten van farmaca enerzijds en potentiële bijwerkingen anderzijds is er geen reden om (langdurige) toepassing van farmaca aan te bevelen.

6. Wanneer en met welke reden dient een patiënt met stotteren door de logopedist te worden doorverwezen naar een logopedist-stottertherapeut of naar een andere zorgverlener?

Stotteren kan in grote mate de communicatie beïnvloeden en daarmee ook het sociale en emotionele welbevinden van de persoon die stottert. De behandeling kan complex zijn en zal niet altijd alleen door een logopedist of logopedist-stottertherapeut kunnen worden uitgevoerd.

In dit hoofdstuk wordt beschreven wat de indicaties zijn om door te verwijzen van de logopedist naar de gespecialiseerde logopedist-stottertherapeut, als ook van de logopedist of logopedist-stottertherapeut naar een andere hulpverlener. Voor de aanbevelingen is gebruik gemaakt van bevindingen uit de literatuur en van de kennis, ervaring en meningen van de werkgroepleden. Voor het patiëntperspectief is gebruik gemaakt van het verslag van de focusgroepbijeenkomst van personen die stotteren.

Bij het tijdig doorverwijzen is het van belang om bijkomende problematiek te signaleren. Hiervoor is gezocht naar geschikte instrumenten. Daarnaast is het zinnig om indien mogelijk, een indicatie te hebben na hoe lang er gemiddeld genomen effect mag worden verwacht van een therapie. Onvoldoende effect is een signaal dat er wellicht doorverwezen moet worden.

Bij door- of terugverwijzen is gekeken naar hoe de overdracht naar en de afstemming met andere behandelaars er uit zou kunnen zien.

Aanbevelingen

Deskundigheid

- | |
|--|
| 18. De logopedist dient de aanbevelingen uit deze richtlijn voor diagnostisch en therapeutisch handelen te kunnen uitvoeren. Indien de 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. |
|--|

In verband met sociaal-emotionele problematiek

- | |
|--|
| 19. Bij vermoeden van sociale angst of depressie bij de persoon die stottert op grond van de bevindingen bij de Behaviour Assessment Battery (BAB) dient de logopedist of logopedist-stottertherapeut dit te objectiveren met de Strength and Difficulties Questionnaire of de Vier Dimensionale KlachtenLijst. Bij een positieve indicatie dient de logopedist of logopedist-stottertherapeut te overleggen met de PDS of de ouders over een verwijzing naar de huisarts voor een mogelijke doorverwijzing naar een psycholoog of psychiater. |
| 20. De logopedist of logopedist-stottertherapeut dient na te vragen of er bij stotterende kinderen en jongeren sprake is van pesten. Hierbij kan de vragenlijst uit de JGZ richtlijn pesten worden gebruikt. Bij positieve indicatie dient de logopedist of logopedist-stottertherapeut dit met de ouders te bespreken en de mogelijke vervolgstappen af te spreken. |

In verband met verloop therapie

21. De logopedist/logopedist-stottertherapeut verschaft tijdens de intake informatie aan de persoon die stottert over de behandelmogelijkheden van logopedisten en logopedist-stottertherapeuten teneinde deze in staat te stellen tot het maken van een geïnformeerde keuze t.a.v. de behandeling. De logopedist of logopedist-stottertherapeut wijst onder meer op informatieve instanties en websites, zoals www.stotteren.nl.
22. Als de therapie gegeven door een logopedist bij stotterende kinderen tot zes jaar na 11 tot 12 behandel sessies of drie maanden behandeling onvoldoende progressie ten opzichte van de gestelde behandel doelen laat zien, dient een logopedist-stottertherapeut te worden geconsulteerd.
23. Als tijdens twee- of driemaandelijke evaluaties van het therapieproces blijkt dat de opgestelde realistische en haalbare behandel doelen onvoldoende zijn gerealiseerd volgens de persoon die stottert of de logopedist/logopedist-stottertherapeut, dan moet de behandelende logopedist of logopedist-stottertherapeut de mogelijkheid van verwijzing naar een andere behandelaar bespreken.

In verband met overdracht en afstemming bij doorverwijzing

24. De logopedist/logopedist-stottertherapeut formuleert bij doorverwijzing een vraagstelling waarin de voor de vraagstelling relevante elementen van de ICF zijn opgenomen. De logopedist/logopedist-stottertherapeut maakt binnen zijn/haar regio werkafspraken over samenwerking, door- en terugverwijzing en informatieoverdracht. Dit wordt met de samenwerkingspartners vastgelegd.

Rationale voor de aanbeveling

1. De complexiteit van stotteren en de bijkomende sociaal-emotionele problematiek vraagt van de therapeut specifieke deskundigheid.
2. Doorgaan met een therapie die onvoldoende effect heeft is ongewenst.
3. Bij de behandeling van jonge stotterende kinderen tot en met zes jaar treedt gemiddeld na 11-12 behandel sessies een significante verbetering van het stotteren op (Kingston, Huber, Onslow, Jones, & Packman, 2003; Millard, Nicholas, & Cook, 2008; Yaruss, Coleman, & Hammer, 2006)
4. Bij sommige personen die stotteren ontwikkelen zich serieuze emotionele problemen zoals depressies of sociale angst (Blumgart, Tran, & Craig, 2010; Iverach & Rapee, 2013; Koedoot, Bouwmans, Franken, & Stolk, 2011; Tran, Blumgart, & Craig, 2011).
5. Kinderen en jongeren die stotteren hebben een grotere kans om gepest te worden en ervaren van hun leeftijdsgenoten negatieve reacties op hun stotteren (Blood et al, 2010; Langevin, 2009).
6. De logopedist-stottertherapeut heeft extra expertise in het behandelen van stotteren.
7. De logopedist en logopedist-stottertherapeut zijn niet toegerust om complexe of ernstige sociaal-emotionele problematiek, al dan niet als gevolg van het stotteren, te behandelen.

8. Voor signalering van sociaal-emotionele problematiek wordt bij kinderen van 3 tot 13 jaar de Strength and Difficulties Questionnaire (SDQ) aanbevolen (Ruiter & Jong, 2013). Deze is eenvoudig in het gebruik en is vrij verkrijgbaar (www.sdqinfo.org).
9. Voor signalering van sociaal-emotionele problematiek bij jongeren en volwassenen wordt de Vierdimensionale KlachtenLijst (4DKL) of de Depressieherkenningsschaal (DHS) aanbevolen (Ruiter & Jong, 2010). Beide instrumenten zijn eenvoudig in het gebruik en zijn vrij verkrijgbaar via www.trimbos.nl.

7. Hoe dient adequate nazorg te worden georganiseerd en uitgevoerd?

In dit hoofdstuk wordt adequate nazorg gedefinieerd en worden aanleiding voor- en organisatie van nazorg voor personen die stotteren beschreven. Onder nazorg verstaat de werkgroep in het kader van de richtlijn: het traject na afloop van therapie met bijhorende zorg en nacontrole afspraken. Uitgangspunt hierbij is dat nazorg een cruciale rol kan hebben bij het omgaan met terugval en dat programmatische aanpak van nazorg valt onder kwalitatief goede zorg stotteren. Nazorg op maat, direct na de therapie georganiseerd en vormgegeven, tijdig voorbereid, en na afsluiting van therapie gedurende twee jaar beschikbaar, voldoet aan de behoefte van de personen die stotteren en is van belang bij het managen van het stotteren (GLS, bijlage 1).

Nadrukkelijk onderdeel is ondersteuning vanuit de directe omgeving van de persoon die stottert. Daarnaast kan nazorg georganiseerd worden in een multidisciplinaire context of in een context van lotgenotencontact en/of zelfhulp. Binnen de gezondheidszorg is focus op zelfmanagement van de patiënt als onderdeel van (na)zorg in opmars en zeer relevant.

Aanbeveling

25. Elke aanpak bij stotteren moet oog hebben voor - en methoden insluiten om - gunstige langetermijneffecten te bevorderen en om met terugval om te gaan. De logopedist/logopedist-stottertherapeut dient dan ook de invulling van de nazorg als onderdeel van het therapieproces te bespreken en overeen te komen met de PDS en zijn omgeving. Bij afsluiting van de behandeling van stotteren dient de logopedist/logopedist-stottertherapeut een programmatische aanpak te kiezen voor een individueel nazorgplan gedurende 2 jaar. Voor de invulling van deze programmatische aanpak wordt verwezen naar het document Gestandaardiseerde Logopedie-Stottertherapie (zie bijlage 1 GLS). De logopedist/logopedist-stottertherapeut doet de PDS en diens omgeving de suggestie om met het oog op terugvalpreventie en bevordering van langetermijneffecten contact te zoeken met lotgenoten, in de vorm van deelname aan activiteiten bijvoorbeeld georganiseerd door de patiëntvereniging Demosthenes.

Rationale voor de aanbeveling

- Terugval komt geregeld voor en grote winst kan pas bereikt worden als de persoon die stottert in niet-klinische situaties (d.w.z. tijdens participatie in de maatschappij) de transfer van de therapie heeft geïnternaliseerd en kan beschikken over een nazorgtraject.
- De begrippen nazorg en zelfhulp worden niet altijd duidelijk van elkaar onderscheiden in literatuur over stotteren.
- De doelen van kwalitatief goede nazorg stotteren dienen te worden gedefinieerd.
- In literatuur over stotteren en in de klinische praktijk wordt doorgaans een wenselijke duur van 2 jaar nazorg aangehouden.
- Aan de kosten van nazorg heeft de werkgroep bij het opstellen van deze aanbeveling geen groot gewicht kunnen toekennen, onder meer vanwege het ontbreken van informatie over de huidige kosten.

Hoofdstuk 1: Algemene inleiding en verantwoording

1.1 Achtergrond en aanleiding

In Nederland komt stotteren bij 5 tot 17% van alle kinderen voor. Ongeveer 1% van de Nederlandse bevolking stottert chronisch. Stotteren kan sociale en maatschappelijke beperkingen geven en het behandelen en/of begeleiden van personen die stotteren en hun naaste verwanten, kan een belangrijke bijdrage leveren aan het verminderen van deze beperkingen. In Nederland worden er diverse technieken om stotteren te behandelen vanuit verschillende therapievormen aangeboden. Het succes van de geboden therapie kan wisselend zijn. Voor de logopedist, de logopedist-stottertherapeut, de persoon die stottert en de zorgverzekeraar is lang niet altijd duidelijk welke therapievorm in welke situatie het beste is.

Tot nu toe ontbreken evidence-based richtlijnen in Nederland op het gebied van stotteren. Evidence-based richtlijnen zijn “documenten met aanbevelingen, gericht op het verbeteren van kwaliteit van zorg, berustend op systematische samenvattingen van wetenschappelijk onderzoek en afwegingen van de voor- en nadelen van de verschillende zorgopties, aangevuld met expertise en ervaringen van zorgprofessionals en zorggebruikers.” (Richtlijn voor Richtlijnen, 2011), en hebben als doel:

- hanteerbaar maken van de snel groeiende informatiestroom;
- ongewenste variatie in handelen tussen zorgverleners te verminderen;
- het klinisch handelen meer te baseren op wetenschappelijk bewijs dan op ervaring en meningen;
- transparanter te kunnen werken, onder andere voor verwijzers en patiënten. (EBRO handleiding, 2007; Richtlijn Parkinson).

Richtlijnen zijn een middel om de beste zorg expliciet te maken op basis van drie verschillende bronnen: wetenschappelijke evidentie, expertise van deskundigen in de beroepsgroep en de expertise van patiënten. Richtlijnen vormen tevens een belangrijke basis voor nieuw op te zetten klinisch en praktijkgericht wetenschappelijk onderzoek doordat tijdens de literatuurreview ten behoeve van de richtlijn lacunes in de wetenschappelijke literatuur zichtbaar worden.

Er zijn drie Engelstalige richtlijnen op het gebied van stotteren beschikbaar. Deze richtlijnen zijn verouderd en niet direct van toepassing op de Nederlandse situatie. De meest invloedrijke richtlijnen zijn richtlijnen die op nationaal niveau zijn ontwikkeld en op lokaal niveau worden geïnterpreteerd (Barkham et al., 2010). De Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie (NVLF), de Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie (NVST) en Demosthenes, de patiëntenvereniging voor (ouders van) kinderen en volwassenen die last hebben van stotteren, hebben daarom de wens uitgesproken om te definiëren hoe diagnostiek, behandeling

en nazorg van cliënten met stotteren eruit dienen te zien. Demosthenes benadrukt tevens dat er informatie voor personen die stotteren moet komen zodat zij een deskundige logopedist/ logopedist-stottertherapeut kunnen inschakelen. Het CBO is door de NVLF, NVST en Demosthenes benaderd als partij met veel ervaring op het gebied van richtlijnontwikkeling. Het CBO wil patiëntenzorg verbeteren in samenwerking met professionals, patiënten en zorgorganisaties en wil bijdragen aan het verbeteren van de zorg voor mensen die stotteren. Demosthenes, de NVLF, NVST en het CBO hebben gezamenlijk een plan van aanpak gemaakt voor de ontwikkeling van een Richtlijn Stotteren, waarin de gekozen methode van richtlijnontwikkeling is afgestemd op de eisen die aan evidence-based richtlijnontwikkeling in Nederland en daarbuiten gesteld worden.

1.2 Doelen van de richtlijn

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. Deze 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.

1.3 Doelpopulatie

De richtlijn geeft aanbevelingen over diagnostiek, behandeling, nazorg en begeleiding van kinderen, adolescenten en volwassenen, met stotteren.

Ontwikkelingsstotteren ontstaat over het algemeen voor het zesde levensjaar, meestal tussen de tweeëneenhalf en vier jaar. Deze meest voorkomende vorm van stotteren wordt ontwikkelingsstotteren genoemd. Dit in tegenstelling tot andere vormen van stotteren die bijvoorbeeld ontstaan als gevolg van een neurologische aandoening, een trauma of door emotionele stress.

Deze richtlijn is uitsluitend gericht op het ontwikkelingsstotteren, maar de term stotteren is hiervoor algemeen geldend onder logopedisten en stottertherapeuten.

1.4 Beoogde gebruikers

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.

1.5 Primair betrokkenen in de richtlijnontwikkeling

Het initiatief voor het ontwikkelen en implementeren van de evidence-based richtlijn stotteren bij kinderen en volwassenen is genomen door de Nederlandse Vereniging voor Stottherapie (NVST), Demosthenes, de patiëntenvereniging voor (ouders van) kinderen en volwassenen die stotteren en de Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie (NVLF). De richtlijn is ontwikkeld onder auspiciën van de NVLF; de NVLF is de opdrachtgever en eigenaar van de richtlijn.

1.6 Werkgroep en klankbordgroep

Voor het ontwikkelen van deze richtlijn is in 2012 een werkgroep samengesteld. Deze werkgroep bestaat uit vertegenwoordigers van de meest relevante beroepsorganisaties die bij de diagnostiek en behandeling van stotteren zijn betrokken, alsmede vertegenwoordigers vanuit de patiëntenvereniging en richtlijnmethodologen vanuit het CBO.

De werkgroep was verantwoordelijk voor het opstellen van de conceptringrichtlijn en het vaststellen van de definitieve richtlijntekst. 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. De werkgroepleden hebben onafhankelijk gehandeld en waren gemandateerd door hun vereniging voor deelname aan de werkgroep. Alle werkgroepleden hebben de belangenverklaring ingevuld. Geen van hen heeft relevante belangen gemeld.

Een aantal beroepsorganisaties, die indirect zijn betrokken bij de diagnostiek en behandeling van volwassenen en kinderen die stotteren, participeerde in een klankbordgroep. Hen werd gevraagd welke belangrijke knelpunten zij in de zorg voor kinderen en volwassenen met stotteren ervaren. Tijdens de commentaarfase werd de leden van de klankbordgroep gevraagd feedback op de conceptringrichtlijn te geven.

1.7 Patiëntperspectief

Het patiëntperspectief heeft bij het opstellen van deze richtlijn een centrale plaats ingenomen. Patiëntvertegenwoordigers van de patiëntenvereniging Demosthenes participeerden in de werkgroep. Ook is er een focusgroep gevormd met personen die stotteren en ouders van

kinderen die stotteren, die al dan niet lid van de patiëntenvereniging Demosthenes zijn, zodat de populatie personen die stotteren in Nederland zo evenredig mogelijk werd vertegenwoordigd bij het opstellen van de richtlijn.

1.8 Werkwijze

a. Knelpunten en uitgangsvragen

Om knelpunten in de zorg aan personen die stotteren te inventariseren werden personen die stotteren en betrokken zorgprofessionals, via diverse kanalen, uitgenodigd een knelpuntenquête in te vullen. Op grond van de resultaten van de enquête is er een knelpuntenanalyse opgesteld vanuit zowel het patiënten- als het zorgverleners-perspectief. 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 conceptuitgangsvragen 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 (bijlage 7). De uitgangsvragen vormen de basis voor de verschillende hoofdstukken van deze richtlijn.

b. Werkwijze werkgroep

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. Voor een beperkt aantal uitgangsvragen hebben werkgroepleden een tekst geschreven die niet werd gebaseerd op de resultaten van systematisch literatuuronderzoek omdat op voorhand duidelijk was dat hiervoor niet of nauwelijks wetenschappelijk bewijs aanwezig was. Tijdens plenaire vergaderingen werden de teksten besproken en geaccordeerd na verwerking van het commentaar. De door de werkgroep geaccordeerde conceptrichtlijn is vervolgens voor commentaar aangeboden aan de betrokken beroeps- en patiëntverenigingen. Na de verwerking van dit commentaar is een definitief concept van de richtlijn op 8 oktober 2014 door de werkgroep vastgesteld en ter autorisatie naar de relevante beroepsorganisaties gestuurd. Eind oktober 2014 werd de richtlijn goedgekeurd door de besturen van de beroepsverenigingen.

c. Wetenschappelijke onderbouwing

De richtlijn is gebaseerd op bewijs uit gepubliceerd wetenschappelijk onderzoek. Artikelen werden gezocht door het verrichten van systematische zoekacties in relevante database zoals de Cochrane Library, Medline, Embase, Psycinfo en Cinahl. Bij elke uitgangsvraag hoort

een aparte zoekstrategie, deze zijn kort beschreven per uitgangsvraag en opvraagbaar bij het CBO. Naast de literatuur uit de search zijn er bij een aantal vragen ook publicaties meegenomen uit de archieven van de werkgroepleden, mits zij aan de inclusiecriteria voldeden. Therapievormen en behandelprogramma's waarvoor geen publicaties die voldeden aan de inclusiecriteria beschikbaar waren, werden niet gebruikt voor de wetenschappelijke onderbouwing, maar eventueel in het kader van het professionele perspectief besproken als onderdeel van de overige overwegingen.

Na selectie van de meest relevante literatuur werden de artikelen die betrekking hadden op therapeutische interventies beoordeeld op kwaliteit van het onderzoek en gegradueerd naar mate van bewijs. Voor studies naar de validiteit, betrouwbaarheid en normering van diagnostische instrumenten werd afgezien van een gradering van de kwaliteit van bewijs.

De kwaliteit van bewijs – ook wel aangeduid als de mate van zekerheid van de effectgrootte voor een uitkomstmaat – werd beoordeeld met behulp van GRADE (Guyatt 2008). GRADE is een methode die per uitkomstmaat van een interventie een gradering aan de kwaliteit van bewijs toekent op basis van de mate van vertrouwen in de schatting van de effectgrootte (tabel 1 en 2).

Tabel 1. Indeling van de kwaliteit van bewijs of mate van zekerheid ten aanzien van de effectgrootte voor een uitkomstmaat volgens GRADE

Mate van zekerheid effectgrootte	Omschrijving
Groot	Het werkelijke effect ligt dicht in de buurt van de schatting van het effect.
Matig	Het werkelijke effect ligt waarschijnlijk dicht bij de schatting van het effect, maar er is een mogelijkheid dat het hier substantieel van afwijkt.
Gering	Het werkelijke effect kan substantieel verschillend zijn van de schatting van het effect.
Zeer gering	Het werkelijke effect wijkt waarschijnlijk substantieel af van de schatting van het effect.

Tabel 2. De kwaliteit van bewijs of mate van zekerheid ten aanzien van de effectgrootte wordt bepaald op basis van de volgende criteria

Type bewijs	RCT start in de categorie 'hoog'. Observationele studie start in de categorie 'laag'. Alle overige studietypen starten in de categorie 'zeer laag'.		
Afwaarderen	'Risk of bias'	– 1	Ernstig
		– 2	Zeer ernstig
	Inconsistentie	– 1	Ernstig
		– 2	Zeer ernstig
	Indirect bewijs	– 1	Ernstig
Opwaarderen		– 2	Zeer ernstig
	Onnauwkeurigheid	– 1	Ernstig
		– 2	Zeer ernstig
	Publicatiebias	– 1	Waarschijnlijk
		– 2	Zeer waarschijnlijk
Opwaarderen	Groot effect	+ 1	Groot
		+ 2	Zeer groot
	Dosis response relatie	+ 1	Bewijs voor gradiënt
Opwaarderen	Alle plausibele confounding	+ 1	zou een effect kunnen reduceren
		+ 1	zou een tegengesteld effect kunnen suggereren terwijl de resultaten geen effect laten zien

d. Totstandkoming van de aanbevelingen

Voor het komen tot een aanbeveling zijn er naast het wetenschappelijk bewijs ook andere aspecten van belang, bijvoorbeeld: balans van gewenste en ongewenste effecten, belasting van een therapie, patiëntvoorkeuren, professioneel perspectief, beschikbaarheid van speciale technieken of expertise, organisatorische aspecten, maatschappelijke consequenties of kosten.

Ter inventarisatie van het professioneel perspectief werden ook buitenlandse richtlijnen aangaande de diagnostiek, behandeling, begeleiding en beoordeling van stotteren geraadpleegd. Hiervoor is gezocht in de databases van de US National Guideline Clearinghouse (www.guideline.gov) en het Guidelines International Network (www.g-i-n.net).

Deze aspecten worden besproken na de 'Conclusie' onder het kopje 'Van bewijs naar aanbeveling'. De uiteindelijk geformuleerde aanbeveling is het resultaat van het beschikbare bewijs in combinatie met deze overige overwegingen. Het volgen van deze procedure en het opstellen van de richtlijn in dit format heeft als doel de transparantie van de richtlijn te vergroten. Door aan de aanbeveling een rationale toe te voegen wordt getracht deze transparantie te effectueren. Het biedt ruimte voor een efficiënte discussie tijdens de werkgroepvergaderingen en vergroot bovendien de helderheid voor de gebruiker van de richtlijn.

1.9 Disseminatie en Implementatie

In de verschillende fasen van de richtlijnontwikkeling is geprobeerd rekening te houden met de implementatie van de richtlijn en de daadwerkelijke uitvoerbaarheid van de aanbevelingen. Daarbij is expliciet gelet op factoren die de invoering van de richtlijn in de praktijk kunnen bevorderen of belemmeren. Daarnaast is er een patiëntenversie van de richtlijn 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. Ook is de richtlijn te downloaden vanaf de website van het CBO: www.cbo.nl.

1.10 Juridische betekenis richtlijnen

Richtlijnen zijn geen wettelijke voorschriften, maar wetenschappelijk onderbouwde en breed gedragen inzichten en aanbevelingen waaraan zorgverleners zouden moeten voldoen om kwalitatief goede zorg te verlenen. Aangezien richtlijnen uitgaan van ‘gemiddelde patiënten’, kunnen zorgverleners in individuele gevallen zo nodig afwijken van de aanbevelingen in de richtlijn. Afwijken van richtlijnen is, als de situatie van de patiënt dat vereist, soms zelfs noodzakelijk. Wanneer van de richtlijn wordt afgeweken, moet dit beargumenteerd, gedocumenteerd en, waar nodig, in overleg met de patiënt worden gedaan.

1.11 Herziening van de richtlijn

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.

1.12 Financiering

De richtlijn is mede mogelijk gemaakt door cofinanciering van de Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie, Demosthenes, de patiëntenvereniging voor (ouders van) kinderen en volwassenen die stotteren, de Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie (NVST) en het Damsté-Terpstra Fonds.

Literatuur

- American Speech-Language-Hearing Association. (1994). *Guidelines for Practice in Stuttering Treatment*. ASHA, 37 (Suppl. 14) 26-35, Rockville, MD.
- Barkham, M., Hardy, G.E. & Mellor-Clark, J. (2010). *Developing and Delivering Practice-Based Evidence. A Guide for the Psychological Therapies*. Wiley Online Library.
- College of Audiologists and Speech and Language Pathologists of Ontario. (2005). *Preferred Practice Guideline for Stuttering*. Ontario.
- EBRO (2007). *Evidence-based Richtlijnontwikkeling. Handleiding voor werkgroepleden* (update: november 2007). Utrecht. CBO.
- Guyatt, G.H., Oxman, A.D., Gunn, E.V., Kunz, R., Falck-Ytter, Y. & Schünemann, H.J.(2008). GRADE: what is “quality of evidence” and why is it important to clinicians? *British Medical Journal*, 336, 995-998.
- Kalf, J.G., de Swart, .B.J.M., Bonnier, M., Hofman, M., Kanter, J., Kocken, J., Miltenburg, M., Bloem, B.R., Munneke, M. (2008). *Logopedie bij de ziekte van Parkinson, een richtlijn van de Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie*. Woerden/Den Haag; Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie/ Uitgeverij Lemma.
- Regieraad Kwaliteit van Zorg. (2011). *Richtlijn voor Richtlijnen* (herziene versie, 2011). Den Haag.
- Royal College of Speech & Language Therapists. (2005). *Clinical Guidelines*. Oxon, Speechmark Publishing Ltd.

Hoofdstuk 2: Stotteren en logopedie

2.1 Beschrijving van stotteren

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 (PDS) heeft het niet onder controle. De herhalingen, verlengingen en blokkades worden aangeduid met de term ‘kernstottergedrag’ of ‘kernstotteren’.

Daarnaast bestaat er ‘secundair stottergedrag’, dat ontstaat als reactie op het kernstottergedrag. Voorbeelden zijn vluchtgedragingen, variërend van het kiezen van synoniemen voor gevreesde woorden tot het uit angst, frustratie en schaamte kiezen voor sociaal isolement om het spreken te ontwijken en het stotteren te verbergen, of vechtgedragingen, variërend van het onnatuurlijk knipperen met de ogen tot onwillekeurige bewegingen van de extremiteiten. Stotteren kan dus grote gevolgen hebben voor het persoonlijke en sociale functioneren van de PDS.

De mate van stotteren varieert per situatie. In spreesituaties die spanning opwekken zoals spreken voor een groep of telefoneren, kan het stotteren verergeren. Spreken tegen een klein kind of praten als je alleen bent, zijn voorbeelden van situaties waarin het spreken vloeiender wordt. Ook zingen gaat bijna altijd vloeiend.

Stotteren ontstaat over het algemeen voor het zesde levensjaar, meestal tussen de tweeëneenhalf en vier jaar. Deze meest voorkomende vorm van stotteren wordt ontwikkelingsstotteren genoemd. Dit in tegenstelling tot andere vormen van stotteren die bijvoorbeeld kunnen ontstaan als gevolg van bijvoorbeeld een neurologische aandoening, een trauma, of door emotionele stress.

Deze richtlijn is uitsluitend gericht op het ontwikkelingsstotteren. Overal waar staat ‘stotteren’ wordt ‘ontwikkelingsstotteren’ bedoeld, omdat de term stotteren hiervoor algemeen geldend is onder logopedisten en stottertherapeuten.

2.1.1 Epidemiologie

De prevalentie van stotteren, het aantal personen dat stottert op een specifiek moment, wordt geschat op 0,72 tot 1% van de wereldbevolking. Omdat stotteren vaak herstelt bij kinderen onder de zes jaar, is de prevalentie in deze jonge bevolkingsgroep groter dan bij een oudere populatie. De incidentie voor stotteren, het aantal nieuwe gevallen per jaar, wordt geschat op 5 tot 17%.

De gegevens over prevalentie en incidentie verschillen per studie. Dit heeft onder andere te maken met verschillen in de definitie van stotteren, de leeftijd van de onderzoeksgroep en de onderzoeksmethode. Ook de genoemde herstelpercentages zijn niet eenduidig. Het per-

centage herstel van stotteren wordt geschat op 50 tot 94% (spontaan of met behulp van therapie) (Yairi & Ambrose 2013).² Kort nadat de eerste stotteringsymptomen zijn waargenomen wordt de kans op spontaan herstel geschat op ongeveer 75%. Naarmate het stotteren langer aanwezig is neemt de kans op spontaan herstel af. Het meeste herstel vindt plaats in de periode voor het 7^e levensjaar maar loopt door tot in de tienerjaren. Herstel van stotteren bij adolescenten en volwassenen is nog steeds mogelijk, maar is vrij zeldzaam (Finn et al 2005; Kell et al 2009).

Er zijn meer stotterende mannen dan vrouwen. Al op jonge leeftijd beginnen er meer jongens te stotteren dan meisjes (2:1) en het herstel bij meisjes is daarnaast ook groter dan bij jongens. De ratio stotterende mannen-vrouwen bij volwassenen is ongeveer 4 :1 (Yairi & Ambrose 2013). Stotteren komt over de hele wereld voor, bij ieder ras en in iedere cultuur.

2.1.2 Oorzaak stotteren

Er zijn veel theorieën over stotteren, maar ‘de’ oorzaak van stotteren is vooralsnog onbekend. Stotteren wordt gezien als een multifactoriële stoornis: meerdere factoren zijn van invloed op het ontstaan van stotteren. Hieronder worden de belangrijkste factoren genoemd.

Genetische factor

Tweelingstudies en familiestudies geven duidelijke aanwijzingen voor het bestaan van een sterke genetische factor (Bloodstein & Bernstein Ratner 2008; Rautakoski et al 2012). Er is berekend dat stotteren voor ca. 80% te verklaren is vanuit de genetische achtergrond. Er zijn aanwijzingen gevonden dat diverse genen en risico-allelen mogelijk een rol spelen bij stotteren (Raza et al 2012).

Hersenstructuren en functies

Al sinds ongeveer 1920 wordt er onderzoek gedaan naar functionele en structurele verschillen in de hersenen van mensen die stotteren. Uit elektrofysiologische studies en fMRI studies komt naar voren dat er meer rechterhelfthersenactiviteit is tijdens spreektaken, met name een overactivatie van de rechter pre-centrale sensomotorische cortex (o.a. De Nil, Kroll & Houle 2001). Onderactivatie wordt gevonden in gebieden die geassocieerd worden met auditieve functies. Dit betekent mogelijk dat mechanismes waarmee de eigen spraak wordt gehoord, niet goed functioneren (Brown et al 2005). Er zijn daarnaast aanwijzingen voor een rol van de basale ganglia bij stotteren (Alm 2004).³ Ook worden er anatomische

² Yaïri en Ambrose geven aan dat in de bestudeerde studies niet altijd onderscheid gemaakt is tussen spontaan herstel of herstel vanwege gevolgde therapie. Het geschatte spontaan herstel is daarom beduidend lager dan 94%

³ De basale ganglia (of basale kernen) zijn een groep van kernen van diverse oorsprong in de hersenen van vertebraten, die fungeren als een samenhangende functionele eenheid, verband houdend met onder meer routinematige gedragingen, en cognitieve en emotionele functies.

verschillen gevonden in hersenstructuren, met name van de grijze en de witte massa (Chang et al 2008). Deze verschillen zijn ook te zien bij stotterende kinderen. Dit zijn een aantal voorbeelden van resultaten uit hersenonderzoek die de aanwezigheid van een neurologische factor duidelijk maken. De vraag of de gevonden verschillen in de hersenen een oorzaak of een gevolg van stotteren is, staat nog ter discussie. Tevens is niet duidelijk welke gevonden verschillen duiden op pathologie.

Sensomotoriek

Divers onderzoek naar de sensomotoriek van PDS laat zien dat het sensomotorische systeem van PDS trager reageert dan van controle groepen, en dat het minder stabiel is. Dit geldt zowel voor taken die gerelateerd zijn aan spreken (ook vloeiende spraak) als voor andere sensomotorische vaardigheden zoals ritmische handenklap taken (o.a. Smith et al 2010; Olander, Smith & Zelaznik 2010).

Taal factor

Stotteren ontstaat in de periode dat de taal zich ontwikkelt, op een moment dat kinderen steeds langere zinnen gaan gebruiken en een grote uitbreiding van de woordenschat doormaken. Uit resultaten van diverse studies naar de samenhang tussen taalvaardigheid en stotteren blijkt dat er subtiele verschillen gevonden worden in taalvaardigheden van stotterende kinderen in vergelijking met kinderen die niet stotteren, zowel in de receptieve als de productieve taal (Bloodstein & Bernstein Ratner 2008; Ntourou et al 2013; Yairi & Ambrose, 2005; Seery & Yairi, 2013; Anderson et al, Reilly, 2013). Op gestandaardiseerde taaltests komen deze verschillen niet naar voren. Bijna alle studies wijzen uit dat stotterende kinderen meer fonologische problemen hebben dan vloeiend sprekende kinderen. Taalfactoren kunnen daarnaast invloed hebben op het stottermoment (vooraan in de zin, inhoudswoord, meer in complexe talige structuren). Er zijn geen consistente aanwijzingen dat stotteren meer voorkomt bij meertalige kinderen dan bij eentalige kinderen (Shenker 2011).

Persoonlijkheid

Er is veel onderzoek gedaan naar de persoonlijkheidsstructuur van PDS, maar er zijn geen aanwijzingen voor een onderliggend neurotische - of persoonlijkheidsstoornis als oorzaak voor stotteren. De emotionele problemen van de PDS zijn eerder een reactie op het stotteren dan een oorzaak hiervan en zijn dus secundair. In onderzoek naar temperament bij stotterende kinderen, wordt gezocht naar bepaalde temperamentskenmerken die geassocieerd kunnen worden met stotteren. Verschillende studies laten tegenstrijdige resultaten zien, wat het moeilijk maakt om duidelijke conclusies te trekken. Een aantal studies laat zien dat stotterende kinderen zich minder goed kunnen aanpassen, een kortere aandachtspan hebben en meer negatieve gevoelens hebben (Eggers, De Nil & Van den Bergh 2010; Kefalianos et al

2012). De vraag of dit een oorzaak of wellicht een gevolg van het stotteren is kan op dit moment nog niet beantwoord worden.

Omgeving

Onderzoek naar het verschil in leefomgeving van vloeiend sprekend kinderen en kinderen die stotteren heeft geen duidelijke resultaten opgeleverd. Ouders van stotterende kinderen lijken niet anders in karakter of opvoedingsstijl. Een stressvolle omgeving of gebeurtenis wordt wel gezien als een mogelijke factor die het stotteren kan uitlokken of in stand houden.

Leerfactoren

Klassieke en operante conditioneringsprocessen zorgt ervoor dat het stotteren zich steeds verder ontwikkelt. Het bij stotteren horende secundaire gedrag kan vanuit leertheoretisch gezichtspunt worden verklaard. Zo kunnen bepaalde situaties door eerdere ervaringen geassocieerd worden met stotteren, zoals bijvoorbeeld opbellen (klassieke conditionering). Een voorbeeld van operante conditionering is het doorduwen op een stottermoment, waardoor iemand verder kan spreken: het inzetten van motorische spanning wordt beloond.

2.1.3 Stotteren en het International Classification of Functioning Disability and Health (ICF) model

Volgens het International Classification of Functioning, Disability and Health (ICF) model worden gezondheidsproblemen geordend in termen van anatomische eigenschappen en functiestoornissen, beperkingen in activiteiten en problemen met de participatie. Of een persoon problemen in activiteiten en participatie ervaart, is niet alleen afhankelijk van de aanwezigheid en ernst van de functiestoornis, maar ook van persoonlijke factoren en externe factoren. Deze zijn daarom onderdeel van het ICF-model.

In figuur 1 wordt een overzicht gegeven van de gezondheidsproblemen die samenhangen met stotteren en de factoren die deze problemen kunnen beïnvloeden. De stoornissen zijn ingedeeld volgens de terminologie van het ICF, zoals beschreven in de ICF voor de Logopedie van de Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie (NVLF) (2009).⁴

⁴ Er valt op de logica van deze indeling wel een en ander af te dingen, maar er is voor gekozen de officiële tekst van de NVLF aan te houden.

Functies
STEM EN SPRAAK
Vloeiendheid en ritme van spreken • productie van een vloeiende, ononderbroken spraakvloed. • gebrek aan vloeiendheid, • herhaling van klanken, • woorden of delen van woorden en onregelmatige onderbrekingen in de spraak, • verlengen, meervoudig herhalen (van klanken/lettergrepen/woorden) • woord-/klankinterjecties • valse starts • ritme van spreken
Snelheid van spreken • bradylalie en tachylalie
Spraakmelodie • monotone spraak
Spreekadem • inverse adembeweging • thoracale ademhaling • geringe ademspan • geforceerd ademen voor spreken • te snelle uitstoot van adem tijdens spreken
Motorische aspecten van spreken • klankblokkades • tremoren in kaak en/of lip • meebewegen van lichaamsdelen • timing van spraakbewegingen
ACTIVITEITEN EN PARTICIPATIE; Beperkingen in doelgerichte vaardigheden
1. COMMUNICATIE Converseren en Bespreken • starten van conversatie • gaande houden van conversatie • met één persoon converseren of bespreken • met meerdere personen converseren of bespreken Gebruiken van communicatieapparatuur • telefoons, skype, face time
2. ACTIVITEITEN GEBIEDEN Algemene tussenmenselijke interacties • aangaan van relaties • aangaan sociale interactie • omgaan met onbekenden Opleiding • deelnemen aan opleiding Beroep en werk • verwerven en behouden van werk Maatschappelijk, sociaal en burgerlijk leven • meedoen aan aspecten van het sociaal-maatschappelijk leven
EXTERNE FACTOREN
ondersteuning en relaties attitudes diensten/systemen/beleid

PERSOONLIJKE FACTOREN
Comorbiditeit Coping stijl Zelfvertrouwen Overtuigingen rond ziekte en functioneren Communicatie behoefte Mentale persoonlijke factoren /cognities

Figuur 1. Overzicht van de gezondheidsproblemen die samenhangen met stotteren en de factoren die deze problemen kunnen beïnvloeden.

2.1.4 De ontwikkeling van stotteren

Veel kinderen maken tijdens de spraak-taalontwikkeling, in de leeftijd van 2 tot 5 jaar, een periode door waarin de spraak onvloeiend wordt. Deze normale onvloeiendheden bestaan uit bijvoorbeeld spanningsloze herhalingen van woorden of zinsdelen, interjecties en zinrevisies. Er zijn geen secundaire gedragingen en de kinderen zelf merken de onvloeiendheden meestal niet op.

Bij jonge stotterende kinderen komen deze normale niet-vloeiendheden ook voor. Daarnaast hebben zij een ander soort, meer stotterachtige onvloeiendheden en is de frequentie van de onvloeiendheden hoger dan normaal. De ontwikkeling van stotteren is niet voor iedereen hetzelfde, maar het stottergedrag toont per leeftijdsgroep veel overeenkomsten. De ontwikkeling van normaal onvloeiend tot gevestigd stotteren wordt weergegeven in tabel 1. Deze is beschreven in vijf fases. De geschetste hiërarchie uit tabel 1 wordt vaak zo doorlopen, maar het is ook goed mogelijk dat een kind de ene dag normaal onvloeiend is en de andere dag kenmerken overgangsstotteren vertoont. Sommige kinderen starten meteen vanaf de eerste dag in de fase van beginnend stotteren. Er zijn dus verschillende ontwikkelingspaden.

Ontwikkelingsniveau	Kerngedrag	Secundair gedrag	Gevoelens en attitudes
Normale niet-vloeiendheden	10 of minder niet-vloeiendheden per 100 woorden; enkelvoudige herhalingen; vooral herhalingen, interjecties en revisies	Geen	Niet bewust, geen bezorgdheid
Grensgeval (borderline) stotteren	11 of meer onvloeiendheden per 100 woorden; meer dan twee herhalingen per eenheid; meer herhalingen en verlengingen dan interjecties en revisies	Geen	Meestal niet bewust; op sommige momenten wel bewust of licht gefrustreerd
Beginnend stotteren	Snelle, onregelmatige en gespannen herhalingen; mogelijk fixatie van de articulatiestand tot blokkades	Vluchtgedragingen zoals oogknipperen, stemverhoging, vechtgedrag of harder spreken als onvloeiendheid toeneemt	Bewust van onvloeiend spreken, toont soms frustratie, begin van negatieve gedachten
Overgangs (intermediate) stotteren	Naast bovenstaande onvloeiendheden mogelijke blokkades waarbij het geluid onderbroken en de luchtweg afgesloten	Vlucht en vermijdingsgedrag, vechtgedrag	Angst, frustratie, gêne en schaamte

	wordt		
Gevestigd/gevorderd stotteren	Naast bovenstaande onvloeiendheden mogelijk lange, gespannen blokkades; sommigen met tremor	Vlucht en vermijdingsgedrag, vechtgedrag	Angst, frustratie, gêne, schaamte, negatief zelfbeeld toeneemt

Tabel 1. kenmerken vijf ontwikkelingsniveaus stotteren (naar Guitar, 2014, p132)

2.1.5 Diagnostiek

Tijdens het diagnostisch onderzoek wordt het stotteren zo compleet mogelijk in kaart gebracht, waarbij alle aspecten die in het ICF schema (figuur 1) zijn beschreven worden nagegaan. Bij jonge kinderen met vloeiendheidsproblemen is een belangrijke vraag of er sprake is van een normale onvloeiende periode of van een vroege vorm van stotteren. Omdat juist in de vroege fases van de ontwikkeling het stotteren nog sterk wisselt per moment en per dag, is de informatie van de ouders van belang. Ontwikkelingsstotteren moet onderscheiden worden van andere vormen van niet-vloeiend spreken. Als het stotteren ontstaat na het 7e levensjaar of als het plotseling ontstaat wordt dit gezien als een rode vlag voor een mogelijk andere vorm van stotteren. Daarnaast zijn er niet-vloeiendheidsstoornissen die verwant zijn met stotteren. De belangrijkste daarvan worden hieronder kort toegelicht.

Broddelen

Broddelen is een vorm van niet-vloeiend spreken waarin de spreker onvoldoende in staat is zijn spreektempo aan te passen aan de spraakmotorische en/of linguïstische eisen van het moment (van Zaalen 2009). Broddelen wordt gekenmerkt door een snel of onregelmatig spreektempo, verminderde verstaanbaarheid en meer dan normale hoeveelheid onvloeiendheden, waarvan het merendeel atypisch is voor stotteren. Broddelen en stotteren komt vaak samen voor maar zij worden als aparte stoornissen geclassificeerd in de International Classification of Functioning, Disability and Health. Experts komen moeilijk tot overeenstemming wanneer de diagnose broddelen gesteld moet worden, mede doordat de kenmerken van broddelen vaak voorkomen samen met stotteren en zuiver broddelen zeldzaam is.

Neurogeen stotteren

Neurogeen stotteren is een verworven spraakstoornis die zich kenmerkt door stotterachtige onvloeiendheden na een hersenbeschadiging. Het kan ontstaan na een Cerebraal Vasculair Accident (CVA) maar ook na een hersentrauma of als gevolg van een degeneratieve neurologische aandoening. Deze vorm van stotteren komt vooral voor bij volwassenen. In circa 50% van de gevallen is er comorbiditeit met afasie of dysartrie, soms ook met verbale apraxie (Theys et al 2012). Voor de differentiaaldiagnose met ontwikkelingsstotteren is vooral het moment van ontstaan en de ziektegeschiedenis van de patiënt van belang. Typisch is ook dat

bij neurogeen stotteren de stottermomenten kunnen voorkomen op alle plaatsten in een woord en niet alleen op initiale klanken of syllabes, zoals bij stotteren.

Psychogeen stotteren

Psychogeen stotteren is zeldzaam en kan ontstaan na een traumatische ervaring, na een lange periode van stress of in combinatie met een psychiatrische stoornis. Voor de differentiaaldiagnose is de voorgeschiedenis van belang. Een neurogene oorzaak dient te worden uitgesloten.

Farmacogeen stotteren

Sommige geneesmiddelen, zoals selectieve serotonineheropnameremmers of tricyclische antidepressiva, hebben als neveneffect dat de patiënt onvloeiend gaat spreken (Krishnakanth, Haridas Phutane, & Mularidharan, 2008).

2.2 Behandeling

In het hoofdstuk over behandeling wordt de situatie geschetst zoals de stottertherapie momenteel in Nederland plaatsvindt.

2.2.1 Behandelaren

Therapie voor stotteren wordt gegeven door logopedisten en door logopedist-stottertherapeuten. Logopedist-stottertherapeuten zijn in stotteren gespecialiseerde logopedisten die na het bachelor logopediediploma een door de NVST (Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie) goedgekeurd extra opleidingstraject hebben gevolgd, of die zich hebben bekwaamd in stottertherapie middels een aantal post-HBO cursussen. Logopedisten en logopedist-stottertherapeuten moeten voldoen aan eisen van het Kwaliteitsregister Paramedici, waarin kwaliteitseisen worden gesteld aan werkervaring en deskundigheidsbevordering. Logopedist-stottertherapeuten die geregistreerd zijn bij de NVST hebben daarnaast nog eigen kwaliteitseisen.

In Nederland worden door andere aanbieders dan logopedisten of logopedist-stottertherapeuten een aantal niet-reguliere, commerciële stotterprogramma's aangeboden. Aanbieders van niet-reguliere stotterprogramma's hebben qua opleiding een diverse achtergrond. Zo zijn sommige stotterprogramma's ontwikkeld door mensen die zelf ervaring hebben met stotteren en die hun persoonlijke oplossingen een plaats geven in de werkwijze. Zij leiden deze programma's meestal zelf. Niet-reguliere stotterprogramma's zijn vaak gebaseerd op een specifieke visie of aanname over stotterend spreken en het aangeboden programma is in grote lijnen hetzelfde voor alle groepen cliënten. Leiders of coaches van niet-reguliere stotterprogramma's hoeven niet te voldoen aan kwaliteitseisen zoals die gelden

voor logopedisten en logopedist-stottertherapeuten. De behandeling zoals hieronder beschreven wordt, is gebaseerd op de huidige werkwijze van logopedisten en logopedist-stottertherapeuten.

2.2.2 Werkwijze

De logopedist en logopedist-stottertherapeut heeft een methodische werkwijze en werkt volgens bepaalde fasen en stappen (zie figuur 2). Het gaat hier om een cyclisch proces: zo nodig kan er worden teruggegaan naar een eerdere stap.

Fase 1 Logopedische diagnostiek
<i>stap 1</i> aanmelding/screening
<i>stap 2</i> anamnese
<i>stap 3</i> logopedisch onderzoek
<i>stap 4</i> analyse (inclusief formuleren diagnose)
Fase 2 Behandeling
<i>stap 1</i> behandelplan
<i>stap 2</i> behandeling
<i>stap 3</i> evaluatie
<i>stap 4</i> afsluiting

figuur 2. stappen methodisch logopedisch handelen (NVLF, 2013)

Tijdens de diagnostische fase worden alle aspecten van het stotteren, zoals beschreven in het ICF-schema (zie figuur 1), zo compleet mogelijk in kaart gebracht. In overleg met de PDS wordt er op basis van de hulpvraag en de uitkomsten van het diagnostisch onderzoek een individueel therapieplan opgesteld. Het verminderen of veranderen van het kernstottergedrag en het (waarneembare) secundaire stottergedrag is vaak een belangrijk behandeldoel, maar ook angstreductie en cognitieve therapie zijn voor veel PDS essentiële onderdelen van een stottertherapie verleend door de logopedist-stottertherapeut. Bij jonge kinderen worden de ouders en de omgeving betrokken bij de therapie. Tijdens de behandeling worden de behandeldoelen regelmatig geëvalueerd en bijgesteld indien nodig.

De logopedist-stottertherapeut werkt samen met andere zorgprofessionals en verwijst door als daar vanwege de aard of de complexiteit van de problematiek aanleiding voor is. Zo kan een logopedist verwijzen naar een gespecialiseerde logopedist-stottertherapeut, maar er wordt ook samengewerkt met bijvoorbeeld psychologen, maatschappelijk werkers, huisartsen, jeugdartsen, KNO-artsen of docenten. Bij aanvang en afsluiting van een behandeling door een logopedist-stottertherapeut wordt er een verslag geschreven voor de huisarts.

2.2.3 Behandeling volwassenen en adolescenten

Therapeutische methoden en technieken

Binnen de verschillende therapeutische methoden zijn er twee hoofdstromingen te onderscheiden: de stottermodificatie therapie en de fluency shaping therapie.

Stottermodificatie therapieën stellen allereerst het verminderen van angst (desensitiseren) centraal. De PDS leert vrij en gemakkelijk te stotteren en leert goed om te gaan met het onvloeiende spreken. Dit wordt ook wel makkelijk of ontspannen stotteren genoemd.

Fluency shaping therapieën leren de PDS allereerst om gecontroleerd vloeiend te spreken met behulp van een spreektechniek en werken daarna aan het toepassen van deze techniek in verschillende spreesituaties.

Binnen deze twee hoofdstromingen worden diverse therapeutische methoden en technieken ingezet. Voorbeelden van therapeutische methoden voor angstreductie en gedragsverandering zijn systematische desensitisatie, geleidelijke confrontatie, relaxatie en cognitieve training. Sociale vaardigheidstraining kan een onderdeel zijn van de therapie.

Voor het aanleren van vloeiende spraak wordt gebruik gemaakt van diverse technieken zoals verlengde spraak (prolonged speech), zachte inzetten (easy onsets), ritmische spraak, tempo vertraging, en ademhalingstechnieken.

Logopedisten en logopedist-stottertherapeuten in Nederland maken over het algemeen gebruik van een geïntegreerde werkwijze, waarbij aspecten uit zowel de stottermodificatie als de fluency shaping methoden worden gebruikt, aangepast aan behoeften van de individuele cliënt. Therapie wordt zowel individueel als in groepen aangeboden. Omdat er na therapie regelmatig terugval kan optreden wordt er doorgaans gezorgd voor een nazorg traject.

Apparatuur

Er zijn verschillende apparaten op de markt die gebruikt kunnen worden om de vloeiende spraak te bevorderen. Het principe van deze apparaten is gebaseerd op een veranderde feedback van de eigen spraak bijvoorbeeld door deze te maskeren met ruis, of door de eigenspraak vertraagd of veranderd terug te geven via een oorapparaatje (bv. Delayed Auditory Feedback (DAF); Frequency Altered Feedback (FAF)). Ook zijn er apparaatjes die het spreken ritmisch ondersteunen.

Farmacotherapie

In Nederland wordt geen farmacotherapie bij stotteren toegepast. Er zijn wel studies naar het effect van bepaalde medicamenten op het stotteren. Het onderzoek naar farmacotherapie wordt in deze richtlijn besproken.

2.2.4 Behandeling kinderen

Therapeutische methoden en technieken

In Nederland worden er voor de therapie van jonge kinderen tot zes jaar, verschillende behandelmethoden gehanteerd. De meest gebruikte aanpak op dit moment is de behandeling volgens het Demands and Capacities Model (DCM). Therapie volgens DCM is erop gericht om de factoren die onvloeiende spraak uitlokken of die het stotteren in stand houden te elimineren of te verminderen. Deze 'eisen' die aan het kind worden gesteld kunnen (spraak) motorisch, linguïstisch, cognitief of sociaal-emotioneel van aard zijn. Voorbeelden zijn een hoog spreektempo van de omgeving van het kind, een taalaanbod dat op een te hoog niveau ligt, een onrustige, drukke gezinssituatie etc. Daarnaast wordt met het kind gewerkt aan het versterken van de capaciteiten op dezelfde domeinen ((spraak)motorisch, linguïstisch, cognitief of sociaal-emotioneel).

Een ander programma dat bij jonge stotterende kinderen wordt ingezet is het Lidcombe Programma. Het Lidcombe Programma is een operant behandelingsprogramma waarbij aan de ouders wordt geleerd om de vloeiende spraak van het kind uit te lokken en te belonen en de gestotterde uitingen te corrigeren. Dit gebeurt op een afgewogen manier, waarbij wijze van belonen en corrigeren en de ratio belonen versus corrigeren is voorgeschreven.

Naast bovenstaande methodes zijn er nog diverse andere manieren van werken. Voorbeelden zijn de behandeling volgens Dell (Dell 1990) een stottermodificatieprogramma gericht op kinderen, Speech Motor Training (SMT) van Riley en Riley, een programma om de spraakmotorische planning te verbeteren en sociaal-cognitieve gedragstherapie (SCG) (Boey 2003), een programma met als doel het verminderen van belemmerende emoties en cognities rond stotteren.

De ouders en de directe omgeving van het kind worden in de regel nauw betrokken bij de behandeling. Bij de behandeling van jonge kinderen wordt altijd afgewogen of er een grote kans is op spontaan herstel. In dat geval wordt er afgewacht en wordt de ontwikkeling van het stotteren gemonitord, of er wordt alleen ouderbegeleiding gegeven ter preventie van verdere ontwikkeling van het stotteren.

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 secundaire stottergedrag, inclusief de emoties en cognities. Hiervoor worden, net als bij volwassenen en adolescenten, diverse therapeutische middelen en oefenprogramma's ingezet. Deze zijn aangepast aan het niveau en de behoeften van het kind.

Literatuur

1. Alm, P. A. (2004). Stuttering and the basal ganglia circuits: a critical review of possible relations. *Journal of Communication Disorders*, 37, 325-369.
2. Beal, D. S., Gracco, V. L., Brettschneider, J., Kroll, R. M., & De Nil, L. F. (2013). A voxel-based morphometry (VBM) analysis of regional grey and white matter volume abnormalities within the speech production network of children who stutter. *Cortex*, 49 (8), 2151-61.

3. Bezemer, M., Bouwen, J., & Winkelman, C. (2010). *Stotteren, van theorie naar therapie*. Bussum: Coutinho.
4. Bloodstein, O., & Bernstein Ratner, N. (2008). *A Handbook on stuttering*. Delmar: Clifton Park.
5. Boey, R. (2003). *Stotteren en stottertherapie bij heel jonge kinderen. Sociaal-cognitieve gedragstherapie*. Leuven/Leusden: Acco.
6. Brown, S., Ingham, R. J., Ingham, J. C., Laird, A. R., & Fox, P. T. (2005). Stuttered and Fluent Speech Production: An ALE Meta-Analysis of Functional Neuroimaging Studies. *Human Brain Mapping* (25), 105-117.
7. Chang, S., Erickson, K. I., Ambrose, N. G., Hasegawa-Johnson, M. A., & Ludlow, C. L. (2008). Brain Anatomy Differences in Childhood Stuttering. *Neuroimage*, 39(3), 1333-1344.
8. De Nil, L. F., Beal, S. D., Lafaille, S. J., Kroll, R. M., Crawley, A. P., & Gracco, V. L. (2008). The effects of simulated stuttering and prolonged speech on the neural activation patterns of stuttering and nonstuttering adults. *Brain & Language*, 107, 114-123.
9. Dell, C. (1990). *Stotterende kinderen. behandeling van jonge stotteraars*. Rotterdam: Ad Donker.
10. Eggers, K., De Nil, L., & Van den Bergh, B. R. (2010, 35). Temperament dimensions in stuttering and typically developing children. *Journal of Fluency Disorders* 35 (2010) 355–372, 355-372.
11. Finn, P., Howard, R., & Kubala, R. (2005, 30). Unassisted recovery from stuttering: self-perceptions of current speech behavior, attitudes, and feelings. *Journal of Fluency Disorders*, 281-305.
12. Guitar, B. (2014). *Stuttering, An Integrated Approach To Its Nature and Treatment*. Baltimore: Lippincott Williams & Wilkins.
13. Howell, P., & Davis, S. (2011). Predicting Persistence of and Recovery from Stuttering by the Teenage Years Based on Information Gathered at Age 8 Years. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*, 196-205.
14. Janssen, P. (1985). *Gedragstherapie bij stotteren*. Utrecht/Antwerpen: Bohn, Scheltema & Holtema.
15. Kefalianos, E., Onslow, M., Block, S., Menzies, R., & Reilly, S. (2012). Early stuttering, temperament and anxiety: Two hypotheses. *Journal of Fluency Disorders* (37), 151-163.
16. Kell, C. A., Neumann, K., Kriegstein von, K., Gudenberg von, C. A., Euler, H., & Giraud, A. (2009). How the brain repairs stuttering. *Brain*, 2747–2760.
17. Krishnakanth, M., Haridas Phutane, V., & Mularidharan, K. (2008). Clozapine-induces stuttering: a case series. *Prim Care Companion J Clin Psychiatry*, 10, 333-334.
18. Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie. (2013). *Beroepsprofiel Logopedist*. Woerden: Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie.
19. Neumann, K., Preibisch, C., Euler, H. A., von Gudenberg, A. W., Lanfermann, H., Gall, V., et al. (2005). Cortical plasticity associated with stuttering therapy. *Journal of Fluency Disorders*, 30(1), 23-39.
20. Ntourou, K., Conture, E. G., & Lipsey, M. W. (2011). Language Abilities of Children Who Stutter: A Meta-Analytical Review. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 163-179.
21. Oleander, L., Smith, A., & Zelaznik, H. W. (2010). Evidence That a Motor Timing Deficit Is a Factor in the Development of Stuttering. *Journal of Speech and Language research*, 53, 165-196.
22. Projectgroep ICF Nederlandse Vereniging Logopedie en Foniatrie (2009). *ICF voor de Logopedie*.
23. Rautakoski, P., Hannus, T., Simberg, S., Sandnabba, P., & Santtila, P. (2010). Genetics and environmental effects on stuttering: A twin study from Finland. *Journal of Fluency Disorders*, 37, 202-210.
24. Raza, M. H., Amjad, R., Riazuddin, S., & Drayna, D. (2012). Studies in a consanguineous family reveal a novel locus for stuttering on chromosome 16q. *Hum Genet*, 311-313.
25. Reilly, S., Onslow, M., Packman, A., Cini, E., Conway, L., Ukoumunne, O. C., et al. (2013). Natural History of Stuttering to 4 Years of Age: A Prospective Community-Based Study. *Pediatrics*, 460-467.
26. Shenker, R. S. (2011). Multilingual children who stutter: Clinical issues. *Journal of Fluency Disorders*, 36,, 186-193.
27. Smith, A., Sadagopan, N., Walsh, B., & Weber-Fox, C. (2010). Increasing phonological complexity reveals heightened instability in inter-articulatory coordination in adults who stutter. *Journal of Fluency Disorders*, 35, 1-18.

28. Theys, C., De Nil, L., Thijs, V., Wieringen van, A., & Sunaert, S. (2013). A Crucial Role for the Cortico-Striato-Cortical Loop in the Pathogenesis of Stroke-Related Neurogenic Stuttering. *Human Brain Mapping, 34*, 2103-2112.
29. Ward, D. (2006). *Stuttering and Cluttering*. Sussex: Psychology Press.
30. Yairi, E., & Ambrose, N. (2013). Epidemiology of stuttering: 21st century advances. *Journal of Fluency Disorders, 38*, 66-87.
31. Yaruss, S. J., & Quesal, R. W. (2004). Stuttering and the International Classification of Functioning, Disability and Health (ICF): An Update. *Journal of Communication Disorders, 35*-52.
32. Zaalen van, Y., & Wnkelman, C. (2009). *Broddelen, een (on)begrepen stoornis*. Bussum: Coutinho.

Hoofdstuk 3: Wat zijn de indicaties om kinderen, adolescenten en volwassenen met stotteren te behandelen?

3.1 Inleiding

Stotteren is een stoornis in de vloeiendheid van het spreken. De eerste symptomen worden meestal waargenomen in de eerste jaren van het leven, kort nadat de taalontwikkeling is begonnen. Stotteren kan uitgroeien tot een communicatieprobleem dat de sociale ontwikkeling en het persoonlijk welbevinden in ernstige mate belemmert. Op latere leeftijd kan stotteren hardnekkig zijn en lastig te behandelen. Er zijn aanwijzingen uit klinische studies dat vroegtijdige interventie de kans op herstel van het stotteren vergroot. Sommige kinderen die beginnen te stotteren herstellen echter zonder een dergelijke interventie. Er is echter nog onvoldoende duidelijkheid over het aantal kinderen dat spontaan herstelt en het is nog niet mogelijk op eenduidige wijze te voorspellen welke kinderen langs natuurlijke weg herstellen. In dit hoofdstuk worden aanbevelingen geformuleerd die het voor de logopedisten en de logopedist-stottertherapeuten mogelijk maken weloverwogen beslissingen te nemen op welk moment de persoon die stottert te gaan behandelen of om de ontwikkeling van spontaan herstel te volgen.

3.2 Methode

De beantwoording van deze uitgangsvraag is gebaseerd op internationale publicaties zonder systematisch uitgevoerd literatuuronderzoek. Literatuur over dit onderwerp is slechts in zeer beperkte mate gepubliceerd. De onderbouwing van de aanbeveling is dan ook voornamelijk gebaseerd op één longitudinaal onderzoek (Yairi & Ambrose 2005). Dit onderzoek is vanuit methodologisch oogpunt momenteel de best beschikbare studie.

3.3 Onderbouwing

Indicatiestelling heeft betrekking op de vraag: Wanneer dient behandeling plaats te vinden? Voor de advisering met betrekking tot deze vraag speelt de kwestie van *spontaan herstel* bij kinderen een belangrijke rol. Een deel van de kinderen die beginnen met stotteren, herstelt hiervan immers volledig. Cijfers over spontaan herstel vertonen echter grote verschillen, variërend van 50 tot 94% (Yairi & Ambrose 2013). Op de 'hardheid' van deze cijfers valt wel af te dingen gezien de verschillende definities van stotteren die door de verschillende auteurs worden gehanteerd, het aantal jaren waarin de kinderen worden gevolgd en het feit of de kinderen therapie hebben gevolgd. Ook moet in acht worden genomen dat deze cijfers betrekking hebben op het herstel in de populatie. Dit impliceert dat ze van toepassing zijn op kinderen die bij een screening naar voren komen als stotterend. Het is de vraag of de her-

stelpercentages ook van toepassing zijn op de klinische populatie, dit zijn de kinderen waarvan de ouders zich met een hulpvraag melden bij een logopedist of logopedist-stottherapeut.

3.3.1 Prevalentie en incidentie

De meeste kinderen beginnen met stotteren op een leeftijd tussen 2 en 4 jaar. Hoewel er case studies bekend zijn van mensen die in hun tienerjaren zijn gaan stotteren, komt stotteren dat is ontstaan na het negende levensjaar zelden voor. De kans om te gaan stotteren lijkt op 4-jarige leeftijd voor 95% voorbij (Yairi & Ambrose 2013). Kinderen die na het vierde jaar zijn begonnen met stotteren lijken een verhoogd risico te hebben op blijvend stotteren (Yairi & Seery 2011).

Naarmate het stotteren langer aanwezig is neemt de kans op spontaan herstel af. Kort nadat de eerste stottersymptomen zijn waargenomen wordt de kans op spontaan herstel geschat op ongeveer 75%. Deze kans zakt na één jaar naar 63%, twee jaar later naar 47%, drie jaar later naar 16% om uiteindelijk te dalen tot 5% vier jaar na aanvang van het stotteren (Yairi & Seery 2011). Het aantal kinderen dat één jaar nadat zij begonnen zijn met stotteren volledig is hersteld wordt geschat op 6,3 tot 9% (Yairi & Ambrose 2005; Reilly et al 2013). Spontaan herstel van stotteren bij adolescenten en volwassenen is nog steeds mogelijk, maar is vrij zeldzaam (Finn et al 2005; Kell et al 2009).

3.3.2 Familiegeschiedenis

De sterkste en vroegste voorspeller voor spontaan herstel is de aanwezigheid van blijvend stotteren of hersteld stotteren in de familie. Indien blijvend stotteren in de familie van het kind dat stottert aanwezig is dan is de kans dat het kind, zonder behandeling, blijft stotteren 65%. Bij aanwezigheid van hersteld stotteren in de familie van het kind is de kans op spontaan herstel eveneens 65% (Yairi & Ambrose 2005; Seery & Yairi 2011).

3.3.3 Geslacht

Al op jonge leeftijd beginnen er meer jongens te stotteren dan meisjes (2:1). Het herstel bij meisjes is groter dan bij jongens. De ratio stotterende mannen-vrouwen bij volwassenen is ongeveer 4:1. Meisjes hebben niet alleen een gunstiger prognose om te herstellen van het stotteren, zij lijken ook sneller te herstellen dan jongens. Wanneer het stotteren van een meisje één jaar na het ontstaan van het stotteren niet duidelijk is verminderd, neemt het risico op blijvend stotteren sterker toe dan bij een jongen (Yairi & Seery 2011).

3.3.4 Stottersymptomen

De ernst van het stotteren, aanwezigheid van verlengingen, blokkades en bijkomende lichamelijke gedragingen zijn gedurende het eerste jaar *geen* voorspellers voor blijvend stotteren of voor herstel van het stotteren (Yairi & Ambrose 2005; Yairi & Seery 2011).

Een sterke afname van het aantal en de ernst van de stottersymptomen gedurende het eerste jaar na het ontstaan van het stotteren is een belangrijke aanwijzing voor mogelijk spontaan herstel. Afname van het aantal herhalingen, van het aantal units per herhaling, van blokkades en verlengingen en van bijkomende lichamelijke gedragingen evenals verlaging van het tempo van de herhalingen zijn gunstige voorspellers voor herstel. De afname is van groter gewicht dan de absolute frequentie van de onvloeiendheden (Yairi & Seery 2011).

Yairi & Ambrose (2005) signaleerden een afname van de gemiddelde gewogen Stuttering Like Dysfluencies (SLD)-score met meer dan 50% gedurende het eerste half jaar tot een jaar na het ontstaan van het stotteren in de groep kinderen die na de eerste stottersymptomen herstelde van het stotteren. De gewogen SLD-score is door de onderzoekers ontwikkeld om licht, maar duidelijk stotteren beter te kunnen onderscheiden van normaal onvloeiend spreken. In de gewogen SLD-score tellen blokkades en verlengingen, die amper of niet voorkomen in de spraak van kinderen die niet stotteren, twee keer zo zwaar mee, terwijl aanwezige herhalingen worden gewogen met hun aantal units (dus i-ik telt voor 1 keer mee en i-i-i-ik voor 3 keer). In tegenstelling tot wat werd gezien bij de kinderen die spontaan herstelden van stotteren, nam de gemiddelde gewogen SLD-score, bij de groep kinderen die bleef stotteren een half jaar tot een jaar na het ontstaan van het stotteren nauwelijks af.

De ernst van het stotteren, zoals ervaren door de ouders en de onderzoeker, daalde, op een 8-puntsschaal voor stotterernst (waarbij 0 = normaal vloeiend spreken en 7= zeer ernstig stotteren), een half jaar tot een jaar na aanvang van het stotteren gemiddeld met ongeveer 2 punten bij de groep kinderen die uiteindelijk herstelde (Yairi & Ambrose 2005). Deze daling komt nagenoeg overeen met een vermindering van het stotteren met één ernstgraad op de schaal voor stotterernst van Yairi & Ambrose (2005). De gemiddelde stotterernst van de kinderen die vijf jaar na aanvang van het stotteren nog stotterden, daalde in het eerste jaar gemiddeld met minder dan 1 punt. De gemiddelde scores van de ouders en de onderzoeker waren nagenoeg identiek.

Interval	Stotterernst
0-1	Normaal vloeiende spraak
1-3	Licht stotteren
3-5	Matig stotteren
5-7	Ernstig stotteren

Schaal voor stotterernst (Yairi & Ambrose 2005)

Eén jaar na aanvang van het stotteren is een toename van het stotteren, gedurende een periode van een maand of drie, een signaal dat het risico op blijvend stotteren toeneemt (Yairi & Seery 2011).

In tegenstelling tot de periode van de eerste 12 maanden na het ontstaan van het stotteren, is de ernst van het stotteren één jaar na aanvang ook een voorspeller voor blijvend stotteren geworden. Naarmate de ernst, niet zozeer de absolute frequentie, hoger is neemt het risico op blijvend stotteren toe (Yairi & Ambrose 2005; Yairi & Seery 2011).

3.3.5 Fonologische ontwikkeling

Zwakke fonologische vaardigheden van een kind, dat wil zeggen: de aanwezigheid van ongewone fonologische processen en teveel gewone fonologische processen voor de leeftijd van het kind, kunnen een risicofactor zijn gedurende de beginfase van het stotteren. Twee jaar na het ontstaan van het stotteren verliezen fonologische vaardigheden hun voorspellende waarde voor het risico op blijvend stotteren (Yairi & Seery 2011). De fonologische ontwikkeling is geen sterke risicofactor. Indien de fonologische vaardigheden van een kind beneden gemiddeld zijn dient de logopedist of logopedist-stottertherapeut alert te zijn op andere risicofactoren voor stotteren (Yairi & Seery 2011).

3.3.6 Receptieve en expressieve taal

De expressieve woordenschat op tweejarige leeftijd is een zwakke voorspeller voor het ontstaan van stotteren op driejarige leeftijd en is geen voorspeller voor stotteren op vierjarige leeftijd (Reilly et al 2013). Op vierjarige leeftijd presteren de kinderen die stotteren uit de prospectieve studie van Reilly et al. (2013) als groep gemiddeld ongeveer 1/3 standaarddeviatie hoger dan de kinderen die niet stotteren op een test voor receptieve en expressieve taal. De voorspellende waarde van expressieve taalvaardigheden voor blijvend stotteren is vooralsnog onduidelijk (Yairi & Seery 2011).

3.3.7 Bijkomende stoornissen

Bijkomende stoornissen kunnen de stotterproblematiek compliceren en kunnen in combinatie met andere risicofactoren de kans op blijvend stotteren verhogen. De voorspellende waarde voor blijvend stotteren van bijkomende stoornissen is onbekend (Yairi & Seery 2011).

3.3.8 Temperament en sociaal-emotioneel welbevinden

Voor de invloed van het bewustzijn van het stotteren of van emotionele reacties van het kind op het stotteren als risicofactor voor blijvend stotteren is onvoldoende wetenschappelijk bewijs (Yairi & Seery 2011). Reilly et al (2013) vonden geen overtuigend bewijs dat de kwaliteit van leven op emotioneel en psychosociaal vlak bij de groep driejarige en vierjarige kinderen die stotteren, verschilt van kinderen die niet stotteren. Evenmin werd bewijs gevonden voor verschil in temperament tussen beide populaties (Reilly et al 2009; Reilly et al 2013). Onderzoek in de klinische populatie naar temperament bij kinderen die stotteren toont echter aan dat kinderen die stotteren gemiddeld een hogere (negatieve) reactiviteit en een lagere zelfregulatie laten zien (Eggers 2012).

Ongerustheid bij ouders, van het kind zelf of de omgeving van het kind kan op individueel niveau leiden tot bewuste en/of onbewuste verbale en non-verbale reacties op het stotteren. Deze reacties kunnen bijdragen tot meer cognitieve en emotionele reacties van het kind, hetgeen een negatief leerproces bij het kind op gang kan brengen of versterken (Korrelboom 1993). Deze leerprocessen worden beïnvloed door het temperament van het kind.

3.3.9 Therapie

Behandelen van jonge stotterende kinderen voordat het stotteren 15 maanden aanwezig is lijkt effectiever dan behandeling starten als het stotteren meer dan 15 maanden aanwezig is. Ingham en Cordes vergeleken verschillende studies naar de resultaten van behandeling van kinderen die stotteren. Van de groep kinderen die behandeld werd voordat het stotteren 15 maanden aanwezig was behaalde 85,7% de criteria voor herstel van het stotteren. Het herstelpercentage van de groep kinderen die later dan 15 maanden na het begin van het stotteren therapie kreeg, bedroeg 59,4% (Ingham & Cordes 1998).

Een vergelijkbaar verschil werd gevonden wanneer de therapieresultaten van kinderen die voor hun zesde jaar therapie hadden gekregen, werden vergeleken met therapieresultaten van kinderen bij wie de therapie na hun zesde jaar was gestart. Van de jonge kinderen behaalde 81,8% de door Ingham en Cordes opgestelde criteria voor een positief resultaat tegen 54,2% van de oudere kinderen.

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).

Er zijn aanwijzingen dat uitstel van behandeling gedurende een jaar of langer de behandelduur niet negatief beïnvloed (Yairi & Seery 2011). Kinderen die langer dan 12 maanden stotterden hadden minder tijd nodig om de eerste fase van het Lidcombe Programma te doorlopen dan kinderen die kort na aanvang van het stotteren werden behandeld (Jones et al 2000; Kingston et al 2003).

3.4 Van bewijs naar aanbevelingen

Kwaliteit van bewijs

Voor de advisering met betrekking tot de vraag wanneer personen die stotteren dienen te worden behandeld spelen *spontaan herstel en effectiviteit van behandeling* een belangrijke rol. Cijfers over spontaan herstel vertonen grote verschillen en de verschillende risicofactoren op blijvend stotteren zijn slechts in beperkte mate onderzocht.

Het effect van behandeling van kinderen voor de leeftijd van zes jaar op de frequentie van het stotteren is groot en er bestaat een redelijke zekerheid dat de schatting van deze effectgrootte overeenkomt met de werkelijke effectgrootte. Behandeling van oudere kinderen, adolescenten en volwassenen is minder effectief in het reduceren van het percentage gestotterde lettergrepen. Er zijn onvoldoende gegevens beschikbaar om te bepalen hoe effectief behandeling van stotteren is op de uitkomstmaten kwaliteit van leven, vermijdingsgedrag, participatie en natuurlijkheid van spreken.

Balans van gewenste en ongewenste effecten

Stotteren is een stoornis in de vloeiendheid van het spreken die kan uitgroeien tot een communicatieprobleem dat de sociale ontwikkeling en het persoonlijk welbevinden in ernstige mate belemmert. Behandeling is effectief maar eveneens intensief. Effectiviteit in het verminderen van het aantal gestotterde lettergrepen op korte en middellange termijn is het hoogst bij behandeling voor het zesde levensjaar. Stotteren begint meestal voor het vijfde levensjaar. Een groot deel van de kinderen (50 tot 94%) die beginnen met stotteren herstelt hiervan volledig zonder expliciete behandeling. Gedurende één jaar zorgvuldig monitoren van kinderen vanaf het moment waarop het stotteren begint, zorgt dat kinderen met verhoogd risico op blijvend stotteren behandeling ontvangen op het moment dat deze het meest effectief is en minimaliseert het behandelen van kinderen die mogelijk spontaan herstellen.

Monitoring

Monitoring is een actief proces waarbij de logopedist of logopedist-stottertherapeut de ontwikkeling van het stotteren systematisch volgt. Na het diagnose-adviesgesprek traint de logopedist of logopedist-stottertherapeut de ouders in het gericht observeren en registreren van de stottersymptomen van het kind. De logopedist of logopedist-stottertherapeut traint de ouders tot zij overeenstemming hebben over de waargenomen ernst van het stotteren. In overleg met de ouders wordt het te gebruiken registratiesysteem, de frequentie van registreren, als mede de wijze en frequentie van terugkoppelen van de geregistreeerde gegevens naar de logopedist of logopedist-stottertherapeut bepaald en vastgelegd. Gedurende het proces van monitoring bewaakt de logopedist of logopedist-stottertherapeut of de wijze van

beoordelen van de stotternst door de ouders nog in overeenstemming is met de eigen beoordeling. Minimaal één keer per half jaar wordt een herhalingsonderzoek uitgevoerd. Deze herhalingsonderzoeken vinden bij voorkeur plaats een half jaar nadat het kind is gaan stotteren en één jaar nadat het kind is gaan stotteren.

Waarden en voorkeuren

a. Personen die stotteren

Gezien de mogelijke impact van stotteren op het persoonlijk en maatschappelijk leven van personen die stotteren en de gunstige therapieresultaten op jonge leeftijd is vroegtijdig signaleren van de eerste stotter signalen en vervolgens verwijzen naar de logopedist of logopedist-stottertherapeut van belang. Ouders van kinderen die stotteren melden regelmatig dat zij te laat zijn verwezen naar de logopedist of logopedist-stottertherapeut. Voor het vroegtijdig signaleren van stotteren is de Screenings Lijst Stotteren (SLS) het meest gehanteerde instrument in Nederland. De SLS is gratis beschikbaar via diverse websites.

Ouders en professionals die met jonge kinderen werken dienen goed geïnformeerd te zijn over risicosignalen voor blijvend stotteren en over de voor- en nadelen van het onder begeleiding van een logopedist of logopedist-stottertherapeut uitstellen van behandeling of starten met behandeling.

Ouders van oudere kinderen die stotteren, adolescenten die stotteren en volwassenen die stotteren met een hulpvraag op gebied van stotteren dienen te worden geïnformeerd over de mogelijkheden voor therapie aangezien de kans op spontaan herstel van het stotteren op deze leeftijden zeer gering is. Door middel van behandeling kan de impact die het stotteren heeft op het persoonlijk en maatschappelijk leven van de persoon die stottert worden geminimaliseerd.

b. Logopedist – stottertherapeuten

Het vroegtijdig signaleren van kinderen die risico lopen op blijvend stotteren is een eerste stap in het proces van monitoren en mogelijk behandelen van stotteren. Logopedisten en logopedist-stottertherapeuten zijn de aangewezen deskundigen om zorgverleners, leerkrachten en begeleiders van peuterspeelzalen en kinderdagverblijven te informeren over risicosignalen voor blijvend stotteren en hen te voorzien van de benodigde middelen. Het is belangrijk dat de logopedist / logopedist-stottertherapeut zich bekwaamt in het deskundig monitoren van het jonge kind dat stottert. Het begrip ‘monitoren’ wordt in het kader nader toegelicht.

Bij het bepalen of behandeling van een ouder kind, adolescent of volwassenen geïndiceerd is dient het multifactoriële karakter van stotteren, de mogelijke impact van stotteren op het leven van de persoon die stottert en het beperkte effect van behandeling op herstel van stotteren in ogenschouw te worden genomen. De logopedist of logopedist-stottertherapeut inventariseert daartoe alle ICF-elementen.

c. Kosten

Over de kosten van therapie is onvoldoende informatie beschikbaar. Wel zijn er gegevens beschikbaar over het gemiddeld aantal behandelsessies met het Lidcombe Programma. Het gemiddeld aantal behandelsessie voor het bereiken van fase II van het Lidcombe Programma (dat wil zeggen: een sterk verminderde stotterernst) bedraagt 10 sessies bij licht stotteren, 12 sessies bij matig stotteren en 14 sessies bij ernstig stotteren (Koushik et al 2011). De mediaan van het aantal behandelsessies gedurende fase 1 is 15,4, waarna nog 10 behandelsessies gedurende de stabilisatiefase worden gegeven (Reilly et al 2013).

Aanbevelingen

De onderstaande aanbevelingen dienen in samenhang beoordeeld te worden.

1. De behandeling van stotteren, ontstaan bij kinderen voor de leeftijd van vier jaar, begint voor de leeftijd van vijf jaar.
2. De logopedist of logopedist-stottertherapeut monitort de ontwikkeling van het stotteren, ontstaan bij kinderen voor de leeftijd van vier jaar, gedurende één jaar nadat de eerste stotter signalen zijn waargenomen om na te gaan of er signalen van spontaan herstel optreden.
3. De logopedist of logopedist-stottertherapeut start de behandeling 12 maanden nadat de eerste stotter symptomen zijn waargenomen indien de ernst van het stotteren de laatste 3-6 maanden niet duidelijk* is afgenomen.
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.
5. De logopedist of logopedist-stottertherapeut start de behandeling, ook als het stotteren minder dan 6 maanden aanwezig is, indien het kind onder het stotteren lijdt, ouders bezorgd zijn over het stotteren of het kind weerzin krijgt om te communiceren.
6. Indien bij een kind onder de 6 jaar het vermoeden bestaat van de aanwezigheid van stotteren, dienen ouders de Screeningslijst Stotteren (SLS) in te vullen om te bepalen of nadere diagnostiek door de logopedist of logopedist-stottertherapeut nodig is.
7. De logopedist of logopedist-stottertherapeut informeert de zorgverleners, leerkrachten en begeleiders van peuterspeelzalen en kinderdagverblijven binnen zijn/haar netwerk over het doel en het gebruik van de SLS en zij stellen de SLS beschikbaar bijvoorbeeld door informatie te geven over websites waarop de SLS te raadplegen is.
8. Bij kinderen ouder dan 6 jaar, adolescenten of volwassenen met een hulpvraag op gebied van stotteren, bepaalt de logopedist of logopedist-stottertherapeut, samen met de hulpvrager, op grond van een inventarisatie van ICF-elementen op de voor de persoon die stottert (PDS) belangrijke uitkomstmaten of behandeling geïndiceerd is.

* een duidelijke afname van het stotteren komt overeen met een gemiddelde vermindering van minimaal 2 punten op de 8-puntsschaal voor stotterernst (Yairi & Ambrose, 2005) of een gemiddelde vermindering van 2 punten op de schaal voor stotterernst behorende bij het Lidcombe Programma. Deze afname in ernst dient zowel door de ouder als de logopedist / logopedist-stottertherapeut te worden geconstateerd. .

Rationale voor de aanbevelingen

- Stotteren kan ernstige gevolgen hebben op de kwaliteit van leven van kinderen en volwassenen die stotteren.

- Behandelen van jonge stotterende kinderen is effectiever dan behandelen van kinderen die zes jaar of ouder zijn: de kans op terugval is kleiner en de kans op blijvend herstel groter (Ingham & Cordes 1998; Lincoln et al 1996; Koushik et al 2009).
- Behandeling van stotteren voordat het stotteren 15 maanden aanwezig is geeft een hogere kans op herstel dan behandeling van stotteren gestart als het stotteren meer dan 15 maanden aanwezig is (Ingham & Cordes 1998).
- Waarneming van de eerste symptomen van stotteren na 4- of 5-jarige leeftijd wordt geassocieerd met een verhoogde kans op blijvend stotteren (Yairi & Ambrose 2005; Seery & Yairi 2011).
- Een grote groep kinderen die begint met stotteren herstelt volledig zonder behandeling. Er bestaan echter grote verschillen in de cijfers over spontaan herstel (Yairi & Ambrose 2013; Onslow & O'Brian 2013).
- Uitstel van behandeling gedurende een jaar verlengt de behandelduur niet (Jones et al 2000; Kingston et al 2003).
- Indien een jaar nadat de eerste stotterersymptomen zijn waargenomen het stotteren nog aanwezig is, neemt zonder behandeling de kans op blijvend stotteren toe (Yairi & Ambrose 2005; Seery & Yairi 2011).
- Een neerwaartse trend in de stotterernst gedurende het eerste jaar nadat de eerste stotterersymptomen zijn waargenomen is een duidelijk signaal voor mogelijk herstel.
- Afname van het aantal herhalingen, van het aantal units per herhaling, van blokkades en verlengingen en van bijkomende lichamelijke gedraging evenals verlaging van het tempo van de herhalingen zijn gunstige voorspellers voor herstel (Yairi & Ambrose 2005; Seery & Yairi 2011).
- De ernst van het stotteren is het eerste jaar geen voorspeller voor blijvend stotteren of voor herstel van het stotteren (Yairi & Ambrose 2005; Seery & Yairi 2011).
- Stotterernst, aanwezigheid van secundair gedrag, blokkades en verlengingen zijn voorspellers voor blijvend stotteren als het stotteren één jaar of langer aanwezig is (Yairi & Ambrose 2005; Seery & Yairi 2011).
- Wanneer ouders/verzorgers bezorgd zijn over het stotteren van hun kind, is therapeutische interventie geïndiceerd (Reilly et al 2013).
- De gemiddelde gewogen SLD-score neemt een half jaar tot een jaar na het ontstaan van het stotteren met meer dan de helft af bij de groep kinderen die herstelt van het stotteren. De gemiddelde gewogen SLD-score bij de groep kinderen die blijft stotteren neemt een half jaar tot een jaar na het ontstaan van het stotteren minimaal af. Een vergelijkbare tendens is zichtbaar voor stotterernst (Yairi & Ambrose 2005).
- Indien blijvend stotteren in de familie aanwezig is dan is de kans op blijvend stotteren van het kind 65%. Bij aanwezigheid van hersteld stotteren in de familie van het kind dat stottert is de kans op herstel 65% (Yairi & Ambrose 2005; Seery & Yairi 2011). Op jonge leeftijd is de verhouding jongens die stotteren en meisjes die stotteren 2:1. De ratio stotterende mannen-vrouwen bij volwassenen is ongeveer 4:1. Meisjes herstellen sneller. Indien bij een meisje dat stottert één jaar na het ontstaan van het stotteren geen duidelijk herstel merkbaar is dan neemt de kans op blijvend stotteren toe (Yairi & Ambrose 2005; Seery & Yairi 2011).

⁵ De gewogen SLD-score is ontwikkeld om licht, maar duidelijk stotteren beter te kunnen onderscheiden van normaal on-vloeiend spreken. In de gewogen SLD-score tellen blokkades en verlengingen twee keer zo zwaar mee, aanwezige herhalingen worden gewogen met aantal units, bijv: i-ik telt 1 keer mee en i-i-i-ik 3 keer.

- Bijkomende stoornissen, een hogere negatieve reactiviteit en lagere zelfregulatie kunnen de stotterproblematiek compliceren en de kans op blijvend stotteren verhogen.
- Ouders van kinderen die stotteren melden regelmatig dat zij te laat zijn verwezen naar de logopedist of logopedist-stottertherapeut.
- De SLS is in Nederland meest gehanteerde screeningsinstrument voor stotteren. De SLS is gratis beschikbaar via diverse websites.

Literatuur

1. Eggers, K. (2012). Temperamental Characteristics of children with developmental stuttering: From parent questionnaire to neuropsychological paradigms. Doctoral thesis in Biomedical Sciences, Leuven. Doctoral thesis in Developmental Psychology, Tilburg
2. Finn, P., Howard, R., & Kubala, R. (2005). Unassisted recovery from stuttering: self-perceptions of current speech behavior, attitudes, and feelings. *Journal of Fluency Disorders*, 30, 281-305.
3. Ingham, R.J. & Cordes, A.K. (1998). Treatment Decisions for Young Children Who Stutter: Further Concerns and Complexities. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 7, 10-19.
4. Kell, C.A., Neumann, K., Kriegstein von, K., Gudenberg von, C. A., Euler, H., & Giraud, A. (2009). How the brain repairs stuttering. *Brain*, 2747–2760.
5. Jones, M., Onslow, M., Harrison, E., Packman, A. (2000). Treating stuttering in young children: Predicting treatment time with the Lidcombe Program. *Journal Speech Language Hearing research*, 43(6); 1440-1450.
6. Kingston, M., Huber, A., Onslow, M., Jones, M., Packman, A. (2003). Predicting treatment time with the Lidcombe Program: replication and meta-analysis. *International Journal Language Communication Disorders*, 38 (2), 165-177.
7. Korrelboom, C.W. & Kernkamp, J.H.B. (1993). *Gedragstherapie*. Uitgeverij Countinho.
8. Koushik, S., Shenker, R., Onslow M. (2009). Follow-up of 6-10-year-old stuttering children after Lidcombe Program treatment: a Phase I trial. *Journal of Fluency Disorders*, 34, 279–290.
9. Koushik, S., Hewat, S., Shenker, R.C., Jones, M. & Onslow, M. (2011). North-American Lidcombe Program file audit; Replication and meta-analysis. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 13(4), 301-307.
10. Lincoln, M., Onslow, M., Lewis, C., Wilson, L.A. (1996). A clinical trial of operant treatment for school-age children who stutter. *American Journal Speech Language Pathology*, 5, 73-85
11. Onslow, M. & O'Brian, S. (2013). Management of childhood stuttering. *Journal of Paediatrics and Child Health*, 49, E112-E115.
12. Reilly, S., Onslow, M., Packman, A., Wake, M., Bavin, E., Prior, M., et al. (2009). Predicting stuttering onset by age 3 years: A prospective, community cohort study. *Pediatrics*, 123, 270 – 277.
13. Reilly, S., Onslow, M., Packman, A., Cini, E., Conway, L., Obioha, et al. (2013). Natural History of Stuttering to 4 Years of Age: A Prospective Community-Based Study. *Pediatrics*, 460-467, 270 – 277. Geraadpleegd op 10 maart 2014, pediatrics.aappublications.org.
14. Yairi, E. & Ambrose, N. G. (2005). *Early childhood stuttering*. Austin Texas, Pro-Ed.
15. Yairi, E. & Seery, C.H. (2011). *Stuttering. Foundations and Clinical Applications*. New Jersey. Pearson.
16. Yairi, E. & Ambrose, N. (2013) Epidemiology of stuttering: 21st century advances. *Journal of Fluency Disorders* 38. 66–87.

Hoofdstuk 4: Wat is de diagnostische waarde van tests bij kinderen en volwassenen met stotteren?

4.1 Inleiding

Stotteren wordt beschouwd als een multifactorieel probleem. Diagnostiek van stotteren is meer dan vaststellen of er al dan niet sprake is van stotteren. Tijdens de assessment fase dient de logopedist de verschillende ICF-domeinen (functies, externe factoren, contextuele factoren, persoonlijke factoren, participatie en activiteiten) uit te diepen en hun onderlinge samenhang te inventariseren, analyseren en interpreteren. De Gestandaardiseerde Logopedie Stottertherapie (GLS, bijlage 1) biedt de logopedist hiertoe een handvat. Voor het verkrijgen van een zo compleet mogelijk beeld hanteert de logopedist de op dat moment beste beschikbare diagnostische instrumenten en betreft alle voor de diagnostiek relevante personen uit de omgeving van de cliënt in het assessment. In dit hoofdstuk wordt de waarde van de in Nederland meest gehanteerde diagnostische instrumenten besproken.

Binnen het medisch domein zijn er veel voorbeelden van situaties te vinden waarin een zogeheten gouden standaard – vaak een histologisch onderzoek – beschikbaar is waarmee de uitkomsten van een screenings- of diagnostische test kunnen worden vergeleken (Biddle 2002; Rutjes 2007). Deze gouden standaard is het (valide) instrument om met zekerheid een diagnose te stellen. In dit soort situaties kan men zich wat een diagnostische test betreft beperken tot de criteriumvaliditeit (zie verder) en de betrouwbaarheid ervan. In plaats van criteriumvaliditeit wordt veelal het begrip testaccuratesse gebruikt. Deze accuratesse kan worden uitgedrukt in sensitiviteit, specificiteit, positief voorspellende en negatief voorspellende waarde. Bij een negatieve uitslag van een zeer sensitieve test kan de ziekte worden uitgesloten. Bij een positieve uitslag van een zeer specifieke test kan de ziekte worden aangetoond.

Ontbreekt er echter een gouden (of zilveren, eventueel koperen) standaard, dan is er geen “waarheid” meer en voldoet het paradigma van de diagnostische accuratesse niet meer. In dat geval wordt het paradigma van de diverse aspecten van validiteit relevant. Belangrijke begrippen zijn in dit verband inhoudsvaliditeit (content validity), criterium validiteit (criterion-related validity) en begripsvaliditeit (construct validity) van een test of instrument.

Inhoudsvaliditeit

Hierbij gaat het om de mate waarin de items van een instrument adequaat de dimensie(s) representeren die moeten worden gemeten. Deze evaluatie is veelal subjectief, d.w.z. wordt door experts uitgevoerd die beoordelen of de items voldoende geschikt zijn.

Criteriumvaliditeit

Hierbij gaat het erom hoe effectief een instrument iemands presteren tijdens specifieke activiteiten voorspelt, zoals het presteren op een ander overeenkomstig instrument (concurrente validiteit) of van toekomstig gedrag (predictieve validiteit).

Begripsvaliditeit

Hierbij gaat het om de mate waarin een test een theoretisch begrip of een kenmerk meet. Onderscheid kan worden gemaakt tussen convergente en divergente validiteit.

In geval van convergente validiteit, zijn testontwikkelaars geïnteresseerd in de vraag of een instrument sterk correleert met variabelen of karakteristieken waarmee het sterk zou moeten correleren. Een instrument dat bijvoorbeeld articuleren meet zou sterk moeten correleren met andere instrumenten die articulatie meten.

Divergente validiteit is aanwezig wanneer een instrument *niet* correleert met variabelen waarvan het zou moeten verschillen.

Naast valide dient een instrument ook betrouwbaar te zijn. Hierbij zijn de volgende begrippen van belang: interne consistentie, test-hertestbetrouwbaarheid, intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid, en interbeoordelaarsbetrouwbaarheid.

Interne consistentie

Interne consistentie (inter-item consistentie) meet hoe goed de individuele items (of vragen) van een schaal of schalen overeenkomen met samengestelde scores.

Test-hertestbetrouwbaarheid

Test-hertestbetrouwbaarheid meet de consistentie van scores op twee verschillende tijdstippen.

Intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid

Intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid meet of bij meermalen toepassen van een test, de onderzoeker of het testinstrument dezelfde scores toewijst aan een individu.

Interbeoordelaarsbetrouwbaarheid

Interbeoordelaarsbetrouwbaarheid meet of twee waarnemers of onderzoekers een individu op dezelfde manier scoren.

In dit hoofdstuk zullen de validiteit en betrouwbaarheid van een aantal meetinstrumenten, die in Nederland worden toegepast of waarin hier te lande interesse bestaat, worden besproken. Het betreft de volgende instrumenten:

- **Screeningslijst Stotteren** en **Detectie Instrument Stotteren**, beide gebruikt voor *signalering / detectie* van stotteren
- **Communication Attitude Test -DR**,
- **Test voor Stotterernst (TVS) lezers / niet-lezers** en **Stuttering Severity Instrument (SSI- 3/4)**, beide gebruikt voor het bepalen van de *stotterernst*
- **Behavior Assessment Battery (BAB)** inclusief **Communication Attitude Test** en **Erickson-S24** en **Overall Assessment of Speaker's Experience of Stuttering (OASES)**, beide gebruikt om verschillende aspecten van de *kwaliteit van leven* te inventariseren.

TVS, SSI-4, OASES en BAB meten ook op verschillende manieren *vermijdingsgedrag*.

4.2 Methode

Er is zowel in bibliografische databases (Medline, Cinahl, Cochrane, Picarta) als via Google gezocht naar relevante studies (zie bijlage 5 voor de gebruikte bronnen en trefwoorden).

Voor de beoordeling van de kwaliteit van diagnostische instrumenten waarvoor geen gouden standaard bestaat is GRADE ongeschikt; dit geldt ook voor de graderingssystemen die voorheen in gebruik waren. In plaats daarvan worden er voor de beoordeling statistische maten gehanteerd, waar-

van de waarde wordt geïnterpreteerd in termen van bijvoorbeeld geringe, matige, goede of perfecte betrouwbaarheid.

Biddle, Watson en Hooper (2002) publiceerden in hun rapport 'Criteria for Determining Disability in Speech-Language Disorders. Evidence Reports/Technology Assessments, No. 52' criteria voor het bepalen van de *mate* van validiteit en van betrouwbaarheid van tests of meetinstrumenten.

Voor de verschillende aspecten van *betrouwbaarheid* hanteerden zij de volgende criteria:

- Interne consistentie:
 - zowel Cronbach's coëfficiënt alfa als de Kuder-Richardson statistic (K-R 20), dient tenminste 0.80 te zijn om van goede interne consistentie te kunnen spreken;
- Test-hertest- en intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid:
 - tenminste 0.80 in geval van een correlatiecoëfficiënt, of tenminste 0.70 in geval van Cohen's Kappa;
- Interbeoordelaarsbetrouwbaarheid:
 - tenminste 0.90 in geval van een correlatiecoëfficiënt, of tenminste 0.70 in geval van Cohen's Kappa.

Voor de verschillende aspecten van *validiteit* werden door Biddle, Watson en Hooper (2002) de volgende criteria gehanteerd, waarbij aan *alle* criteria moet worden voldaan om van een valide instrument te kunnen spreken:

- testontwikkelaars onderzoeken de relaties tussen sub-testen, samengestelde scores, en totaal-scores, waarbij a priori hypothesen met betrekking tot deze relaties en scorepatronen worden geformuleerd;
- deze relaties dienen alle statistisch significant ($p < 0.05$) te zijn, en
- in geval van correlatiecoëfficiënten, dienen deze tenminste 0.30 (overeenkomend met een matige correlatie) te zijn.

Met betrekking tot *normering* werden door Biddle, Watson en Hooper (2002) de volgende criteria gehanteerd, waarbij aan *alle* criteria moet worden voldaan om van een goede normering te kunnen spreken:

- er zijn voor het betreffende meetinstrument data met betrekking tot de doelpopulatie beschikbaar;
- er dient een adequate steekproef te zijn getrokken (tenminste 100 per groep); en
- er wordt evidence verschaft hoe representatief de steekproef is voor de populatie.

4.3 Onderbouwing

a. Tests voor het bepalen van de stotterernst

• Stuttering Severity Instrument

De SSI 3/4 is een instrument om de ernst van het waarneembare stottergedrag te bepalen. Het instrument maakt gebruik van onder meer de volgende dimensies:

- frequentie: uitgedrukt als percentage van gestotterde lettergrepen en geconverteerd naar een schaal met scores variërend van 2 tot en met 18,
- duur: gemiddelde lengte van de drie langste stottermomenten, afgerond op een tiende van een seconde en geconverteerd naar een schaal met scores variërend van 2 tot en met 18,

- begeleidende fysieke nevenverschijnselen: storende geluiden (score 0-5) , grimas in het gelaat (score 0-5), hoofdbewegingen (score 0-5) en arm- en beenbewegingen (score 0-5), uitgedrukt in een score variërend van 0 tot en met 20.

Informatie van Riley over de inhoudsvaliditeit van de SSI-3 ontbreekt (Riley 2002). Over de criteriumvaliditeit geeft hij alleen indirecte evidentie. Noch de betrouwbaarheid noch de normering blijken volgens adequaat (Biddle 2002).

De SSI-4 verschilt in enkele opzichten van de SSI-3: *'The SSI-4 attempts to offer more avenues of evaluation, including self-reports and additional beyond clinic and telephone samples'*. Ook is er de mogelijkheid van scores berekenen met de computer, en een score voor de natuurlijkheid van de spraak is toegevoegd. De validiteit van dit instrument is adequaat. De betrouwbaarheid is moeilijk te beoordelen omdat geen kappa statistics worden gerapporteerd maar percentages overeenstemming. Bij deze percentages is geen rekening gehouden met het percentage 'toevallige' overeenstemming. De normering is inadequaat vanwege te kleine en niet noodzakelijkerwijs representatieve steekproeven. De SSI-3 is in het Nederlands vertaald maar niet gevalideerd. De psychometrische gegevens zijn niet bekend. De SSI-4 is niet in het Nederlands vertaald noch gevalideerd voor de Nederlandse praktijk.

Conclusie

De validiteit en betrouwbaarheid van de Engelstalige SSI-4 zijn beter onderzocht dan die van de Engelstalige SSI-3. De validiteit voldoet aan de criteria die aan een daadwerkelijk valide test kunnen worden gesteld. Dit kan niet worden gezegd van de normering, terwijl de betrouwbaarheid moeilijk valt te beoordelen vanwege het ontbreken van kappa-coëfficiënten.

• TVS-L en TVS-NL

Over de validiteit en betrouwbaarheid van twee tests, Test Voor Stotterernst bij lezers (TVS-L) en Test Voor Stotterernst bij niet-lezers (TVS-NL), heeft Boey (2000) gepubliceerd. Hoe de kinderen werden gerekruteerd en geselecteerd is niet beschreven. In geval van de TVS-L werden van 177 cliënten in de leeftijd van 8 jaar en 1 maand tot 53 jaar en 9 maand, gegevens verkregen waarop de normering werd gebaseerd. De sekseratio van deze 177 cliënten wordt niet vermeld. In geval van de TVS-NL werden van 342 kinderen in de leeftijd van 2 tot 7 jaar gegevens verkregen waarop de normering werd gebaseerd. De sekseratio was volgens Boey 256:86.⁶

Voor beide tests geldt dat weinig methodische informatie wordt gegeven over inhoudsvaliditeit, terwijl de begripsvaliditeit niet wordt besproken. Volgens de criteria van Biddle (Biddle 2002), in het vervolg aangeduid als BWH-criteria, is er dan ook geen sprake van een *bewezen* valide test.

Ook de betrouwbaarheid van deze tests laat volgens de BWH-criteria te wensen over. Informatie over de interne consistentie ontbreekt, terwijl de test-hertest betrouwbaarheid de drempelwaarde voor betrouwbaarheid niet overschrijdt. In geval van de TVS-NL is ook de interbeoordelaar betrouwbaarheid niet op het vereiste niveau. Wat de normering van beide tests betreft kan worden opgemerkt dat de representativiteit van de steekproef niet beoordeeld kan worden.

Conclusie

Over de inhoudsvaliditeit wordt matig gerapporteerd. De criterium validiteit van de TVS-L/TVS-NL lijkt voldoende. Er wordt geen informatie over de begripsvaliditeit gegeven. De betrouwbaarheid en de normering lijken niet in alle opzichten voldoende.

⁶ Het moet hier om een fout gaan want $256 + 86 = 342$ en niet 352.

b. Tests voor het signaleren van stotteren

De twee te bespreken tests voor het signaleren van stotteren, de Screeningslijst Stotteren en het Vlaamse Detectie Instrument Stotteren zijn beide afgeleid van een door Riley en Riley ontwikkeld testinstrument en vertonen derhalve een sterke overeenkomst. Vanwege hun bestaan als apart meetinstrument zullen zij afzonderlijk worden besproken.

• Screeningslijst Stotteren

De Screeningslijst Stotteren (SLS) is een meetinstrument, waarmee men beoogt vast te stellen of er sprake is van (beginnend) stotteren, of het kind risico op blijvend stotteren loopt en of het kind direct hulp nodig heeft. Aan de ouders wordt gevraagd een formulier van zes vragen te beantwoorden. De Vereniging Stottercentra Nederland omschrijft dit meetinstrument als 'zeer betrouwbaar en valide', maar voor specifieke informatie wordt verwezen naar het Instituut voor Nieuw Stotteronderzoek (INSO) te Zutphen. Deze informatie is echter niet toegankelijk of beschikbaar.

De Screeningslijst voor Stotteren (SLS) is gebaseerd op een Amerikaans testinstrument (Riley 1989). De items in deze screeningslijst zijn als volgt tot stand gekomen. Items uit het Stuttering Prediction Instrument (SPI) werden getest bij 80 kinderen (4-7 jaar) die geaccepteerd waren voor stottertherapie en 31 kinderen die werden gevolgd maar geen therapie kregen. Geen van deze 31 kinderen bleek overigens binnen twee jaar therapie nodig te hebben. Riley en Riley vergeleken vervolgens de scores op de items tussen de kinderen die in therapie waren en de kinderen die geen therapie kregen om het percentage fout-positieven te berekenen. Deze percentages varieerden van 0% ('phonatory arrests') tot 12,6% ('onset more than 12 months ago'). Dat wil zeggen dat geen van de kinderen met 'phonatory arrests' ten onrechte in therapie zou zijn, maar 126 op de 1.000 kinderen bij wie meer dan 1 jaar terug haperend praten werd geconstateerd, onnodig voor therapie zou worden verwezen. De geteste items werden in leken termen gedefinieerd en gerubriceerd weergegeven in een screeningslijst met het advies om bij aanwezigheid van drie of meer symptomen te verwijzen naar een stottertherapeut.

• Detectie Instrument Stotteren

Volgens Stes en Boey (1997) is het Detectie Instrument Stotteren (DIS.) 'een instrument dat toelaat jonge kinderen te selecteren die mogelijk stotteren en tevens aanwijzingen geeft over de ernst van het stotteren en de risico's op chronisch stotteren. Het is in essentie een eenvoudige, korte vragenlijst die door ouders, eventueel met behulp van een hulpverlener, wordt ingevuld'.

De onderzoeksgroep waarbij DIS. werd onderzocht, is als volgt tot stand gekomen. Kinderen (n=42; gemiddelde leeftijd: 68 maanden) die stotterden waren kinderen die zich aanboden in het Centrum voor Stottertherapie te Antwerpen. De sekseratio in deze groep was 34:8. Hoe de kinderen die niet stotterden (n=42; gemiddelde leeftijd: 67 maanden) werden gerekruteerd en geselecteerd wordt niet beschreven. De sekseratio in deze groep is dezelfde omdat de onderzoekers hiernaar bewust streefden.

Wat de validiteit betreft verschaften Stes en Boey (1997) alleen informatie over de criterium validiteit waarbij het stuttering prediction instrument (SPI) als 'gouden standaard' werd gehanteerd. Hoe het onderzoek om de criterium validiteit te bepalen precies werd uitgevoerd, is niet in detail beschreven: was de onderzoeker die met het SPI naging of er sprake was van stotteren bijvoorbeeld wel of niet op de hoogte van de uitkomst van de meting met de Screeningslijst Stotteren (ook wel Detectie Instrument Stotteren genoemd) en *vice versa*? Hoe het ook zij Stes en Boey berekenen een hoge sensitiviteit en specificiteit van hun DIS (tabel). De positief voorspellende waarde van de test blijkt evenwel niet zo hoog te zijn: 0,63 en 0,55 bij een afkapwaarde van $SPI \geq 10$ respectievelijk

SPI>13. De corresponderende negatief voorspellende waarden zijn 0.98 respectievelijk 1.00. De test lijkt dan ook beter in het uitsluiten dan aantonen van stotteren, terwijl meer dan 10% van de kinderen ten onrechte wordt doorverwezen in verband met stotteren. Over de verschillende aspecten van betrouwbaarheid en normering verschaffen Stes en Boey geen informatie.

Conclusie

Over de validiteit en betrouwbaarheid van het Detectie Instrument Stotteren en de Screeningslijst Stotteren is onvoldoende informatie bekend dan wel beschikbaar om een oordeel over de validiteit en betrouwbaarheid van dit instrument te vellen.

c. Tests voor het bepalen van de spreekattitude

In 1985 ontwikkelde de Amerikaan Brutten de Communication Attitude Test (CAT). Deze oorspronkelijke Amerikaanse CAT werd vervolgens in het Nederlands vertaald als Communication Attitude Test-Dutch (CAT-D). Volgens Bremer et al (1993) is in de praktijk gebleken 'dat het taalgebruik van de items hoge eisen stelt aan het taalniveau van de kinderen. Deze auteurs hebben een vereenvoudigde versie ontwikkeld onder de naam Communication Attitude Test-Dutch Revised (CAT-DR). De rationale van dit instrument is volgens Bremer et al dat 'steeds meer auteurs aantonen dat spreekattitudes bij kinderen wel van invloed zijn op hun vloeiendheidsprobleem'. De CAT-D omvat 32 items met uitspraken of stellingen die het spreken betreffen. In de CAT-DR zijn onder meer zinnen met ontkenningen aangepast en zijn wijzigingen aangebracht in woordkeuzes en zinsconstructies. Bij een groep van 164 *normaal sprekende* kinderen uit Almere in de leeftijd van 6 tot 13 jaar zijn de CAT-D en CAT-DR met elkaar vergeleken. Daarbij werd gekeken naar de test-hertest betrouwbaarheid, begripsvaliditeit, interne consistentie en normering. Wat test-hertest betrouwbaarheid betreft scoort de CAT-DR aanzienlijk beter dan de CAT-D. De interne consistentie van de CAT-DR is goed, en iets beter dan die van de CAT-D. Qua begripsvaliditeit komen CAT-D en CAT-DR goed overeen. Andere aspecten van validiteit en betrouwbaarheid werden niet onderzocht. Wat de normering betreft komen CAT-D en CAT-DR niet overeen, omdat bij CAT-DR de scores niet alleen naar leeftijd maar ook naar geslacht verschillen. De aantallen kinderen in het onderzoek uitgesplitst naar geslacht en leeftijd zijn onvoldoende om van een adequate normering te spreken. Ook het feit dat de kinderen alleen in Almere zijn gerekruteerd pleit niet voor een adequate normering.

Conclusie

De begripsvaliditeit van de CAT-DR lijkt voldoende. Over andere aspecten van validiteit is geen informatie bekend. De betrouwbaarheid lijkt voldoende. Dit geldt echter niet voor de normering.

d. -Tests voor het verkrijgen van een multidimensionele blik op spraakproblemen en spraak gerelateerde problemen

- **Behavior Assessment Battery (BAB) voor volwassenen**

De BAB – een door Brutten en Vanryckeghem (2003) ontwikkeld multidimensioneel onderzoeksinstrument dat de gedragsmatige, de cognitieve en de affectieve componenten van het stotteren onderzoekt - bestaat uit drie op zelfrapportage gebaseerde testprocedures: de Speech Situation Checklist (SSC), de Behavior Checklist (BCL) en de Erickson S-24 (S-24). De SSC evalueert de mate waarin een cliënt een spreesituatie als angst uitlokkend en spraak verstorend beleeft. De SSC bestaat uit twee onderdelen: de SSC-ER en de SSC-SD. Het eerste onderdeel beoogt de mate van emotionele

reacties in kaart te brengen die iemand ervaart in 55 gesprekssituaties. Het tweede onderdeel betreft het meten van de mate van spraakverstoring gerelateerd aan deze gesprekssituaties. De BCL is ontwikkeld om aantal en frequentie van gedragingen te meten die de persoon die stottert bewust toepast als een manier van omgaan met (het anticiperen op) het optreden van onvloeiheden. Het gaat dus om vermijdingsgedrag. De S-24 / CAT meet de attitude van de cliënt ten aanzien van spreken en communicatie.

Volgens Dines (2011) heeft de BAB een aantal evidente voordelen:

- over de BAB zijn zeer positieve reviews verschenen;
- de BAB is beproefd in vele uiteenlopende culturele settings om de tests te valideren;
- de met de BAB verkregen informatie stelt de behandelaar in staat de therapie in te richten naar gelang de behoeften van de cliënt.

Als nadelen beschouwd Dines (2011) de hoge kosten en de tijd die gemoeid is met het afnemen van alle tests.

De samenstelling van de onderzoeksgroep waarbij de SSC werd onderzocht, was de volgende. Er werden 41 personen gerekruteerd die stotterden en 155 personen die niet stotterden. De leeftijden van de eerste groep varieerden van 17 tot 50 jaar, die van de tweede groep van 18 tot 50 jaar. De sekseratio was 32:9 voor de eerste groep en 73:82 in de tweede groep. Deze verhoudingen komen redelijk goed overeen met wat in de populatie wordt gevonden.

Brutten en Vanryckeghem hebben diverse aspecten van validiteit en normering van de *SSC-ER* en *SSC-SD* onderzocht. Wat de betrouwbaarheid betreft hebben deze onderzoekers zich beperkt tot het beoordelen van de interne consistentie. Waarom bijvoorbeeld de test-hertest betrouwbaarheid niet is geëvalueerd is onduidelijk.

Conclusie

De validiteit van de SSC is adequaat getuige de positieve bevindingen ten aanzien van begripsvaliditeit, inhoudsvaliditeit en criterium validiteit. De betrouwbaarheid is ten dele onderzocht. De normering lijkt adequaat.

De *betrouwbaarheid van de BCL* hebben Brutten en Vanryckeghem niet onderzocht. De argumentatie om dat niet te doen heeft alleen betrekking op het onderzoeken van de interne inconsistentie. Waarom bijvoorbeeld de test-hertest betrouwbaarheid niet is geëvalueerd is onduidelijk. De validiteit in al zijn facetten is uitgebreid onderzocht. Wat de normering betreft moet worden opgemerkt dat het onduidelijk is of sekse een rol speelt in het gebruik van 'speech aids'. In de steekproef maakten vrouwen die stotterden significant meer gebruik van 'speech aids' dan mannen die stotterden. Maar dit kan een artefact zijn van het feit dat er op 31 mannen die stotterden slechts acht vrouwen waren die stotterden.

Conclusie

De validiteit van de BCL is adequaat getuige de positieve bevindingen ten aanzien van begripsvaliditeit, inhoudsvaliditeit en criterium validiteit. De betrouwbaarheid is niet onderzocht. Voor de normering is verder onderzoek nodig naar het eventuele effect van sekse op de BCL-scores voor zover het personen betreft die stotteren.

De *betrouwbaarheid van de S-24* hebben Brutten en Vanryckeghem alleen onderzocht voor het onderdeel interne consistentie. Deze was voldoende. De validiteit in al zijn facetten is uitgebreid onderzocht en was goed. Wat de normering betreft kan worden opgemerkt dat sekse geen rol speelt in de score op de S-24. Dit geldt zowel voor de personen die stotteren als de personen die niet stotteren.

Conclusie

De validiteit van de S-24 is adequaat getuige de positieve bevindingen ten aanzien van begripsvaliditeit, inhoudsvaliditeit en criterium validiteit. De betrouwbaarheid is ten dele onderzocht. De normering lijkt adequaat.

- **Behavior Assessment Battery (BAB) voor kinderen**

De BAB voor kinderen bestaat uit dezelfde drie onderdelen als de BAB voor volwassenen, behalve dat in plaats van de S-24 de Communication Attitude Test (CAT) hiervan onderdeel is. De voor- en nadelen van de BAB, zoals verwoord door Dines et al (2011), zijn in het voorgaande al besproken.

De onderzoeksgroep waarbij de BAB voor kinderen werd onderzocht kwam als volgt tot stand. Van de St-Michiëlsschool te Merelbeke in Vlaanderen werden 270 kinderen gerekruteerd. De sekseratio was 145:126. De leeftijd van deze kinderen varieerde van 7 tot 12 jaar, met 9 jaar en 3 maanden als gemiddelde. Volgens de onderzoekers zou het hier een voor Vlaanderen representatieve groep van kinderen betreffen. Negentig kinderen werden gerekruteerd uit klinische centra en privé praktijken verspreid door Vlaanderen. Deze kinderen waren gemiddeld 9 jaar en 4 maanden oud. De sekseratio was 70:20.

Wat de betrouwbaarheid van de SSC betreft hebben de onderzoekers zich beperkt tot de interne inconsistentie. Waarom de test-hertest betrouwbaarheid niet is onderzocht, wordt niet toegelicht door de onderzoekers. De interne consistentie van de SSC is goed. Dat geldt eveneens voor de diverse aspecten van validiteit. Een belangrijke bevinding in het onderzoek was dat de sekse van kinderen die stotteren, geen effect heeft op de scores op de SSC-ER en de SSC-SD, maar dat dit niet geldt bij kinderen die niet stotteren: meisjes scoren hoger op de SSC-ER en SSC-SD dan jongens.

Conclusie

De validiteit van de SSC-ER en SSC-SD bij kinderen is adequaat getuige de positieve bevindingen ten aanzien van begripsvaliditeit, inhoudsvaliditeit en criterium validiteit. De betrouwbaarheid is ten dele onderzocht. De normering lijkt adequaat.

De *betrouwbaarheid van de BCL* hebben Brutten en Vanryckeghem niet onderzocht. De argumentatie om dat niet te doen heeft alleen betrekking op het onderzoeken van de interne inconsistentie. Waarom bijvoorbeeld de test-hertestbetrouwbaarheid niet is geëvalueerd is onduidelijk. De validiteit in al zijn facetten is uitgebreid onderzocht en kan als goed worden omschreven. Anders dan voor de SSC werd voor de BCL geen sekse-effect gevonden op de scores.

Conclusie

De validiteit van de BCL bij kinderen is adequaat getuige de positieve bevindingen ten aanzien van begripsvaliditeit, inhoudsvaliditeit en criterium validiteit. De betrouwbaarheid is niet onderzocht. De normering lijkt adequaat.

Diverse aspecten van de *betrouwbaarheid van de Communication Attitude Test (CAT)*, zoals de interne consistentie en de test-herstestbetrouwbaarheid, werden door Brutten en Vanryckeghem onderzocht. Tezamen wijzen deze op een redelijk betrouwbare test. In het kader van de test-herstestbetrouwbaarheid bespreken de onderzoekers ook de sensitiviteit of het discriminerend vermogen van de test. Zij vermelden een Zweedse studie waaruit blijkt dat de scores na therapie beduidend lager zijn dan die van de kinderen die voor de therapie op de wachtlijst stonden. De validiteit in al zijn facetten is uitgebreid onderzocht en kan als goed worden omschreven. De CAT-scores van schoolkinderen werden niet beïnvloed door sekse.

Conclusie

De validiteit van de CAT voor kinderen is adequaat getuige de positieve bevindingen ten aanzien van begripsvaliditeit, inhoudsvaliditeit en criteriumvaliditeit. De betrouwbaarheid lijkt evenals de normering adequaat.

• Overall Assessment of the Dutch Speaker's Experience of Stuttering for adults (OASES-A-D)

Belangrijk werk ten aanzien van de psychometrische evaluatie van de Nederlandse vertaling van de Overall Assessment of the Speaker's Experience of Stuttering for adults (OASES-A-D) is hier te lande verricht door Koedoot (2011). OASES-A-D is een op zelfrapportage gebaseerd instrument dat bestaat uit vier onderdelen:

10. algemene informatie over het stotteren (20 items)
11. affectieve, gedragsmatige en cognitieve reacties op het stotteren (30 items)
12. functionele communicatie moeilijkheden (25 items) en
13. invloed van het stotteren op de kwaliteit van leven (25 items)

Koedoot (2011) betrok 142 personen in hun onderzoek. De gegevens werden deels verkregen uit een ander onderzoek, deels werden ze door logopedisten-stottertherapeuten aangedragen die hun cliënten hadden gevraagd om de OASES-A-D in te vullen. In deze steekproef waren hoger opgeleiden oververtegenwoordigd: 50% tegenover 27% in de algemene bevolking, hetgeen de generaliseerbaarheid van de onderzoeksresultaten ondermijnt. De sekseratio was 101:37.⁷ De gemiddelde leeftijd was 34.5 jaar en de leeftijd varieerde van 18 tot 74 jaar.

Wat de betrouwbaarheid betreft evalueerde Koedoot (2011) alleen de interne consistentie; deze kan als goed worden getypeerd. Buiten beschouwing bleef de test-herstest betrouwbaarheid. Wat de validiteit betreft werden de criteriumvaliditeit en de begripsvaliditeit onderzocht. De inhoudsvaliditeit bleef dus buiten beschouwing. De resultaten ten aanzien van criterium validiteit waren goed te noemen gelet op sterke correlaties tussen de impact scores van de OASES-A-D en diverse andere meetinstrumenten, zoals de Nederlandse versie van de S-24. Op de begripsvaliditeit van de OASES-A-D valt wel een en ander af te dingen. Zo merken Koedoot et al (2011) zelf op: ... *the moderate and severe categories of the SA scale (SA is self assessment scale. Dit is de door Huinck en Peters gebruikte schaal voor zelfbeleving) did not show significant differences in mean OASES-A-D Impact score*'.

Conclusie

De betrouwbaarheid van de OASES-A-D is nog niet voldoende onderzocht om dit meetinstrument als een valide en betrouwbaar diagnostisch instrument te kunnen bestempelen. Informatie over de normering ontbreekt.⁸

⁷ Vier personen werden uitgesloten omdat zij jonger dan 18 jaar waren.

⁸ Het feit dat in Angelsaksische landen de betrouwbaarheid van een instrument getest en adequaat bevonden is, is geen garantie dat dit geldt voor het Nederlandse taalgebied.

- **Overall Assessment of the Dutch Speaker's Experience of Stuttering voor kinderen in de basisschoolleeftijd en voor tieners (OASES-S-D en OASES-T-D)**

Lankman (2013) heeft bij wijze van wetenschappelijke stage in het kader van de studie geneeskunde de Nederlandse vertaling van de OASES-S en OASES-T gevalideerd en geëvalueerd. Deze beide meetinstrumenten hebben dezelfde vier onderdelen als de OASES-A, zoals hiervoor beschreven. De OASES-S bestaat in totaal uit 60 vragen en de OASES-T uit 80 vragen. Voor haar onderzoek heeft Lankman 145 proefpersonen gerekruteerd via logopedisten en stottertherapeuten verspreid over Nederland, en als controlegroep (n=82) schoolleerlingen die niet stotteren. Voor de controlegroep werden kinderen van een basisschool te Leiden benaderd. Ofschoon de wijze van rekruteren uitgebreid wordt beschreven, is onduidelijk waar de tieners van 13 t/m 17 jaar werden gerekruteerd.

De OASES-S werd bij 152 personen afgenomen en de OASES-T bij 75 personen. De sekseratio van de groep personen die stotterden en bij wie de OASES-S werd afgenomen was 71:30, bij degenen die niet stotterden was dit 23:28. De overeenkomstige ratio's van de groep tieners bij wie de OASES-T werd afgenomen zijn 35:8 respectievelijk 18:13.

Wat de betrouwbaarheid betreft heeft Lankman alleen de interne consistentie van OASES-S en OASES-T onderzocht. De test-hertest betrouwbaarheid is niet onderzocht. Wat de validiteit betreft heeft Lankman onderzoek gedaan naar criterium validiteit en begripsvaliditeit. De inhoudsvaliditeit bleef derhalve buiten beschouwing.

De interne consistentie van de OASES-S is onvoldoende. Dit in tegenstelling tot wat Lankman rapporteert. Zij legt de lat voor de Cronbach's scores op een waarde van tenminste 0.70 om van een goede interne consistentie te spreken. Volgens de BWH-criteria zou deze tenminste 0.80 moeten zijn; de criteria die hier worden gehanteerd.⁹ De validiteit is getuige de bevindingen ten aanzien van criterium en begripsvaliditeit als goed te typeren. Aan de normering schort nog wel een en ander. De interne consistentie van de OASES-T is voldoende. Normeringsgegevens ontbreken echter. Zowel de begripsvaliditeit als de criteriumvaliditeit zijn toereikend getuige de positieve bevindingen van Lankman.

Conclusie

De betrouwbaarheid van de OASES-S-D en de OASES-T-D is nog onvoldoende onderzocht. Criteriumvaliditeit en begripsvaliditeit zijn adequaat. Informatie over de normering is incompleet.

e. Algehele conclusie

Voor geen enkel instrument zijn alle facetten van validiteit en betrouwbaarheid onderzocht. Dit houdt in dat er geen *bewezen* valide en betrouwbare test voorhanden is, met adequate normering.

Wat de validiteit betreft is de (Nederlandstalige, Vlaamse versie van de) Behavior Assessment Battery voor kinderen en volwassenen het best onderzocht, en scoort voor alle aspecten van validiteit goed. In termen van interne consistentie – één aspect van betrouwbaarheid – zijn de diverse onderdelen van

⁹ Volgens Biddle AK, Watson LR, Hooper CR, et al. (2002) 'is the criterion for reliability "strictly" met if the condition is met: Internal consistency reliability, measured using either Cronbach's coefficient alpha or Kuder-Richardson statistics (K-R 20), is greater than or equal to 0.90. Zij voegen er echter aan toe: 'Some might reasonably argue that the criterion for internal consistency reliability is set too high given the complexity of speech and language functioning and disorders. Additionally the resultant variability in daily performance suggests that our criterion for test-retest reliability or intra-rater reliability also may be too high. Thus, we defined a "relaxed" criterion, which differs from the strict criterion in that internal consistency reliability may be as low as 0.80 and/or test-retest/intra-rater reliability may be as low as 0.80 (correlations) or 0.70 (Cohen's Kappa)'.

de Behavior Assessment Battery (kinderen en volwassenen) ook betrouwbaar. Andere aspecten van betrouwbaarheid zoals test-hertest betrouwbaarheid zijn voor de verschillende onderdelen meestal niet onderzocht. Dit klemmt te meer omdat betrouwbaarheid van een test een eerste vereiste is. Een instrument dat wel valide maar niet betrouwbaar is heeft immers geen nut.

Wat betrouwbaarheid betreft is de test voor stotterernst(lezers en niet-lezers) het best onderzocht, maar niet in alle opzichten is de test helemaal betrouwbaar. De validiteit van deze test is deels onderzocht, en bleek wat criteriumvaliditeit betreft toereikend.

De resultaten van het onderzoek naar de (Nederlandstalige) versies van OASES voor volwassenen, kinderen van 7-12 en tieners van 13-17 jaar zien er wat validiteit betreft goed uit, maar moeten met het oog op betrouwbaarheid en normering verder worden onderzocht. De verschillende Nederlands-talige, leeftijdsspecifieke versies van OASES zijn overigens nog niet beschikbaar voor gebruik in de praktijk.

4.4 Van bewijs naar aanbevelingen

Kwaliteit van bewijs

Voor geen enkel instrument zijn alle facetten van validiteit en betrouwbaarheid onderzocht. Dit houdt in dat er geen volledig bewezen valide en betrouwbare test voorhanden is, met adequate normering. Nochtans komen de BAB (kinderen en volwassenen) en de SSI als meest valide en betrouwbare instrumenten naar voren.

Waarden en voorkeuren

a. Personen die stotteren

Voordelen van de SSI 3/4:

- is voor de PDS weinig belastend met een minimum aan tijdsinvestering;
- meet zowel binnen als buitende praktijksetting.

Nadelen van de SSI 3/4:

- De SSI 3/4 betreft een Engelstalige test, er is geen Nederlandse vertaling voorhanden

Nadelen van de BAB (volwassenen en kinderen):

- is tijdsintensiever;
- bevat Vlaamse uitdrukkingen;
- vraagt een goede beheersing van de Nederlandse taal.

b. Logopedist – stottertherapeuten

Voordelen van de SSI 3/4:

- wordt internationaal toegepast;
- meet zowel binnen als buitende praktijksetting.

Nadelen van de SSI 3/4:

- De SSI 3/4 betreft een Engelstalige test, er is geen Nederlandse vertaling voorhanden

Voordelen van de BAB:

- best onderzocht en scoort goed op diverse vormen van validiteit en betrouwbaarheid;
- sluit goed aan op het ICF-kader.

Nadelen van de BAB (volwassenen en kinderen):

- is tijdsintensiever;
- bevat Vlaamse uitdrukkingen;
- vraagt een goede beheersing van de Nederlandse taal.

De OASES biedt mogelijkheden voor de toekomst maar is nog niet verkrijgbaar in het Nederlands.

c. Kosten

Nadelig is de hoge aanschafprijs van de Behavior Assessment Battery (BAB) voor kinderen en volwassenen.

Aanbevelingen

Uitgangspunt voor onderstaande aanbevelingen is dat de logopedist werkt conform het logopedisch methodisch handelen. Er wordt vanuit gegaan dat de klachten en de hulpvraag zijn verkend en dat een anamnestic interview heeft plaatsgevonden met de PDS en/of ouders/verzorgers.

- | | |
|-----|--|
| 9. | De logopedist of logopedist-stottertherapeut dient de ernst van het stotteren te bepalen met een daarvoor geschikt instrument. De SSI zowel binnen als buiten praktijk (setting stotterernst meten) heeft de voorkeur boven de TVS-NL/L omdat de SSI internationaal gangbaar is, valide is en betrouwbaar lijkt. |
| 10. | De logopedist of logopedist-stottertherapeut dient stotterproblematiek op basis van de ICF te inventariseren. Daarbij dient aandacht te zijn voor functies, externe factoren, contextuele factoren, persoonlijke factoren, participatie en activiteiten. Als diagnostisch instrument wordt voor <i>kinderen vanaf 6 jaar, adolescenten en volwassenen</i> de Behavior Assessment Battery aanbevolen (<i>in de rationale zullen we erop wijzen dat er met name vanwege de Vlaamstaligheid wel beperkingen aan kleven</i>). Voor <i>kinderen jonger dan 6 jaar</i> wordt geen specifieke aanbeveling gegeven vanwege het ontbreken van voor deze leeftijdsgroep specifieke diagnostische instrumenten. Er wordt in dit verband verwezen naar de GLS (zie bijlage 1). |

Rationale voor de aanbevelingen

- Aan de validiteit, betrouwbaarheid, beschikbaarheid en aansluiten bij internationale ontwikkelingen is een relatief groot gewicht toegekend, en minder aan factoren als kosten, tijdsbeslag, en taal van de BAB en de Engelstaligheid van de SSI.
- Over de validiteit en betrouwbaarheid van het Detectie Instrument Stotteren (DIS) en de Screeningslijst Stotteren (SLS) is onvoldoende informatie beschikbaar. De SLS is het meest gehanteerde screeningsinstrument voor stotteren in Nederland en is gratis beschikbaar via diverse websites.

Onderzoeksaanbevelingen

De test-hertest betrouwbaarheid en de normering van de verschillende leeftijdsspecifieke versies van de Nederlandstalige OASES verdienen nader onderzoek.

De test-hertest betrouwbaarheid van de meeste onderdelen van de Nederlandstalige, Vlaamse Behavior Assessment Battery verdienen nader onderzoek.

Literatuur

1. Biddle AK, Watson LR, Hooper CR, et al. Criteria for Determining Disability in Speech-Language Disorders. Evidence Reports/Technology Assessments, No. 52'. Rockville (MD): Agency for Healthcare Research and Quality (US); 2002 Jan.
2. Riley GD 3rd ed. Austin, Tex: Pro-Ed; 1994. Stuttering Severity Instrument for Children and Adults.
3. G. Riley en J. Riley. Physician's screening procedure for children who may stutter. J. Fluency Disord. 14 (1989), 57-66.
4. Rutjes AW, Reitsma JB, Coomarasamy A, Khan KS, Bossuyt PM. Evaluation of diagnostic tests when there is no gold standard. A review of methods. Health Technol Assess. 2007 Dec;11(50):iii, ix-51.

Hoofdstuk 5: Wat zijn de effecten van stottertherapieën bij kinderen met stotteren tot zes jaar?

5.1 Inleiding

In dit document wordt de werkzaamheid van het Verwachtingen en Mogelijkheden Model /Demands and Capacities Model (DCM) ' en het 'Lidcombe Programma (LP)' beschreven. In Nederland zijn DCM en LP de meest gehanteerde interventies voor de behandeling van stotteren bij kinderen tot 6 jaar. Uitgangspunt is dat de werkzaamheid van een stottertherapie in interventiestudies met een controlegroep, bij voorkeur in een 'randomised controlled trial (RCT), is geëvalueerd. Zowel studies waarbij een stottertherapie met 'niets doen' wordt vergeleken als studies waarbij verschillende stottertherapieën worden vergeleken komen aan bod.

Dit document bevat de conclusie en samenvatting van de master thesis *Evidence-based richtlijn stotteren bij kinderen en volwassenen. Kwaliteit van bewijs voor het effect van behandeling van jonge stotterende kinderen* (Pertijs 2013). Het gaat om een haalbaarheidsstudie waarin beide behandelingen na 3 maanden werden vergeleken. Om een zo compleet mogelijk beeld te schetsen van de meest gebruikte therapieën en benaderingen in Nederland worden aanvullend op de conclusie en aanbeveling van de thesis de werkzaamheid van Speech Motor Training (Riley & Riley 1999) en van Sociaal-cognitieve gedragstherapie (Boey 2003) besproken.

Conceptaanbeveling voor de behandeling van jonge stotterende kinderen tot 6 jaar wordt in de laatste paragraaf van dit document besproken.

5.2 Methode

Voor de beantwoording van de onderzoeksvraag *wat de gewenste en ongewenste effecten van het 'Verwachtingen en Mogelijkheden Model/Demands and Capacities Model (DCM)' in vergelijking met het 'Lidcombe Programma (LP)' op gebied van stotterernst, vermijden van spreken en situaties, natuurlijkheid van het spreken en kwaliteit van leven bij kinderen met stotteren tot zes jaar zijn*, werden drie systematische reviews geselecteerd en beoordeeld. Aanvullend werd één meta-analyse, die niet was gepubliceerd in een peer-reviewed tijdschrift, besproken.

5.3 Onderbouwing

In alle drie de systematische reviews die werden geïncludeerd voor de beantwoording van de onderzoeksvraag werd één en dezelfde studie (Franken et al., 2005) besproken waarin het effect van het Verwachtingen en Mogelijkheden Model direct werd vergeleken met het Lidcombe Programma. In deze studie daalt het gemiddelde stotterpercentage van de Ver-

wachtingen en Mogelijkheden Model- groep met 60.7 % van 7.9% (S.D.= 7.1) naar 3.1% (S.D. = 2.1) en het gemiddeld stotterpercentage voor de LP groep met 48.6% van 7.2% (S.D. = 2.0) naar 3.7% (S.D. = 2.1). Het in de systematische review van Nye et al. (2012) berekende effect van deze vergelijkende studie bedraagt $g = -0.275$ (95% BI: $-1.066 - 0.517$). Uitgaande van een drempelwaarde van $(-) 0.5$ (de drempelwaarde voor klinische relevantie die door de GRADE workinggroup als gangbaar wordt beschouwd) wijst de puntschatting van -0.275 niet op een klinisch relevant verschil in reductie van het percentage gestotterde lettergrepen na behandeling met het Lidcombe Programma in vergelijking met behandeling gebaseerd op het Demands and Capacities Model. De ondergrens $(- 1.066)$ en bovengrens (0.517) van het 95% betrouwbaarheidsinterval overschrijden beide de drempelwaarde van $(-) 0.5$ voor klinische relevantie. Dit impliceert de mogelijkheid dat LP duidelijk effectiever is dan DCM, maar ook nog de mogelijkheid dat DCM duidelijk effectiever is dan LP.

Indirect vergelijken van behandeling gebaseerd op het Verwachtingen en Mogelijkheden Model met het Lidcombe Programma, door een vergelijking te maken van RCTs waarin het Verwachtingen en Mogelijkheden Model versus controle wordt vergeleken met het Lidcombe Programma versus controle, is niet mogelijk vanwege het ontbreken van RCTs waarin behandeling met het Verwachtingen en Mogelijkheden Model wordt vergeleken met een controlegroep.

In de systematische review met meta-analyse van Nye et al (2012) worden drie RCTs besproken waarin behandeling met het Lidcombe Programma wordt vergeleken met een controlegroep. Beoordeling van de systematische review en meta-analyse leidt tot de conclusie 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. Het gevonden effect kan als groot worden beschouwd ($g = 0.97$, 95% BI: $0.58 - 1.30$, $p < .001$). Het bewijs voor dit effect is van matige kwaliteit. Dit impliceert dat er enige onzekerheid is over de grootte van het effect. Het effect zou ook 0.58 kunnen zijn. Dat behandeling met LP effectiever is dan niet behandelen wordt ondersteund door de meta-analyse van Onslow et al. (2012). In deze meta-analyse was het gemiddeld percentage gestotterde lettergrepen in de Lidcombe Programma- groep na behandeling 2,9% lager dan het percentage van de controlegroep (95% BI = $1.9 - 3.8$, $p < 0.001$). De kans op een stotterpercentage dat kleiner is dan of gelijk aan 1^1 , na 3 tot 9 maanden follow-up, was voor de behandelgroep zeven keer hoger dan voor de niet behandelgroep (OR = 7.5, 95% BI = $2.7 - 20.9$, $p < 0.001$).

Ongewenste effecten van behandeling met het Lidcombe Programma zoals angst, agressie, vermijding en depressie en effect op de kwaliteit van de ouder-kind relatie werden onderzocht door Woods et al. (2002). In deze studie werden geen aanwijzingen gevonden voor mogelijk negatieve invloed op het gedrag van het kind of op de kwaliteit van de ouder-kind relatie tijdens en na behandeling met het Lidcombe Programma.

Natuurlijkheid van het spreken bij kinderen na behandeling met het Lidcombe Programma werd indirect onderzocht door Bonelli et al (2000) en Onslow et al (2002). Bonelli et al (2002) constateerde geen verandering op gebied van spreektempo van ouder en kind, beurtgedrag

of pragmatiek. Op een drietal taalaspecten ontwikkelde een aantal kinderen uit het onderzoek zich gedurende de therapieperiode minder snel dan verwacht, maar de ontwikkeling bleef binnen de grenzen van het normale. Onslow et al (2002) vonden geen bewijs van con-

¹ Stotterernst minder dan 1stotterpercentage wordt door een ongetrainde luisteraar waargenomen als normaal vloeiende spraak (Lincoln et al., 1997)

sistente of systematische verandering in articulatiesnelheid, klinkerduur, intervocaal interval of voice onset time bij 8 stotterende jongens (leeftijd 2;7 – 4;11 jaar) na behandeling met het Lidcombe Programma in vergelijking met de meting voor aanvang van de behandeling.

Het aantal studies naar het effect van behandeling gebaseerd op het Verwachtingen en Mogelijkheden Model in vergelijking met het effect van het Lidcombe Programma is beperkt tot één RCT. In deze studie werd geen klinisch relevant verschil aangetoond in effectiviteit tussen het Verwachtingen Mogelijkheden Model of het Lidcombe Programma. De zekerheid ten aanzien van de effectgrootte is gering. Het is zeer waarschijnlijk dat verder onderzoek een belangrijke impact zal hebben op de huidige schatting van het effect. RCTs naar het effect van het Verwachtingen en Mogelijkheden Model in vergelijking met een niet-behandelde controle groep zijn niet beschikbaar. Dit verhindert een indirecte vergelijking tussen het effect van het Verwachtingen Mogelijkheden Model en het Lidcombe Programma.

Het gevonden effect van behandeling van stotterende kinderen tot 6 jaar met het Lidcombe Programma op korte en middellange termijn (3 tot 9 maanden) is groot in vergelijking met niet behandelen. Het bewijs voor dit effect is van matige kwaliteit. Dit impliceert dat er enige onzekerheid is over de grootte van dit effect.

Uitspraken over de grootte van het effect en de mate van zekerheid hiervan zijn in de systematische review en in alle RCTs gebaseerd op de uitkomstmaat stotterfrequentie. Deze uitkomstmaat representeert de ernst van het stotteren maar is slechts één aspect dat de ernst van het stotteren bepaalt; duur van het stottermoment en bijkomend fysiek gedrag zijn andere aspecten die de ernst van het stotteren bepalen. Voor de overige uitkomstmaten zoals vermijden van spreken en situaties, natuurlijkheid van het spreken en kwaliteit van leven werd in zeer beperkte mate indirect bewijs gevonden. Dit bewijs is afkomstig van individuele studies die alle het effect van behandeling met het Lidcombe Programma onderzochten. De zekerheid ten aanzien van de effectgrootte van de gerapporteerde uitkomsten zijn gering.

Conclusies

Zekerheid effectgrootte:	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 2012).
Redelijk	

* Alle kinderen in de studies stotterden minimaal 6 maanden op het moment van inclusie om de invloed van spontaan herstel op het resultaat van het experimenteel onderzoek te beperken. Conclusie en aanbeveling over hoe te handelen bij stotteren van kinderen tot 6 jaar die minder dan 6 maanden stotteren valt buiten het kader van de onderzoeksvraag van dit rapport.

Zekerheid effect-grootte: Gering	Het aantal studies naar het effect van behandeling gebaseerd op het Verwachtingen en Mogelijkheden Model is beperkt en de zekerheid ten aanzien van de effectgrootte van het Verwachtingen en Mogelijkheden Model is gering. Er werd geen klinisch relevant 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).
Zekerheid effect-grootte: Zeer gering	Aanwijzingen voor mogelijke schadelijke effecten van het Lidcombe Programma zoals angst, agressie, vermijding en depressie en effect op de kwaliteit van de moeder en kind relatie, werden niet gevonden (Woods, 2002).

Speech Motor Training

Speech Motor Training (SMT) (Riley & Riley 1999) heeft tot doel de spraakmotorische planning te verbeteren en daarmee het stotteren te verminderen. Het programma moet niet worden gezien als een therapievorm op zich, maar eerder als een aanvulling op andere programma's (Franken & Van Borsel 2006). Effect van SMT werd onderzocht in één RCT waarbij vermindering van het percentage gestotterde lettergrepen na behandeling met SMT werd vergeleken met vermindering van het percentage gestotterde lettergrepen na behandeling met Extended Length of Utterance (ELU) (Riley & Ingham 2000). De leeftijd van de kinderen in de onderzoekspopulatie varieerde van 3;8 tot 8;4 jaar. SMT verminderde het mediane stotterpercentage met 36,5%. Dit verschil was significant (Wilcoxon matched-pair analyse ($z=-2.0$, $p=0.04$)). ELU reduceerde het stotterpercentage met 63,5%. Mann-Whitney U analyse indiceert dat het verschil in reductie van het stotterpercentage tussen SMT en ELU statistisch significant is ($z= -2.1$; $p =0.04$).

In twee systematische reviews die werden geïnccludeerd voor de beantwoording van de uitgangsvraag werd de studie van Riley & Ingham (2000) besproken (Herder 2006; Nye 2012).

Effectgrootte en 95% Betrouwbaarheidsinterval van studies met een RCT design waarin twee interventies met elkaar worden vergeleken, zonder controlegroep (Nye et al., 2012)

Studie	Interventies & uitkomstmaten		Statistiek				
			Hedges' <i>g</i>	Ondergrens BI	Bovengrens BI	TX 1 n	TX2 n
Riley & Ingham (2000)	SMT vs ELU	%SS	-1.079	-2.209	0.051	6	6

(Detail afkomstig uit tabel 3 Thesis pagina 18).

Het in de systematische review van Nye et al berekende effect van deze vergelijkende studie bedraagt $g = -1.079$ (95% BI: $-2.209 - 0.051$). Uitgaande van een drempelwaarde van $(-) 0.5$ (de drempelwaarde voor klinische relevantie die door de GRADE workinggroup als gangbaar wordt beschouwd) wijst de puntschatting van -1.079 op een klinisch relevant verschil in reductie van het percentage gestotterde lettergrepen na behandeling met het SMT in vergelijking met behandeling gebaseerd op ELU. De onnauwkeurigheid van het resultaat (de breedte van het 95% betrouwbaarheidsinterval spreidt zich echter uit tussen -2.209 en 0.051 ($g = -1.079$) en het hoge risico op bias (bijlage 1) maken dat we zeer onzeker zijn over het in deze studie geschatte effect. De zekerheid ten aanzien van de effectgrootte is zeer gering.

Conclusie

Zekerheid effect-grootte: Zeer gering	Het aantal studies naar het effect van SMT is zeer beperkt. Reductie van het stotterpercentage na behandeling met SMT was significant lager dan reductie na behandeling met ELU. De klinische relevantie van dit verschil in reductiepercentage is echter hoogst onzeker gezien de breedte van het 95% betrouwbaarheidsinterval en de hoge mate van risico op bias in de studie van Riley & Ingham (2000).
--	--

Sociaal-cognitieve gedragstherapie

De sociaal-cognitieve gedragstherapie bij stotterende kinderen (SCG) van Boey (2003) is gebaseerd op sociaal-cognitieve leertheorie, gedragstherapie, literatuur over cognitie en emotie en algemene literatuur over stotteren (Franken & Van Borsel 2006). De therapie wordt aangepast aan de individuele behoefte van de persoon die stottert en zijn of haar omgeving. Boey (2008) omschrijft als centrale doelstellingen van SCG:

- verminderen van stotteringsymptomen;
- de ontwikkeling van stotteren voorkomen en/of beperken;
- verminderen van de negatieve impact op sociaal vlak en kwaliteit van leven.

Specifieke doelstellingen voor verbaal motorisch gedrag, de emotionele component of de cognitieve component van het stotteren worden geformuleerd afhankelijk van het doelgedrag. Therapie bij kinderen tot 6 jaar wordt uitgevoerd in de vorm van individuele sessies gecombineerd met een verplicht begeleidingsprogramma voor ouders van 10 tot 12 sessies, één keer in de drie weken.

De literatuursearch leverde geen publicaties op over het effect van SCG in peer-reviewed tijdschriften. RCT's over SCG werden niet gevonden. Aangezien SCG in Nederland en met name in Vlaanderen veelvuldig wordt toegepast om stotteren bij kinderen te behandelen wordt in deze paragraaf de werkzaamheid van SCG besproken aan de hand van een interventiestudie met voor- en nameting, maar zonder controlegroep (geen behandeling of ande-

re behandeling) (Boey 2008).¹⁰ De zekerheid ten aanzien van de effectgrootte in deze studie is bij voorbaat gering aangezien er geen twee of meer homogene onderzoeksgroepen met elkaar worden vergeleken.

Het effect van sociaal-cognitieve gedragstherapie op lange termijn werd onderzocht en gepubliceerd in een proefschrift voor het behalen van de graad van Doctor in de Medische Wetenschappen (Boey 2008) en gepresenteerd op diverse symposia. Uit een databestand met 1978 patiënten van de auteur werden at random 122 personen die stotteren geselecteerd, waarvan 87 personen behandeling met sociaal-cognitieve gedragstherapie hadden ontvangen, 16 personen kregen de diagnose stotteren maar er werd therapie niet geadviseerd en 19 personen (drop-out groep) weigerden therapieën nadat de diagnose stotteren was gesteld. De klinische diagnose werd gesteld tussen 1991 en 2003 en follow-up vond 3 tot 14 jaar na de klinische diagnose plaats in 2005 -2006, met een gemiddelde follow-up duur van 10 jaar. Uitkomstmaten die werden vergeleken hebben betrekking op stotterernst, stottermomenten, vermijden en meebewegingen, uitlokkende factoren, cognitieve en emotionele verschijnselen, sociale reacties en persoonlijkheidskenmerken.

Vijfentwintig kinderen waren tijdens intake in de leeftijd tussen 1 en 6 jaar. Deze kinderen ontvingen gemiddeld 64 behandelsessies (SD 29.6) en maximaal 121 behandelingen. Tijdens het stellen van de klinische diagnose bedroeg het stotterpercentage in deze groep gemiddeld 18,4 % SLD (SD 8.7). Bij de follow-up werd gemiddeld 0.1% SLD gemeten (SD 0.3). Het verschil in afname van de stotterfrequentie is significant tussen de groep van 1 tot 6 jaar en adolescenten ($p < .001$) en tussen volwassenen en 1 tot 6 jarigen ($p < .007$), maar niet in vergelijking met kinderen tussen 7 en 12 jaar ($p < .071$). De initiële stotterernst en het geslacht (meisjes) bleken belangrijke prognostische variabelen van therapiesucces.

De zekerheid ten aanzien van de effectgrootte in de studie van Boey (2008) is gering vanwege het design van de studie. Uiteindelijke zekerheid ten aanzien van de effectgrootte na beoordeling met GRADE is zeer gering gezien het hoge risico op bias (zie bijlage 2).

Conclusie

Zekerheid effect-grootte: Zeer gering	Er is één interventiestudie met voor- en nameting maar zonder controlegroep naar het effect van Sociaal Cognitieve Gedragstherapie bij stotterende kinderen beschikbaar. In de onderzochte leeftijdsgroep 1 tot 6-jarige daalt het gemiddeld percentage Stuttering Like Dysfluencies tot 0.1% (SD 0.3). Er bestaat echter zeer grote onzekerheid over deze uitkomst aangezien het geen studie met een controlegroep betreft en gezien het hoge risico op bias (Boey 2008).
--	---

¹⁰ Onder controlegroep wordt verstaan een groep die qua sekse, leeftijd, initiële stotterernst en eventuele andere prognostische variabelen geheel vergelijkbaar is met de groep die de te evalueren interventie ondergaat.

5.4 Van bewijs naar aanbeveling

5.4.1 Zekerheid ten aanzien van effectgrootte

De zekerheid ten aanzien van de mate waarin het stotterpercentage na behandeling van stotterende kinderen tot 6 jaar wordt gereduceerd varieert voor de verschillende behandelmethoden. Er bestaat een redelijke zekerheid ten aanzien van de effectgrootte voor de behandeling met het Lidcombe Programma, en een geringe zekerheid voor behandeling gebaseerd op het Verwachtingen en Mogelijkheden Model, terwijl er ten aanzien van Speech Motor Training en Sociaal Cognitieve Gedragstherapie van een zeer geringe zekerheid sprake is. Oorzaak: Met uitzondering van het Lidcombe Programma is het aantal studies (RCTs) beperkt en zijn de studies qua omvang klein. In de studie van Franken et al. (2005) werd geen klinisch relevant verschil in reductie van het stotterpercentage na behandeling aangetoond tussen de Verwachtingen en Mogelijkheden Model- groep en de Lidcombe Programma-groep. Dit maakt dat op dit moment de voorkeur geven aan behandeling met het Lidcombe Programma in plaats van aan het Verwachtingen Mogelijkheden Model, op grond van het aangetoond effect, voorbarig is.

5.4.2 Balans van gewenste en ongewenste effecten

De meest gerapporteerde uitkomstmaat is stotterpercentage, overige uitkomstmaten worden nauwelijks of niet gerapporteerd. Het effect van behandeling van stotterende kinderen tot 6 jaar met het Lidcombe Programma op korte en middellange termijn (3 tot 9 maanden) is groot in vergelijking met niet behandelen. Over het effect op langere termijn van behandeling met LP bestaat grotere onzekerheid. Ongewenste effecten van behandeling met LP werden niet aangetoond. Het effect van behandeling met DCM laat een nagenoeg vergelijkbare effectgrootte zien als de effectgrootte van behandeling met LP. De effectgrootte van behandeling met SCG kan niet direct worden vergeleken met de effectgrootte van LP en DCM aangezien de effectgrootte van behandeling met SCG werd bepaald met Stuttering Like Dysfluencies (SLD's) in plaats van stotterpercentage. Ongewenste effecten van DCM, SCG en SMT zijn niet of nauwelijks onderzocht of gerapporteerd.

5.4.3 Waarden en voorkeuren

a. Personen die stotteren

Gezien de grootte van het effect van behandeling met LP van kinderen die een half jaar of langer na aanvang van het stotteren, in vergelijking met niet behandelen, is het belangrijk dat ouders van stotterende kinderen tot 6 jaar zijn geïnformeerd over het mogelijke voordeel van behandeling van het stotteren. Aangezien nader onderzoek mogelijk aantoon

de effectgrootte van behandeling met DCM vergelijkbaar is kan de voorkeur van de ouders en het stotterende kind een belangrijke rol spelen in het bepalen welke van deze twee behandelmethoden de meest passende is.

b. Logopedist – stottertherapeuten

Gezien de grootte van het effect van behandeling met LP en de mate van zekerheid hiervan is het raadzaam voor de praktiserend logopedist-stottertherapeut zich in deze behandelmethode te bekwamen en de competentie om te behandelen met LP op niveau te houden. Aangezien er geen klinisch relevant verschil werd aangetoond in het effect van behandeling met DCM of LP kan het een voordeel zijn als de praktiserend logopedist-stottertherapeut beide behandelmethoden beheerst zodat in overleg met de ouders van het jonge stotterende kind besloten kan worden welke behandelmethode de voorkeur verdient. Gezamenlijke besluitvorming is daarbij geboden.

5.4.4 Kosten van een therapie

Over de kosten van therapie is geen informatie beschikbaar, wel zijn er gegevens beschikbaar over het gemiddeld aantal behandelsessies voor LP en SCG. Het gemiddeld aantal behandelsessie voor het bereiken van fase II van het Lidcombe Programma (dat wil zeggen: een sterk verminderde stotterernst) bedraagt 10 sessies bij licht stotteren, 12 sessies bij matig stotteren en 14 sessies bij ernstig stotteren (Koushik et al 2011). De mediaan van het aantal behandelsessies gedurende fase 1 is 15,4, waarna nog 10 behandelsessies gedurende de stabilisatiefase worden gegeven (Reilly et al 2013). Voor behandeling met SCG worden gemiddeld 64 behandelsessies en maximaal 121 sessies gerapporteerd. Gemiddeld aantal behandelingen met DCM en SMT werden niet onderzocht of gerapporteerd.

Aanbeveling

- | |
|--|
| 11. Informeer ouders van stotterende kinderen tot 6 jaar over de voordelen van behandelen van het stotteren in vergelijking met afwachten (vermindering van percentage gestotterde lettergrepen en stotterernst). Bepaal in overleg met de ouders van het jonge stotterende kind welke behandelmethode de voorkeur verdient, het 'Lidcombe Programma' of behandeling gebaseerd op het 'Verwachtingen en Mogelijkheden Model'. Bespreek hiervoor met de ouders de verschillen tussen de beide behandelingen |
|--|

Rationale voor de aanbeveling

- Er is een redelijke mate van zekerheid dat behandelen van stotterende kinderen tot 6 jaar met het Lidcombe Programma effectiever is in het verminderen van het percentage gestotterde lettergrepen in vergelijking met niet behandelen.
- Schadelijke effecten van behandeling met het Lidcombe Programma werden niet aangetoond.
- Er is een geringe mate van zekerheid dat het effect van behandeling met het Lidcombe

Programma niet effectiever is dan behandeling gebaseerd op het Verwachtingen en Mogelijkheden Model en vice versa.

- Het Lidcombe programma en het Verwachtingen Mogelijkheden Model verdienen de voorkeur boven behandelen met Speech Motor Training of Sociaal Cognitieve Gedragstherapie gezien de mate van zekerheid over de grootte van het behandel-effect. Daarbij komt voor Speech Motor Training dat dit geen behandelprogramma op zich is maar een component van een programma. SMT is mogelijk inpasbaar in behandelingen gebaseerd op het Verwachtingen Mogelijkheden Model indien dit op grond van de diagnostiek blijkt te passen bij het profiel van het jonge stotterende kind.
- Behandeling met het Lidcombe Programma heeft tevens de voorkeur boven behandeling met Sociaal Cognitieve Gedragstherapie bij de behandeling van jonge stotterende kinderen tot 6 jaar gezien het verschil in het gemiddeld aantal behandelsessie nodig om een vergelijkbare reductie van het stotterpercentage en de stotterernst te bereiken.

Literatuur

1. Boey, R. (2003). *Stotteren en stottertherapie bij heel jonge kinderen. Sociaal-cognitieve gedragstherapie*. Leuven / Leusden. Acco.
2. Boey, R. (2008). *Stuttering. An epidemiological and phenomenological study. Effects of a social-cognitive behaviour therapy*. Antwerpen. Universiteit Antwerpen
3. Boey, R. (2013). Effecten van een sociaal cognitieve gedragstherapie voor stotteren: Invloed van leeftijd, geslacht, initiële stotterernst en temperament. *Logopedie VVL*, mei-juni 2013, 33-48.
4. Franken, M.C.J., Kielstra- Van der Schalk, C.J. & Boelens, H. (2005). Experimental treatment of early stuttering: A preliminary study. *Journal of Fluency Disorders*, 30, 189-199.
5. Franken, M.C. & Van Borsel, J. (2006). De behandeling van jonge stotterende kinderen. *Handboek Stem-Spraak- Taalpathologie*. Houten. Bohn Stafleu, van Loghum.
6. Lincoln, M., Onslow, M. & Reed, V. (1997). Social validity of the treatment outcomes of an early intervention program for stuttering. *American Journal of Speech- Language Pathology*, 6, 77-84.
7. Pertijs, M. (2013). Evidence-based richtlijn stotteren bij kinderen en volwassenen. Kwaliteit van bewijs voor het effect van behandeling van jonge stotterende kinderen. Master's thesis Universiteit Utrecht, Utrecht.
8. Riley, G. & Ingham, J.C. (2000). Acoustic duration change associated with two types of treatment for children who stutter. *Journal of Speech, Language and hearing Research*, 43, 965-978.

Hoofdstuk 6: Effectiviteit van stottertherapieën bij kinderen in de leeftijd van 6 tot 13 jaar

6.1 Inleiding

Kinderen met stotteren in de leeftijd tussen 6 en 13 jaar stotteren doorgaans al meerdere jaren. De in de loop der jaren opgedane ervaringen kunnen leiden tot angst voor het stotteren en daaraan gekoppelde vermijdingsreacties, negatieve emoties en gedachten die invloed kunnen hebben op de interactie met anderen. De meest gehanteerde stottertherapieën voor kinderen in de leeftijd tussen 6 en 13 jaar in Nederland richten zich op de verschillende aspecten van het stotteren, de met het stotteren samenhangende emoties en cognities en de invloed van het stotteren op de participatie in het dagelijks leven.

In dit document wordt de werkzaamheid van stottertherapieën voor kinderen in de leeftijd tussen 6 en 13 jaar beschreven. Uitgangspunt is dat de werkzaamheid van een stottertherapie in interventiestudies met een controlegroep, bij voorkeur in een 'randomised controlled trial' (RCT), is geëvalueerd. Zowel studies waarbij een stottertherapie met 'niets doen' wordt vergeleken als studies waarbij verschillende stottertherapieën worden vergeleken komen aan bod.

Om een actueel beeld te schetsen van de meest gebruikte therapieën en benaderingen in Nederland wordt aanvullend op de conclusie werkzaamheid van Sociaal-cognitieve gedragstherapie (Boey 2003) besproken.

Conceptaanbeveling voor de behandeling van stotterende kinderen tussen 6 en 13 jaar wordt in de laatste paragraaf van dit document besproken.

6.2 Methode

Voor de beantwoording van de vraag wat de gewenste en ongewenste effecten van stottertherapieën bij kinderen in de leeftijd van 6 tot 13 jaar zijn in vergelijking met niets doen of in vergelijking met een andere therapie op gebied van stotterernst, vermijden van spreken en situaties, natuurlijkheid van het spreken en kwaliteit van leven, werden drie systematische reviews (Bothe et al 2006; Herder et al 2006; Nye et al 2012) geselecteerd en beoordeeld. De methodologische kwaliteit van deze drie systematische reviews staat beschreven in het hoofdstuk over de gewenste en ongewenste effecten van stottertherapie bij adolescenten en volwassenen en in het hoofdstuk over interventie bij jonge stotterende kinderen.

6.3 Onderbouwing

6.3.1 Overzicht van systematische reviews van studies naar effectiviteit van stottertherapieën bij kinderen tussen 6 en 13 jaar

In de drie systematische reviews die werden geïnccludeerd voor de beantwoording van de onderzoeksvraag naar de gewenste en ongewenste effecten van stottertherapieën bij kinderen tussen 6 en 13 jaar worden drie verschillende RCTs besproken en twee studies met een quasi experimenteel design (QED)(tabel 1).

Tabel 1. Samenvatting van de RCT's en QED uit de Systematische Reviews van Bothe et al. (2006), Herder et al. (2006) en Nye et al. (2012)

	Design	Interventie	N	Leeftijd	Follow-up duur	Uitkomstmaat
Ladouceur & Martineau (1982)	RCT	Ademregulatie, ademregulatie thuis, controle	21 (7/7/7)	5 – 16 jr.	1 maand	stotterpercentage spreektempo
Ryan & Ryan (1983)	QED	Modificatie, DAF ^a , Time Out, GILCU ^b	16 (4/4/4/4)	7 – 18 jr.	6 maanden	SW/M ^c WS/M ^d
Ryan & Ryan (1995)	RCT	DAF, GILCU	20	7 – 17 jr.	Niet te definiëren	SW/M WS/M
Craig et al. (1996)	QED	EMG ^e , Intensive Smooth Speech, Smooth Speech Home, Controle	97	9 – 14 jr.	12 maanden	stotterpercentage spreektempo in lettergrepen per minuut
Riley & Ingham (2000)	RCT	SMT ^f , ELU ^g	12	3;8 – 8;4 jr.	Niet te definiëren	stotterpercentage

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

Nye et al (2012)

Nye et al publiceerden in 2012 een systematische review en twee meta-analyses waarin de effectiviteit van gedragsinterventies op het vloeiend spreken van stotterende kinderen, in de leeftijd tussen 2 en 18 jaar, werd geëvalueerd. In deze systematische review worden twee randomised controlled trials en één quasi experimenteel onderzoek naar het effect van stottertherapieën bij kinderen tussen 6 en 13 jaar geëvalueerd. Beide RCTs vergelijken het effect van twee verschillende interventies met elkaar. Het betreft een studie naar het effect van Delayed Auditory Feedback in vergelijking met het effect van Gradual Increase in Length and Complexity of Utterance (Ryan & Ryan 1995) en een studie waarbij vermindering van het percentage gestotterde lettergrepen na behandeling met Speech Motor Training (SMT)

wordt vergeleken met vermindering van het percentage gestotterde lettergrepen na behandeling met Extended Length of Utterance (ELU) (Riley & Ingham 2000).

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 controle groep op gebied van percentage gestotterde lettergrepen en het aantal gesproken woorden per minuut bij kinderen die stotteren tussen 9 en 14 jaar oud. Deelnemers aan deze studie werden niet at random toegewezen aan één van de interventies.

Het in de systematische review van Nye et al (2012) berekende effect van de studie van Craig et al (1996) bedraagt $g = 1.75$ (95% BI: 1.05 – 2.45)(tabel 2). Uitgaande van een drempelwaarde van (-) 0.5 (de drempelwaarde voor klinische relevantie die door de GRADE working-group als gangbaar wordt beschouwd) wijst de puntschatting van 1.75 op een klinisch relevant verschil in reductie van het percentage gestotterde lettergrepen na behandeling met Intensive Smooth Speech en EMG. Het gevonden effect zowel voor EMG, $g = 1.62$, als voor ISS, $g = 2.58$, kan als groot worden beschouwd. Waarden hoger dan 0.7 worden als een groot effect beschouwd (Higgins & Green 2008). Direct na interventie was het percentage gestotterde lettergrepen gemiddeld minder dan 1%. Om onafhankelijkheid van de data te behouden zijn statistische analyses niet mogelijk vanwege de vergelijking van één enkele controle groep met drie verschillende interventiegroepen (Nye et al 2012).

Het percentage gestotterde lettergrepen en het aantal gesproken lettergrepen per minuut werden nogmaals beoordeeld 12 weken na interventie en 52 weken na interventie. Daarbij werd geen statistische significant verschil ($p > .05$) aangetoond voor één van de interventies. Het gemiddeld percentage gestotterde lettergrepen voor de drie groepen bedroeg minder dan 3%. De Smooth Speech Home groep en de EMG groep scoorden beter dan de Intensive Smooth Speech groep indien een afkappunt van 2% gestotterde lettergrepen werd gehanteerd.

Natuurlijkheid van het spreken werd gemeten pre interventie, post interventie en tijdens follow-up 12 en 52 weken na interventie, door de onderzoeker, de ouders en het kind op een 5 punt Likert-schaal. Natuurlijkheid van het spreken werd op de drie meetmomenten na interventie door alle beoordelaars als natuurlijker ervaren dan voor interventie ($p < .001$). In vergelijking met de controle groep nam de natuurlijkheid van het spreken bij de drie behandelgroepen in de loop der tijd toe volgens de ouders en onderzoekers. Dit verschil tussen de behandelgroepen en de controle groep werd niet aangetoond in de beoordeling van de natuurlijkheid van het spreken door de kinderen zelf.

Angst werd gemeten met de State-Trait Anxiety Inventory for Children (Spielberger et al 1972). Een significant effect voor tijd (Wilks' Lambda = .92, $df = 4.90$, $p < .01$) werd aangetoond voor de vier verschillende groepen direct na interventie en 12 weken na interventie. Er werd geen significant verschil tussen de vier groepen, inclusief de controle groep, aangetoond.

De mate van zekerheid ten aanzien van de effectgrootte is gering vanwege de quasi experimentele opzet van de studie waarbij de deelnemers niet at random zijn toegewezen aan een bepaalde interventie of controle groep.

Tabel 2. Effectgrootte, 95% Betrouwbaarheidsinterval en p-waarde voor het percentage gestotterde lettergrepen bij kinderen tussen 6 en 13 jaar van studies met een interventie versus controle-groep RCT design en nameting meting direct na interventie (Nye et al 2012)

Studie	Statistische gegevens per studie					
	Interventie n	Controle n	Hedges' g	Ondergrens BI	Bovengrens BI	P waarde
Craig et al. (1996)	26	20	1.75	1.05	2.45	.001

¹ Beoordeling met GRADE.

Risk of bias: met -1 afgewaardeerd (zie bijlage).

Indirectness: met -1 afgewaardeerd vanwege vergelijking één controlegroep met drie interventiegroepen?; (In totaal van de publicaties afwaarden aangezien alle therapieën verschillen.)

Imprecision: geen aanleiding om af te waarden (ondergrens van betrouwbaarheidsinterval is >0.5);

Inconsistency: niet van toepassing;

Publicatie bias: geen aanleiding om af te waarden;

Report bias: met -1 afgewaardeerd aangezien niet alle psychologische maten worden gerapporteerd.

In de studie van Ryan & Ryan (1995) wordt het effect van Delayed Auditory Feedback om langzame verlengde spraak te produceren en zo stotteren te verminderen vergeleken met het effect van Gradual Increase in Length and Complexity of Utterance (GILCU). GILCU is een Fluency Shaping programma gebaseerd op operante conditionering waarbij in gestructureerde stappen vloeiend spreken wordt bevorderd. Resultaten voor de uitkomstmaten percentage gestotterde lettergrepen, gestotterde woorden per minuut en het aantal woorden per minuut voor 20 kinderen in de leeftijd tussen 7 en 17 jaar worden gerapporteerd, post interventie en 14 maanden na interventie. In 18,3 uur reduceerden de 11 deelnemers die de programma's voltooiden het aantal gestotterde woorden per minuut van 7.9 naar 0,8. Tijdens een meting na veertien maanden follow-up bleek de vloeiende spraak behouden.

Het in de systematische review van Nye et al (2012) berekende effect van de vergelijkende studie van Ryan & Ryan (1995) bedraagt $g = 0.295$ (95% BI: -0.797 – 1.387)(tabel 3). Uitgaande van een drempelwaarde van (-) 0.5 (de drempelwaarde voor klinische relevantie die door de GRADE workinggroup als gangbaar wordt beschouwd) wijst de puntschatting van 0.295 niet op een klinisch relevant verschil in reductie van het percentage gestotterde lettergrepen na behandeling met DAF in vergelijking met behandeling met GILCU. De ondergrens (- 0.797) en bovengrens (1.387) van het 95% betrouwbaarheidsinterval overschrijden beide de drempelwaarde van (-) 0.5 voor klinische relevantie. Dit impliceert de mogelijkheid dat DAF duidelijk effectiever is dan GILCU, maar ook nog de mogelijkheid dat GILCU duidelijk effectiever is dan DAF.

De onnauwkeurigheid van het resultaat (de breedte van het 95% betrouwbaarheidsinterval spreidt zich uit tussen -0.797 en 1.387 ($g = 0.295$)) en het hoge risico op bias (bijlage A) ma-

ken dat we onzeker zijn of het in deze studie geschatte effect het werkelijke effect van behandeling met DAF of met GILCU benadert. Kwaliteit van het gevonden bewijs wordt als zeer laag beoordeeld.

Tabel 3. Effectgrootte en 95% Betrouwbaarheidsinterval van studies met een RCT design waarin twee interventies met elkaar worden vergeleken, zonder controlegroep (Nye et al 2012)

Studie	Interventies & uitkomstmaten		Statistiek				
			Hedges' G	Ondergrens BI	Bovengrens BI	TX1 n	TX2 n
Ryan & Ryan (1995)	DAF ^A vs GILCU ^B	SWM	0.295	-0.797	1.387	5	6
Riley & Ingham (2000)	SMT ^C vs ELU ^D	%SS	-1.079	-2.209	0.051	6	6

^ADelayed Auditory Feedback; ^BGradual Increase in Length and Complexity of Utterance; ^CSpeech Motor Training; ^DExtended Length of Utterance;

¹ Beoordeling met GRADE. Ryan & Ryan (1995)

Risk of bias: met -1 afgewaardeerd (zie bijlage A).

Indirectness: met -1 afgewaardeerd aangezien de leeftijdsgrenzen van de onderzoekspopulatie niet overeenkomen met de populatie van de uitgangsvraag en geen subgroep analyse voor 6-13 jarigen is uitgevoerd.

Imprecision: met -1 afgewaardeerd (ondergrens van betrouwbaarheidsinterval is <0.5);

Inconsistency: niet van toepassing;

Report bias: met -1 afgewaardeerd aangezien relevante informatie ontbreekt;

Publicatie bias: geen aanleiding om af te waarderen.

Riley en Ingham (2000) vergeleken het effect van Speech Motor Training (SMT) met het effect van Extended Length of Utterance (ELU) op de uitkomstmaat percentage gestotterde lettergrepen bij 12 kinderen tussen 3;8 en 8;4 jaar. SMT heeft tot doel de spraakmotorische planning te verbeteren en daarmee het stotteren te verminderen. Het doel van ELU is stottervrije spraak te bevorderen door respons-contingente stimulatie aan te bieden in betekenisvolle linguïstische taken. SMT verminderde het mediane stotterpercentage met 36,5%. Dit verschil was significant (Wilcoxon matched-pair analyse ($z=-2.0$, $p=0.04$)). ELU reduceerde het stotterpercentage met 63,5%. Mann-Whitney U analyse indiceert dat het verschil in reductie van het stotterpercentage tussen SMT en ELU statistisch significant is ($z= -2.1$; $p=0.04$).

Het in de systematische review van Nye et al (2012) berekende effect van de studie naar SMT in vergelijking met Extended Length of Utterance (ELU) (Riley & Ingham 2000) bedraagt $g = -1.079$ (95% BI: $-2.209 - 0.051$) (tabel 3). Uitgaande van een drempelwaarde van (-) 0.5 (de drempelwaarde voor klinische relevantie die door de GRADE workinggroup als gangbaar wordt beschouwd) wijst de puntschatting van -1.079 op een klinisch relevant verschil in reductie van het percentage gestotterde lettergrepen na behandeling met het SMT in vergelijking met behandeling gebaseerd op ELU. De onnauwkeurigheid van het resultaat (de breedte van het 95% betrouwbaarheidsinterval spreidt zich echter uit tussen -2.209 en 0.051 ($g = -1.079$)) en het hoge risico op bias (bijlage A) maken dat we zeer onzeker zijn over het in deze studie geschatte effect voor kinderen die stotteren tussen 6 en 12 jaar, mede doordat de

onderzoekspopulatie de doelpopulatie van de uitgangsvraag niet volledig overeenkomen en geen subgroep analyse voor deze leeftijdscategorie is uitgevoerd . Kwaliteit van het gevonden bewijs wordt als zeer laag beoordeeld.

Bothe et al (2006)

In de systematische review van Bothe et al (2006) worden vier studies besproken waarbij het effect van stottertherapie bij 6 tot 13 jarige kinderen wordt vergeleken in een RCT of QED. Het betreft twee studies die eveneens in de systematische review van Nye et al (2012) werden besproken; Craig et al (1996) en Ryan & Ryan (1995).

In de RCT van Ladouceur & Martineau (1982) wordt het effect van ademregulatie therapie, met en zonder ondersteuning van de ouders van kinderen tussen 5 en 15 jaar, vergeleken met een niet behandelde controle groep. Het in Bothe et al. (2006) gehanteerde criterium minder dan 5% gestotterde lettergrepen direct na drie weken behandeling werd bereikt. Een statistisch significant verschil in de reductie van gestotterde lettergrepen tussen de interventie groep en de niet behandelde controle groep na behandeling in vergelijking met de situatie voor de behandeling werd niet aangetoond ($F_{92,17} = 1.23, P > 0.05$).

Ryan en Ryan (1983) vergeleken het effect op het aantal gestotterde woorden per minuut en het aantal gesproken woorden per minuut van stottermodificatie behandeling, delayed auditory feedback, pauzeren en GILCU bij 16 kinderen die stotteren in de leeftijd van 7 tot 18 jaar. De auteurs concluderen dat het vloeiend spreken van de 16 kinderen door alle vier de interventies in belangrijke mate is toegenomen. Het experimentele karakter van de studie, waarbij een niet behandelde controle groep ontbreekt, het gegeven dat het aantal deelnemers per interventie zeer beperkt is en het risico op bias zeer hoog, maakt dat we weinig vertrouwen hebben in de kwaliteit van het bewijs van deze studie. Een statistische analyse wordt in de publicatie niet beschreven. Deze studie is niet verder meegenomen in de uitwerking van het bewijs van werkzaamheid voor de uitgangsvraag naar de effectiviteit van stottertherapie bij kinderen tussen 6 en 13 jaar.

Herder et al (2006)

Herder et al bespreken in hun systematische reviews, uit 2006, twee RCTs waarin de effectiviteit van gedragsinterventies op het vloeiend spreken van stotterende kinderen, in de leeftijd tussen 2 en 18 jaar, werd geëvalueerd. Het betreft de studies van Ryan & Ryan (1995) en Riley & Ingham (2000). Beide studies werden in dit document besproken in de systematische review van Nye et al (2012).

6.3.2 Individuele (internationale) studies naar effectiviteit van stottertherapieën bij kinderen tussen 6 en 13 jaar

In deze paragraaf wordt de studie van Hancock et al (1998) naar de long-term follow-up van de studie van Craig et al (1996) besproken.

Hancock et al (1998)

Het langetermijneffect van Electromyografische feedback, Intensive Smooth Speech en Smooth Speech Home op de vermindering van het percentage gestotterde lettergrepen, gesproken lettergrepen per minuut, natuurlijkheid van het spreken, mate van terugval volgens de ouders, communicatieve attitude en angst werden onderzocht door Hancock et al. (1998). De onderzoekspopulatie bestond uit 62 kinderen die deel hadden genomen aan het onderzoek van Craig et al (1996). De 20 kinderen uit de onbehandelde controle groep werden niet meegenomen in dit onderzoek aangezien het niet ethisch is om kinderen die stotteren gedurende 2 tot 6 jaar behandeling te ontszeggen. De gemiddelde duur van de periode waarin de kinderen werden gevolgd na randomisatie was 4,2 jaar. De resultaten duiden op een mogelijk positief lange termijn effect van de behandeling met Electromyografische feedback, Intensive Smooth Speech en Smooth Speech Home, het percentage gestotterde lettergrepen lag 2 tot 6 jaar na randomisatie 75% tot 80% lager dan ten tijde van het assessment voor interventie. Verschil in effectiviteit tussen de behandelgroepen werd niet aangetoond. De Smooth Speech Home groep en de EMG groep scoorden, ook op de langere termijn beter dan de Intensive Smooth Speech groep indien een afkappunt van 2% gestotterde lettergrepen werd gehanteerd.

Er werd geen verschil in de beoordeling van de natuurlijkheid van het spreken op de lange termijn in vergelijking met 12 maanden follow-up aangetoond. Verschil tussen de behandelgroepen werd eveneens niet aangetoond op gebied van de natuurlijkheid van het spreken.

De communicatieve attitude gemeten met de CAT-R geeft een gemiddelde score voor alle deelnemers van 12.4 (SD = 8.1). De gemiddelde scores voor de verschillende behandelgroepen waren nagenoeg gelijk. De gemiddelde score van 12.4 is hoger dan het gemiddelde voor kinderen die niet stotteren (M = 8.7), maar lager dan het gemiddelde van kinderen die stotteren (M= 16.7) (De Nil & Brutten, 1991).

Op gebied van trait en state anxiety werden geen verschillen aangetoond tussen de verschillende groepen en geen verschillen in vergelijking met de meting 12 maanden na randomisatie.

Van de ouders gaf 75% aan dat hun kind vloeiend sprak ten tijde van het lange termijn follow-up onderzoek, 25% gaf aan dat het kind minder vloeiend sprak in deze periode. Dertien procent van de ouders had de indruk dat de vloeiende spraak van hun kind was teruggeval- len naar het niveau voor interventie, 53% had de indruk dat er sprake was van terugval maar niet naar het niveau voor therapie en 29% gaf aan dat het door de therapie bereikte resultaat was behouden.

De grootte van de aangetoonde effecten is uiterst onzeker aangezien er geen bruikbare follow-up data van de controlegroep beschikbaar zijn.

6.3.3 Sociaal-cognitieve gedragstherapie

De sociaal-cognitieve gedragstherapie bij stotterende kinderen (SCG) van Boey (2003) is gebaseerd op sociaal-cognitieve leertheorie, gedragstherapie, literatuur over cognitie en emotie en algemene literatuur over stotteren (Franken & Van Borsel 2006). De therapie wordt aangepast aan de individuele behoefte van de persoon die stottert en zijn of haar omgeving. Boey (2008) omschrijft als centrale doelstellingen van SCG:

- verminderen van stottersymptomen;
- de ontwikkeling van stotteren voorkomen en/of beperken;
- verminderen van de negatieve impact op sociaal vlak en op gebied van kwaliteit van leven.

Specifieke doelstellingen voor verbaal motorisch gedrag, de emotionele component of de cognitieve component van het stotteren worden geformuleerd afhankelijk van het doelgedrag.

Therapie bij kinderen tussen 7 en 12 jaar wordt uitgevoerd in de vorm van individuele sessies bij voorkeur gecombineerd met een begeleidingsprogramma voor ouders van 10 tot 12 sessies, één keer in de drie weken.

De literatuursearch leverde geen publicaties op over het effect van SCG in peer-reviewed tijdschriften. RCT's over SCG werden niet gevonden. Aangezien SCG in Nederland en met name in Vlaanderen veelvuldig wordt toegepast om stotteren bij kinderen te behandelen wordt in deze paragraaf de werkzaamheid van SCG besproken aan de hand van een interventiestudie met voor- en nameting, maar zonder controlegroep (geen behandeling of andere behandeling) (Boey 2008).¹¹ De mate van zekerheid ten aanzien van de effectgrootte in deze studie is bij voorbaat gering aangezien er geen twee of meer homogene onderzoeksgroepen met elkaar worden vergeleken.

Het effect van sociaal-cognitieve gedragstherapie op lange termijn werd onderzocht en gepubliceerd in een proefschrift voor het behalen van de graad van Doctor in de Medische Wetenschappen (Boey 2008) en gepresenteerd op diverse symposia. Uit een databestand met 1978 patiënten van de auteur werden at random 122 personen die stotteren geselecteerd, waarvan 87 personen behandeling met sociaal-cognitieve gedragstherapie hadden ontvangen, 16 personen werden indertijd gediagnosticeerd als persoon die stottert maar werd therapie niet geadviseerd en 19 personen (drop-out groep) weigerden therapieën nadat de diagnose stotteren was gesteld. Klinische diagnose werd gesteld tussen 1991 en 2003 en follow-up vond 3 tot 14 jaar na de klinische diagnose plaats in 2005 -2006, met een gemiddelde follow-up duur van 10 jaar. Uitkomstmaten die werden vergeleken hebben betrekking op stotterernst, stottermomenten, vermijden en bijbewegingen, uitlokkende factoren, cognitieve en emotionele verschijnselen, sociale reacties en persoonlijkheidskenmerken.

¹¹ Onder controlegroep wordt hier verstaan een groep die qua sekse, leeftijd, initiële stotterernst en eventuele andere prognostische variabelen geheel vergelijkbaar is met de groep die de te evalueren interventie ondergaat.

Boey (2008) concludeert dat 32% van de therapiegroep bij follow-up nog als stotterend wordt gediagnosticeerd en 55% nog meldt te stotteren. Van de diagnose groep stotterden 73% niet meer, na correctie voor mogelijk spontaan herstel. Van de drop-out groep stottert 68% nog tijdens follow-up en meldt 79% nog te stotteren. De diagnose stotteren wordt gesteld bij meer dan 3% Stuttering Like Dysfluencies (SLD) gemeten in een spraaksample van 100 woorden tijdens een dialoog in de kliniek van de auteur.

Vierentwintig kinderen waren tijdens intake in de leeftijd tussen 7 en 12 jaar. Deze kinderen ontvingen gemiddeld 75,5 behandelsessies (SD 29.3) en maximaal 140 behandelingen. Tijdens het stellen van de klinische diagnose bedroeg het gemiddeld stotterpercentage in deze groep gemiddeld 13,3 % SLD (SD 7.1). Bij follow-up werd gemiddeld 1.3 % SLD gemeten (SD 2.2).

Resultaat op gebied van stotterernst werd voor een aantal kinderen uit de leeftijdsgroep tussen 7 en 12 gemeten met het Stuttering Prediction Instrument (SPI) en voor anderen met het Stuttering Severity Instrument. Totaal scores werden omgezet in Z-scores om de scores van alle deelnemers met elkaar te kunnen vergelijken voor de kinderen tussen 7 en 12 jaar. Boey concludeert dat stotterernst post therapie onafhankelijk van de initiële stotterernst kan verminderen. De vermindering van de stotterernst is geringer dan bij kinderen tot 6 jaar, maar sterker dan bij de adolescenten en volwassenen. Individuele resultaten op gebied van stotterernst bij de kinderen tussen 7 en 12 jaar zijn minder homogeen dan bij de jongere kinderen.

Resultaten op de uitkomstmaten vermijden en meebewegingen, uitlokkende factoren, cognitieve en emotionele verschijnselen, sociale reacties en persoonlijkheidskenmerken werden niet per leeftijdscategorie beschreven.

De mate van zekerheid ten aanzien van de effectgrootte in de studie van Boey (2008) kan als gering worden getypeerd vanwege het design van de studie. Uiteindelijke mate van zekerheid na beoordeling met GRADE is zeer gering gezien het hoge risico op bias (zie bijlage B).

Conclusie

Zekerheid effectgrootte: Gering tot zeer gering voor alle relevante uitkomstmaten	Het aantal studies naar het effecten 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. Beantwoorden van de uitgangsvraag voor de leeftijdsgroep van 6 tot 13 jaar wordt gehinderd doordat de gehanteerde leeftijdsgrenzen van de onderzoekspopulatie in de meeste studies ruimer zijn dan de leeftijdsgrenzen van 6 tot 13 jaar en er geen analyses voor deze subgroep zijn uitgevoerd. Een uitzondering vormen de studie van Graig et al. (1996) en Hancock et al. (1998) naar het effect van Electromyografische feedback,
---	---

	Intensive Smooth Speech, Smooth Speech Home en de studie van Boey (2008) naar het effect van Sociaal Cognitieve Gedragstherapie bij stotteren. Zowel Electromyografische feedback, Intensive Smooth Speech, Smooth Speech Home als Sociaal Cognitieve Gedragstherapie hebben een positief effect op de stotterfrequentie direct na interventie en op lange termijn, variërend van 2 tot 14 jaar na interventie. Over de grootte van het effect van deze therapieën bestaat grote onzekerheid. Dit kan worden teruggevoerd op het quasi experimentele karakter van de studie van Craig (1996), het ontbreken van een controle groep in de studie van Boey (2008)¹ en het beperkt aantal deelnemers per onderzoeksgroep, hierdoor worden weinig nauwkeurige resultaten verkregen.
--	--

6.4 Van bewijs naar aanbeveling

6.4.1 Zekerheid ten aanzien van effectgrootte

Het bewijs voor alle uitkomstmaten van verschillende stottertherapieën voor kinderen tussen 6 en 13 jaar is van lage tot zeer lage kwaliteit. Dit betekent dat er grote onzekerheid is over de grootte van het behandel-effect, met als gevolg dat de logopedist-stottertherapeut niet weet welk effect hij/zij bij uitvoering van de behandeling kan verwachten voor zijn/haar patiënt en de patiënt dientengevolge niet accuraat kan informeren over het behandel-effect. Oorzaak: het aantal RCT's is gering of het betreft studies waarbij de deelnemers niet gerandomiseerd aan een behandelgroep of controle groep werden toegewezen of waarbij een controle groep ontbrak. De studies zijn qua omvang klein en de onderzoekspopulatie van de RCT's overschrijdt de leeftijdsgrenzen van 6 tot 13 jaar. Daarbij ontbreekt een analyse voor de subgroep van 6 tot 13 jaar. Vanuit dit perspectief is er geen reden om aan één van de besproken stottertherapieën de voorkeur te geven.

6.4.2 Balans van gewenste en ongewenste effecten

Het effect van behandeling van kinderen die stotteren tussen 6 en 13 jaar op het percentage gestotterde lettergrepen met Electromyografische feedback, Intensive Smooth Speech, Smooth Speech Home direct na interventie is groot in vergelijking met niet behandelen. Twaalf maanden na behandeling en 2 tot 6 jaar na behandeling blijft een positief effect aantoonbaar. Een positief effect op korte en lange termijn werd tevens aangetoond met betrekking tot de perceptie van natuurlijkheid van het spreken. Op gebied van trait en state anxiety

werden direct na interventie geen verschillen aangetoond tussen de verschillende groepen en de onbehandelde controle groep. In de studie van Boey (2008) werd bij follow-up 3 tot 14 jaar een daling van het percentage Stuttering Like Dysfluencies gerapporteerd van gemiddeld 90,2% , in vergelijking met de het percentage voor interventie. De vermindering van de stotterernst is geringer dan bij kinderen tot 6 jaar, maar sterker dan bij de adolescenten en volwassenen.

De effectgroottes van beide studies kunnen niet direct met elkaar worden vergeleken vanwege het feit dat in de onderzoeken verschillende uitkomstmaten worden gehanteerd. Over het in de studies van Craig et al (1996), Hancock et al (1998) en Boey (2008) beschreven effect bestaat grotere onzekerheid.

6.4.3 Waarden en voorkeuren

a. Personen die stotteren

Omdat redelijke of grote zekerheid ten aanzien van de effectgrootte van de verschillende stottertherapieën voor kinderen tussen 6 en 13 jaar ontbreekt voor alle uitkomstmaten, kunnen voorkeuren van kinderen die stotteren en hun ouders een belangrijke rol spelen. Het is belangrijk dat ouders van kinderen die stotteren tussen 6 en 13 jaar en de kinderen zelf zijn geïnformeerd over het mogelijke voordeel van behandeling van het stotteren. Er zijn aanwijzingen dat behandeling van het stotteren op de leeftijd tussen 6 en 13 jaar de ernst van het stotteren sterker kan verminderen dan wanneer het stotteren tijdens de adolescentie of op volwassenleeftijd wordt behandeld. Aangezien er onvoldoende bewijs is dat één stottertherapie effectiever is dan een andere stottertherapie dienen ouders en kinderen die stotteren in overleg met de logopedist of logopedist-stottertherapeut te bepalen welke behandelmethode de voorkeur heeft.

b. Logopedist-stottertherapeuten

Zie tekst volwassenen.

6.4.4 Kosten van een therapie

Er zijn geen cijfers bekend over de kosten die gemoeid zijn met de behandeling van kinderen die stotteren in de leeftijd van 6 tot 13 jaar. Ook voor deze populatie geldt dat beeldvorming rond de kosteneffectiviteit van stottertherapie wenselijk is.

Aanbeveling

12. 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.

Rationale voor de aanbeveling

- Er is een (zeer) geringe mate van zekerheid over de omvang waarmee na behandeling van stotteren bij kinderen tussen 6 en 13 jaar het aantal gestotterde lettergrepen is gereduceerd.
- Er is onvoldoende bewijs dat één stottertherapie bij de behandeling van kinderen die stotteren in de leeftijd tussen 6 en 13 jaar effectiever is dan een andere stottertherapie.
- Er is een zeer geringe mate van zekerheid dat vermindering van de stotterernst bij kinderen tussen 6 en 13 jaar minder is dan bij kinderen tot 6 jaar, maar sterker dan bij de adolescenten en volwassenen.
- Gezamenlijk bepalen van de doelstellingen op grond van diagnostiek en in overleg met het kind dat stottert en de ouders is gezien het multifactoriële karakter van stotteren gepast.

Aanbeveling voor nader onderzoek

Gezien het ontbreken van kwalitatief hoogwaardig bewijs voor de werkzaamheid van stottertherapie bij kinderen tussen 6 en 13 jaar is nader onderzoek naar de effectiviteit van stottertherapie bij deze doelgroep aan te bevelen.

Literatuur

1. Bezemer, M., Bouwen, J. & Winkelman, C. (2010). *Stotteren van theorie naar therapie* (tweede herzien druk). Bussum. Coutinho.
2. Boey, R. (2008). *Stuttering. An epidemiological and phenomenological study. Effects of a social-cognitive behaviour therapy*. Antwerpen. Universiteit Antwerpen
3. Boey, R. (2013). Effecten van een sociaal cognitieve gedragstherapie voor stotteren: Invloed van leeftijd, geslacht, initiële stotterernst en temperament. *Logopedie VVL*, mei-juni 2013, 33-48.
4. Bothe, A.K., Davidow, J.H., Bramlett, R.E. & Ingham, R.J. (2006). Stuttering treatment research 1970-2005: I. Systematic review incorporating trial quality assessment of behavioural, cognitive and related approaches. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 15, 321-341
5. Conture, E.G. & Curlee, R.F. (2007). *Stuttering and Related Disorders of Fluency*, 3th edition. New York/Stuttgart. Thieme Medical Publishers.
6. Cooper, E.B. & Cooper, C. (1985) *Personalized fluency control therapy-revised*. Allen-Texas: D.L.M. (Nederlandse bewerking (1991): A. Bertens (red.) Arnhem: Boek en Leermiddelencentrale.
7. De Nil, L.C. & Brutten, G.J. (1991). Speech-associated attitudes of stuttering and nonstuttering children. *Journal of Speech and Hearing Research*, 34, 60-65.
8. Eggers, K. & Ebben, H.A.J.M. (2006). *Therapie bij schoolgaande stotterende kinderen*. Handboek Stem-Spraak- Taalpathologie. Houten. Bohn Stafleu, van Loghum.
9. Franken, M.C. & Van Borsel, J. (2006). *De behandeling van jonge stotterende kinderen*. Handboek Stem-Spraak- Taalpathologie. Houten. Bohn Stafleu, van Loghum.
10. Guitar, B. (2014). *Stuttering. An Integrated Approach to Its Nature and Treatment*. Baltimore. Lippincott Williams & Wilkins.
11. Craig, A., Hancock, K., Chang, E., McCreedy, C., Shepley, A., McCaul A., Costello D., Harding, S., Kehren, R., Masel, C. & Reilli, K.(1996). A controlled clinical trial for stuttering in persons aged 9 to 14 years. *Journal of Speech and Hearing Research*, 39, 808-826.

12. Hancock, K., Craig, A., McCaul A., Costello D., Campbell, K. & Gilmore, G. (1998). Two-to Six Year Controlled-Trial Stuttering Outcomes for Children and Adolescents. *Journal of Speech, Language and hearing Research*, 41, 1242-1252.
13. 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.
14. Higgins, J.P.T. & Green, S. (2008). *Cochrane Handbook for Systematic Reviews of Interventions* Version 5.1.0. The Cochrane Collaboration, 2011. Available from www.cochrane-handbook.org/ [15 maart2013]
15. Ladouceur, R. & Martineau, G. (1982). Evaluation of regulated-breathing method with and without parental assistance in the treatment of child stutterers. *Journal of Behavior Therapy and Experimental Psychiatry*, 13, 301-306.
16. Nye, C., Vanryckegem, M., Schwartz, J.B., Herder, C., Turner III, H.M. & Howard, C. (2012). Behavioral Stuttering Interventions for Children and Adolescents: A systematic Review and Meta-Analysis. *Journal of Speech, Language , and Hearing Research*. Published online December 28, 2012. doi: 10.1044/1092-4388(2012/12-0036). Geraadpleegd op 10 juni 2013, <http://jslhr.asha.org>.
17. Riley, G. & Ingham, J.C. (2000). Acoustic duration change associated with two types of treatment for children who stutter. *Journal of Speech, Language and hearing Research*, 43, 965-978.
18. Ryan, B.P. & Ryan, B. (1983). Programed stuttering therapy for children: Comparison of four establishment programs. *Journal of Fluency Disorders*, 38, 291-321.
19. Ryan, B.P. & Ryan, B. V.K. (1995). Programed stuttering treatment for children: Comparison of two establishment programs through transfer, maintenance, and follow-up. *Journal of Speech and hearing Research*, 38, 61-75.

Bijlage A. Risk of Bias Randomised Controlled Trials & Quasi Experimenteel Onderzoek

Studie (1 ^{ste} auteur, jaar van publicatie, aantal proefpersonen)	Randomisation adequate?	Allocation concealed?	Groups similar at baseline?	Patient blinded?	Care provider blinded?	Outcome assessor blinded?	Co interventions avoided or similar?	Compliance acceptable?	Drop-out rate described and acceptable?	Timing outcome assessment similar?	Intention-to-treat analysis?	No selective reporting of outcome?	Risk of bias per studie per uitkomstmaat
Craig 1996 (N=97)	-	-	+/-	n.v.t.	n.v.t.	+	?	+	+	-	?	+	% SS: hoog SPM:hoog
Ladouceur 1982 (N =21)	+	?	+/- ¹	n.v.t.	n.v.t.	+	?	?	+	+	-	+	% SS: matig
Riley 2000 (N=12)	+	?	+	n.v.t.	n.v.t.	?	?	?	?	+	?	+	% SS: hoog
Ryan 1983 (N=16)	-	-	+	n.v.t.	n.v.t.	-	?	?	-	+	-	+/-	SWM: zeer hoog
Ryan 1995 (N=20)	+	?	+	n.v.t.	n.v.t.	?	?	-	+ ²	+	-	+/-	% SS: hoog
Hancock 1998 (N=62) longterm-follow-up Craig 1996	n.v.t.	n.v.t.	?	n.v.t.	n.v.t.	?	-	+	+	-	-	?	stotterpercentage zeer hoog

¹Verdeling naar geslacht is niet beschreven en verdeling naar aanwezigheid van persisterend stotteren in de familie is niet uitgevoerd

¹Drop-out rate of 20% is acceptable

Riley:

Risk of bias (-2): uitvoering van de studie te onvolledig beschreven

Indirectness: (-1 met -1 afgewaardeerd aangezien de leeftijdsgrenzen van de onderzoekspopulatie niet overeenkomen met de populatie van de uitgangsvraag en geen subgroep analyse voor 6-13 jarigen is uitgevoerd;

Imprecision (-1): zeer wijde betrouwbaarheidsintervallen;

Inconsistency : geen aanleiding om af te waarderen;

Publication bias: (-1) methode onvoldoende beschreven

Bijlage B. Risk of Bias Speech Motor Training & Sociaal Cognitieve Gedragstherapie

Studie (1 ^{ste} auteur, jaar van publicatie, aantal proefpersonen)	Randomisation adequate?	Allocation concealed?	Groups similar at baseline?	Patient blinded?	Care provider blinded?	Outcome assessor blinded?	Co interventions avoided or similar?	Compliance acceptable?	Drop-out rate described and acceptable?	Timing outcome assessment similar?	Intention-to-treat analysis?	No selective reporting of outcome?	Risk of bias per studie per uitkomstmaat
Riley & Ingham 2000 (N=12)	+	?	+	n.v.t.	n.v.t.	?	?	?	?	+	?	+	% SS: hoog

¹ Risk of bias (-2): uitvoering van de studie te onvolledig beschreven

Indirectness: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen;

Inconsistency : geen aanleiding om af te waarderen;

Imprecision (-1): zeer wijde betrouwbaarheidsintervallen;

Publication bias: (-1) methode onvoldoende beschreven.

Studie (1 ^{ste} auteur, jaar van publicatie, aantal proefpersonen)	Randomisation adequate?	Allocation concealed?	Groups similar at baseline?	Patient blinded?	Care provider blinded?	Outcome assessor blinded?	Co interventions avoided or similar?	Compliance acceptable?	Drop-out rate described and acceptable?	Timing outcome assessment similar?	Intention-to-treat analysis?	No selective reporting of outcome?	Risk of bias per studie per uitkomstmaat
Boey 2008 (leeftijd 6-13 jaar: N=24)	?	?	-	n.v.t.	n.v.t.	?	+	?	?	-	?	-	Alle uitkomstmaten: hoog

¹ Risk of bias (-2): uitvoering van de studie te onvolledig beschreven

Indirectness: (-1) Vergelijking van effectgrootte met andere studies is slecht indirect mogelijk vanwege de gehanteerde uitkomstmaat (SLD's i.p.v. stotterpercentage);

Inconsistency : geen aanleiding om af te waarderen; Imprecision (-1): kleine populatie, geen betrouwbaarheidsinterval; Publication bias: (-1) methode onvoldoende beschreven.

Hoofdstuk 7: Effectiviteit van stottertherapieën bij adolescenten en volwassenen

7.1 Inleiding

In dit hoofdstuk wordt de werkzaamheid van diverse stottertherapieën bij adolescenten en volwassenen beschreven. Uitgangspunt hierbij is dat de werkzaamheid van een stottertherapie in vergelijkend onderzoek, bij voorkeur in een ‘randomised controlled trial’ (RCT), is geëvalueerd. Zowel studies waarbij een stottertherapie met ‘niets doen’ wordt vergeleken als studies waarbij verschillende stottertherapieën met elkaar worden vergeleken komen aan bod. De effectiviteit van stottertherapieën wordt geëvalueerd voor de volgende uitkomstmaten: stotterernst, vermijdingsgedrag, participatie en kwaliteit van leven, en natuurlijkheid van spreken. Vanuit het perspectief van de persoon die stottert (PDS) zijn alle uitkomstmaten cruciaal, behalve de laatste die een lagere relevantie heeft. Omdat deze uitkomstmaten zelden allemaal in de verschillende studies worden gehanteerd, is een zeer strikte vergelijking vaak lastig.

Bezien vanuit historisch perspectief kunnen twee stromingen binnen de stottertherapie worden onderscheiden: ‘stuttering modification therapy’ en ‘fluency shaping therapy’. Doel van de ‘stuttering modification therapy’ is vrijer en gemakkelijker kunnen stotteren. Verminderen van de angst voor het stotteren is het centrale uitgangspunt. Bij ‘fluency shaping therapy’ staat het stotterend spreken zelf centraal en wordt de persoon die stottert door middel van een gedragstherapeutisch programma geleerd stap voor stap vloeiender te gaan spreken (Bezemer et al 2010).

In de praktijk en in het wetenschappelijk onderzoek wordt echter een veelheid aan methoden, werkmodellen en behandeltechnieken gehanteerd, waarvan ‘stuttering modification therapy’ en ‘fluency shaping therapy’ onderdeel kunnen zijn. In deze tekst zullen dan ook meerdere therapieën en therapeutische technieken aan bod komen.

7.2 Methode

Er is d.d. 30 juli 2012 gezocht naar systematische reviews (al of niet met meta-analysen) van RCTs. Hiervoor zijn de volgende bronnen gebruikt, met tussen haakjes aangegeven het aantal potentieel relevante systematische reviews en totaal aantal gevonden studies: PsycInfo (0/29), Embase (0/11), Cinahl (0/37), Cochrane Library (0/13) en Medline (6/111). Van de vijf in Medline gevonden potentieel relevante systematische reviews bleek één een commentaar te zijn op een systematische review. Criteria voor het bepalen van de relevantie waren:

- Onderwerp betrof stotteren
- Studiedeelnemers waren adolescent of volwassen

- Het betrof een therapeutische (stottertherapie of farmacotherapie) en geen diagnostische interventie.¹²

Er is op 12 februari 2013 gezocht naar oorspronkelijke RCTs, met tevens een update op systematische reviews, in de hiervoor genoemde bronnen; tussen haakjes staan het aantal potentieel relevante RCTs en totaal aantal gevonden studies: Embase (4/94), Cinahl (4/108), Medline (7/99) en PsycInfo (3/107).

Criteria voor het bepalen van de relevantie waren dezelfde als hiervoor, met als aanvulling dat de gevonden potentieel relevante RCTs niet al in een systematische review waren opgenomen.

Voor de beide zoekacties tezamen werden vijf relevante systematische reviews en acht relevante RCTs gevonden. Hier was geen in Nederland uitgevoerd onderzoek bij. Om deze reden is een bespreking van het onderzoek van Huinck en Peters (2004) toegevoegd. In dit longitudinale onderzoek worden drie in Nederland toegepaste methoden geëvalueerd.

Voor de details van de zoekstrategie zij verwezen naar bijlage 5.

7.3 Onderbouwing

In paragraaf 3.1 zullen de diverse systematische reviews worden besproken. In paragraaf 3.2 zullen individuele studies worden besproken die nadien zijn gepubliceerd of niet zijn opgenomen in de reviews. In paragraaf 3.3 worden de therapieën besproken die in Nederland zijn geëvalueerd.

7.3.1 Overzicht van systematische reviews van studies naar effectiviteit van gedragsinterventies

Bothe et al (2006)

In 2006 publiceerden Bothe et al een systematische review van studies, gepubliceerd tussen 1970 en 2005, waarin gedragsinterventies, cognitieve interventies en gerelateerde interventies voor stotteren werden geëvalueerd. Op de uitvoering van deze review valt wel een en ander af te dingen. Zo is de beschrijving van de interventies en van de samenstelling van de onderzoeksgroepen in termen van sekse, leeftijd, aanwezige co-morbiditeit weinig gedetailleerd. Daarnaast worden de uitkomsten niet in maat en getal in tabelvorm weergegeven, waardoor vergelijking tussen en binnen typen van interventies niet goed mogelijk is.

Ook hanteren de reviewers een succesmaat voor stotterfrequentie – minder dan 5% gestotterde lettergrepen na interventie – waarover discussie mogelijk is (zie ook bijlage 3).

Vrijwel alle studies hebben een interventie geëvalueerd die valt onder de noemer ‘fluency shaping therapie’. Waar het volwassenen betreft hebben de meeste studies betrekking op

¹² De werkzaamheid en neveneffecten van farmacotherapie worden elders beschreven.

behandeling van het type ‘uitgerekt ontspannen spreken’ (prolonged/smooth speech) en ademtherapie (regulated breathing and airflow).

Voor het beoordelen van de positieve en negatieve effecten van interventies zijn experimentele, vergelijkende studies met randomisatie (interventie A versus interventie B of interventie A versus nietsdoen/placebo) de beste evaluatiemethode. Daarbij zijn follow-up uitkomsten (6 maanden, 12 maanden na einde behandeling) veel relevanter voor de persoon die stottert dan uitkomsten bij einde behandeling. Er zijn twee studies met een vergelijkende opzet, maar zonder randomisatie.¹³ Hierin wordt ‘uitgerekt ontspannen spreken’ geëvalueerd bij volwassenen.¹⁴ In deze twee studies worden ook follow-up gegevens per studie gepresenteerd (Tabel 1). De follow-up duur was 6 maanden. De stotterfrequentie is na einde behandeling en bij einde follow-up met ca. 50 – 80% verminderd. Wel valt op te merken dat de stotterfrequentie weer (geleidelijk) toeneemt tijdens de follow-up periode. Wat de spreeknelheid betreft lijkt van enige toename sprake als gevolg van de therapie. James et al (1989) onderzochten tevens in hoeverre sociale, emotionele of cognitieve variabelen verbeterden. Hun onderzoeksgroep die DAF + therapie voor ademhaling, frasering en prosodie volgde, gaf te kennen dat zij het minder erg vond om te praten en praten als zodanig minder vermeerde.¹⁵

Tabel 1. Stotterfrequentie en spreeknelheid na diverse “prolonged/smooth speech” therapieën

		Stotterfrequentie (% gestotterde lettergrepen)				Spreeknelheid (aantal lettergrepen per minuut)			
		Base-line	PT*	FU*	% verbetering (FU-baseline)	Base-line	PT*	FU*	% verbetering (FU-baseline)
Perkins 1974									
N=44	Fluency								
m/v: 37/7	training								
Lft: 12-52	-CF** conditie	7,82	2,41	2,98	62	163		193	18
(vrijwel alleen volwassenen)	-TO** conditie	5,17	1,75	1,67	68	175		189	8
James 1989									
N=24 (4 uitval- lers)	Delayed auditory	16,32	2,64	8,44	48	230	-	245	6
m/v:18/2	feedback								
Lft:19-50	(DAF)								
	DAF + therapie voor	9,04	1,04	1,73	81	245	-	249	2

¹³ Er is voor gekozen om alleen van studies waarin betrouwbaarheidsintervallen van de effectgrootte worden vermeld de risk of bias en de zekerheid ten aanzien van de effectgrootte te bepalen. Zonder betrouwbaarheidsintervallen is het niet mogelijk een oordeel te vellen over de nauwkeurigheid van een effectgrootte.

¹⁴ Het betreft de studies die de reviewers hebben gecodeerd als ‘multiple groups, no random assignment’; ‘multiple groups, random assignment’

¹⁵ In de studie van Perkins et al wordt geen informatie gegeven over de mate van reductie.

	Stotterfrequentie (% gestotterde lettergrepen)	Spreek snelheid (aantal lettergrepen per minuut)
ademhaling, frasering en prosodie	Mediane percentage verbetering: 65 (range: 48-81%)	Mediane percentage verbetering: 7 (range: 2-18%)

* PT: post treatment; FU: follow-up duur van ≥6 maanden. ** CF: "contingency free"; TO: "time-out"

Bothe et al (2006) rapporteerden met betrekking tot ademtherapie (regulated breathing and airflow) twee studies waarin de stotterfrequentie tijdens follow-up werd geëvalueerd. De follow-up duur in deze studies was 6 of 27 maanden. Ook bij deze therapievorm werden gunstige effecten op de stotterfrequentie gezien (tabel 2). De mate van verbetering varieert van 35-67% minder gestotterde lettergrepen. Deze uitkomsten lijken iets minder gunstig dan die van 'uitgerekt ontspannen spreken' (prolonged/smooth speech). Dat lijkt niet te gelden voor de spreek snelheid: hier lijkt de ademtherapie wat gunstiger uit te vallen. Maar in beide gevallen geldt dat er binnen deze therapievormen aanzienlijke variatie bestaat (Tabel 1 en Tabel 2).

Tabel 2. Stotterfrequentie en spreek snelheid na diverse "regulated breathing and airflow" therapieën (met eventueel aanvullende therapie)

		Stotterfrequentie (% gestotterde lettergrepen)				Spreek snelheid (aantal lettergrepen per minuut)			
		Baseline	PT*	FU*	% verbetering (FU-baseline)	Baseline	PT*	FU*	% verbetering (FU-baseline)
Ladouceur 1986									
N=16	regulated								
m/v:12/4	breathing method & systematic								
Lft: 18-37	desensitization & cognitive restructuring								
	-‘personen die stotteren’	7,7	3,7	2,5	67	Geen verandering t.o.v. ‘personen die niet stotteren’			
	-‘personen die niet stotteren’	2,5	-	1,8	28				
Saint-Laurant 1987									
N=40	- Intensive regulated-breathing	9,3	4,1	5,4	42	186	204	224	20
m/v: 27/13	- Spaced regulated-breathing	9,2	4,7	4,7	49	163	190	212	30
Lft: 18-50									

	Stotterfrequentie (% gestotterde lettergrepen)				Spreek snelheid (aantal lettergrepen per minuut)			
	<i>Baseline</i>	<i>PT*</i>	<i>FU*</i>	<i>% verbetering (FU-baseline)</i>	<i>Baseline</i>	<i>PT*</i>	<i>FU*</i>	<i>% verbetering (FU-baseline)</i>
- Intensive regulated-breathing and maintenance phase	9,3	4,2	5,0	46	171	186	204	19
- Spaced regulated-breathing and maintenance phase self-recording procedure (=placebo)	10,8	5,4	7,0	35	153	175	178	16
	9,8	8,4	-	-	145	156	-	
	Mediane percentage verbetering: 44 (range: 35-67%)				Mediane percentage verbetering: 19 (range: 16-30%)			

* alle waarden op basis van grafische interpolatie

Ladouceur en Saint-Laurent (1986) onderzochten of de communicatieve attitude (met de Erickson scale of communication attitudes) en de aanwezigheid van irrationele opvattingen bij personen die stotteren veranderden door ademtherapie in combinatie met desensitisatie en cognitieve herstructurering. Zij konden geen significante verandering vaststellen.

Van vier studies over ademtherapie zonder follow-up informatie laten er twee een vermindering van de stotterfrequentie tot onder de 5% zien. Andere uitkomstmaten worden door de reviewers niet vermeld.

Bothe et al (2006) rapporteerden twee studies die betrekking hebben op adolescenten en volwassenen en waarin ander typen interventies dan die hiervoor aan de orde waren, werden besproken. Öst et al (1976) vergeleken (1) spraaktraining met een metronoom (n=5) en (2) 'shadowing' (n=5) met een wachtlijst-controlegroep (n=5). Gemiddeld waren de proefpersonen 25 jaar oud (11 mannen en 4 vrouwen). Spraaktraining met een metronoom resulteert in een statistisch significante daling van het percentage 'nonfluency' van 16,6 naar 9,3 na 14 maanden follow-up, ofwel een daling van 44%.¹⁶ 'Shadowing' gaat gepaard met een niet-significante daling van 14,4% naar 9,6% na 14 maanden follow-up, ofwel een daling van 33%. Voor de wachtlijst-controlegroep zijn de corresponderende getallen: 17,2 versus 9,5%, ofwel een daling van 45%.¹⁷ In het aantal woorden per minuut hardop lezen, brengt spraaktraining met een metronoom geen verandering (108 versus 105 bij follow-up); in de wachtlijst-controlegroep vindt evenmin verandering plaats. In de 'shadowing'-groep neemt het aantal woorden echter significant toe: van 75 naar 90 per minuut.

In de studie van Ingham & Andrews (1973) wordt een therapie gebaseerd op het belonen van minder stotteren met fiches in combinatie met 'delayed auditory feedback' geëvalueerd.

¹⁶ Deze studie geeft geen informatie over de natuurlijkheid van spreken.

¹⁷ Vanwege de grote variatie in respons binnen de wachtlijst-controlegroep is de reductie van 45% niet statistisch significant.

Hiervan zijn alleen uitkomsten direct na behandeling beschikbaar, terwijl een statistische analyse achterwege is gebleven. De diverse grafieken in deze publicatie laten een afname van het percentage gestotterde lettergrepen zien van ca.15,5 naar 11 (experiment 1) of 8 (experiment 2, waarin de beloning verdubbeld werd). De corresponderende getallen voor het aantal gesproken lettergrepen per minuut zijn 80 versus 125 en 110 versus 135.

In de review is niet nagegaan in welke mate gender, socio-economische status, opleidingsniveau, leeftijd en etniciteit het effect van de therapie heeft kunnen beïnvloeden.

Om de mate van zekerheid ten aanzien van de effectgrootte van stottertherapie vast te stellen is een evidence-profiel gemaakt (bijlage 3).¹⁸ Deze wordt als gering gekwalificeerd vanwege belangrijke beperkingen in opzet en uitvoering van de studies en vanwege aanzienlijke heterogeniteit van de uitkomsten. Een belangrijke beperking van de in deze review opgenomen studies waarin follow-up gegevens worden vermeld, is dat de follow-up duur slechts in een enkel geval langer was dan 24 maanden.

De reviewers concluderen dat bij volwassenen vooral ‘uitgerekt ontspannen spreken’ effectief is: *“For adults who stutter, many of the articles that met this review’s trial quality criterion support the use of prolonged-speech-type procedures within a comprehensive treatment framework that includes initial intensive work, practice in front of groups, specific transfer or generalization tasks, self-evaluation of speech and/or selfmanagement of program steps, a focus on speech naturalness and feedback of naturalness measurements, and an active contingent maintenance program that continues to address not only stuttering but also speech naturalness and self-evaluation skills”*.

Deze conclusie komt niet geheel overeen met de conclusie die wij eerder trokken: ‘uitgerekt ontspannen spreken’ is mogelijk effectiever in termen van reductie van stotterfrequentie, terwijl ademtherapie gunstiger lijkt voor de spreek snelheid. Als uitkomstmaat is deze laatste echter minder van belang. Mogelijk leidt het feit dat wij de aandacht vooral gericht hebben op studies met een follow-up van tenminste zes maanden en niet zozeer op uitkomsten direct na therapie, tot een iets andere beoordeling dan die van Bothe et al (2006).

Herder et al (2006)

In de systematische review van Herder et al (2006) werden verschillende meta-analyses van RCTs uitgevoerd waarin een vorm van gedragstherapie met toepassing van operante werkwijzen (‘behavioral stuttering intervention’) werd vergeleken met een controlegroep of met een andere therapie. Uitvoering van deze systematische review was matig, onder meer omdat van geen van deze studies de methodologische kwaliteit werd beoordeeld (Bijlage 2). In de eerste meta-analyse zijn zes studies opgenomen waarin een stottertherapie werd verge-

¹⁸ De zekerheid ten aanzien van de effectgrootte is in GRADE als volgt gedefinieerd.

High: Further research is very unlikely to change our confidence in the estimate of effect.

Moderate: Further research is likely to have an important impact on our confidence in the estimate of effect and may change the estimate.

Low: Further research is very likely to have an important impact on our confidence in the estimate of effect and is likely to change the estimate.

Very low: We are very uncertain about the estimate.

leken met een controle. Sommige studies hebben betrekking op adolescenten en volwassenen, andere op kinderen. De gecombineerde effectgrootte bedraagt 0.91 (95% BI: 0.57 - 1.26) direct na behandeling; waarden boven 0.7 worden in het algemeen als een groot effect beschouwd.¹⁹ Maar er is een aanzienlijke variatie in effectgroottes van de zes studies, uiteenlopend van 0 tot 1.87 (Figuur 1). Wij beoordelen de zekerheid ten aanzien van de effectgrootte als gering.²⁰

De reviewers vonden vier studies waarin verschillende vormen van gedragstherapie bij volwassenen en adolescenten met elkaar werden vergeleken (Figuur 2). Op grond van de resultaten van een meta-analyse concludeerden de reviewers dat er geen verschil in effectiviteit tussen verschillende vormen van gedragstherapie zou zijn. Een effectgrootte (Hedges' G) van 0.29 wijst inderdaad niet op een relevant verschil in effectiviteit (Figuur 1), wanneer de gebruikelijk drempelwaarde van 0.5 wordt aangehouden.²¹ Maar de uitkomst van de meta-analyse waarop deze conclusie is gebaseerd is onzeker, gezien het feit dat de bovengrens van het betrouwbaarheidsinterval (0.76) boven de drempelwaarde van 0.5 ligt. De zekerheid over de effectgrootte kan als gering worden getypeerd.²²

Figuur 1. Studies waarin de effectiviteit van verschillende gedragstherapieën op basis van RCTs wordt vergeleken met controlegroep bij kinderen, adolescenten en volwassenen

¹⁹ Holger J Schünemann, Andrew D Oxman, Gunn E Vist, Julian PT Higgins, Jonathan J Deeks, Paul Glasziou and Gordon H Guyatt on behalf of the Cochrane Applicability and Recommendations Methods Group (2008). Chapter 12 Interpreting results and drawing conclusions. Published by John Wiley & Sons, Ltd under "The Cochrane Book Series" Imprint.

²⁰ Beoordeling met GRADE.

Risk of bias: niet beoordeeld.

Indirectness: met -1 afgewaardeerd omdat kinderen en volwassenen niet separaat zijn geanalyseerd;

Imprecision: geen aanleiding om af te waarderen (ondergrens van betrouwbaarheidsinterval is >0.5);

Inconsistency: met -1 afgewaardeerd. Ofschoon p-waarde van toets op heterogeniteit niet significant ($p=0,13$) is, is er een I^2 van 41.07 en variëren de puntschattingen aanzienlijk.

Publication bias: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen.

²¹ De waarde van 0.5 moet gelezen worden als een halve standaardafwijking. Met andere woorden als de uitkomst van twee interventies meer dan een halve standaardafwijking verschilt, wordt dit in beginsel als een relevant (klinisch) verschil aangemerkt.

²² Beoordeling met GRADE.

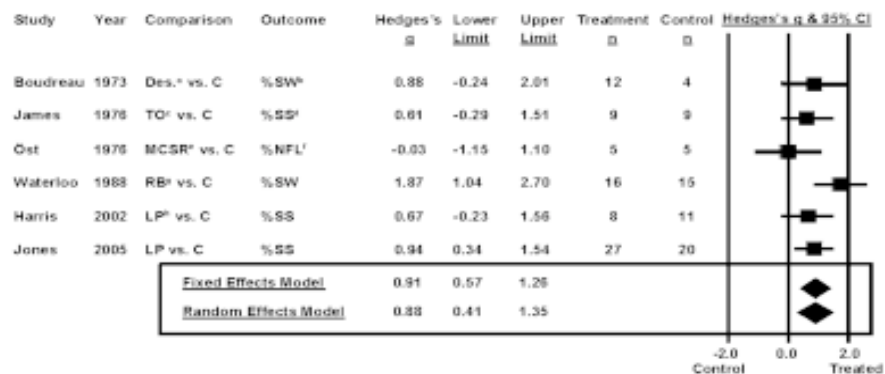
Risk of bias: niet beoordeeld.

Indirectness: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen;

Imprecision: met -1 afgewaardeerd omdat 0.5 in het betrouwbaarheidsinterval (-0.18; 0.76) ligt;

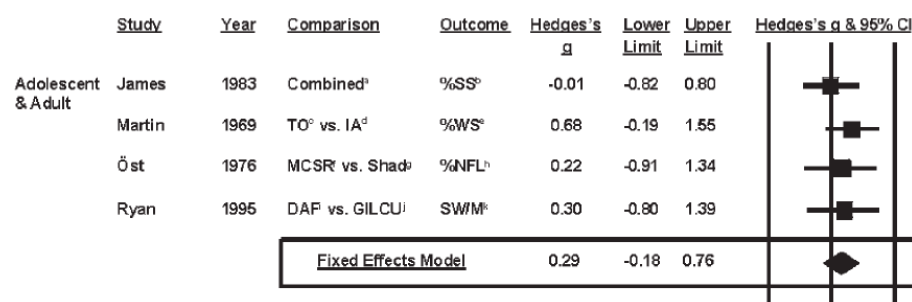
Inconsistency: met -1 afgewaardeerd. Ofschoon p-waarde van toets op heterogeniteit niet significant is, wijken de puntschattingen (-0.01; 0.68; 0.22; 0.30) aanzienlijk van elkaar af;

Publication bias: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen.



Bron: Herder et al (2006)

Figuur 2. Studies waarin de effectiviteit van verschillende gedragstherapieën op basis van RCTs met elkaar worden vergeleken bij adolescenten en volwassenen



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

^a Experimenter-Administered Time-Out, Self-Initiated Time-Out, and Experimenter-Administered Self-Terminated Time-Out; ^b Percent Stuttered Syllables; ^c Time Out from Speaking; ^d Information-Attitude; ^e Percent Words Stuttered; ^f Metronome-Conditioned Speech Retraining; ^g Shadowing; ^h Percent Non-Fluency; ⁱ Delayed Auditory Feedback; ^j Gradual Increase in Length and Complexity of Utterance; ^k Stuttered Words per Minute; ^l Lidcombe Program; ^m Demands and Capacities Model; ⁿ Lidcombe Program with and with out Parental Verbal Contingencies for Stuttering and Stuttering Severity Ratings; ^o Speech Motor Training; ^p Extended Length of Utterance

Bron: Herder et al (2006)

Bate et al (2011) en Woodman & Moore (2011)

Doel van de review van Bate et al (2011) was de effectiviteit van zogeheten 'habit reversal' therapieën voor tics, habit disorders en stotteren na te gaan. In deze review werden twee studies opgenomen die betrekking hadden op stottertherapie bij volwassenen. Beide studies betroffen een evaluatie van de effectiviteit van ademtherapie en werden al opgenomen in de review van Bothe et al (2006).

Doel van de review van Woodman & Moore (2011) was een systematische evaluatie van de wetenschappelijke literatuur over de effectiviteit en veiligheid van het toepassen van de Alexander techniek voor gezondheid gerelateerde aandoeningen. De reviewers lokaliseren de Alexander techniek in het gebied van de 'complementaire geneeskunde en alternatieve benaderingen'. Zij vermelden één studie met twee proefpersonen bij wie toepassing van de Alexander techniek in 30 één-op-één lessen werd geëvalueerd. Van de 17 niet-gevalideerde fysieke en psychologische uitkomstmaten gaven er 8 een, niet-gekwantificeerde, statistisch significante verbetering ($p>0.01$ en $p<0.05$) te zien. Volgens de reviewers is er 'preliminary

evidence suggesting improvement in stuttering, but this evidence is insufficient to support recommendations in this area’.

7.3.2 Individuele (internationale) studies naar effectiviteit van cognitieve en/of gedragsinterventies, verschenen na publicatie van systematische reviews

Carey et al (2010) voerden in een universitaire setting een RCT uit (n=40, waarvan 17,5% vrouw) waarin een telehealth versie van het Camperdown programma – een programma voor herstructurering van de spraak met aandacht voor ademen, fonatie en articuleren – werd vergeleken met het reguliere face-to-face programma.²³ De onderzoekers hanteerden de volgende exclusiecriteria: jonger dan 18 jaar, een stotterfrequentie van minder dan 2%, onvoldoende beheersing van het Engels, behandeling voor stotteren gedurende de voorafgaande 12 maanden. Het programma heeft vier componenten: individuele leersessies, een groepsdag om te oefenen, individuele sessies gericht op het oplossen van problemen en handhaven / onderhouden van de geleerde vloeiendheidstechnieken. De telehealth versie werd als volgt aangepast: de gehele behandeling geschiedde telefonisch; uitgerekt leren spreken en natuurlijkheid van de spraak werden onderwezen door middel van audiotapes die waren toegestuurd aan de studiedeelnemers; een specifieke voice mail lijn kon worden benut voor opname van spraak samples; instructie en feedback werden naar behoefte gegeven door de stottertherapeut; thuis oefenen verving de groepsdag in het face-to-face programma. De primaire uitkomstmaten waren stotterpercentage en contact-tijd; secundaire uitkomstmaten waren natuurlijkheid van de spraak (geëvalueerd met een gestandaardiseerd instrument), zelf-gerapporteerde stotterernst (met behulp van een 9-puntsschaal) en tevredenheid met de behandeling.²⁴ De follow-up duurde 12 maanden. Het betreft een goed uitgevoerde studie met een lage risk of bias (zie bijlage B). De mate van zekerheid ten aanzien van de effectgrootte is gering.²⁵

In termen van verschil in stotterpercentage tussen beide groepen werd er noch direct na behandeling noch na 6 of 12 maanden follow-up een significant verschil gesignaleerd ($p=0.9$). Gemiddelde stotterpercentage was 2.4 (direct na behandeling), 2.8 (6 maanden na

²³ RCTs waarin de reguliere vorm van het Camperdown Program als zodanig werd onderzocht op effectiviteit werden niet gevonden.

²⁴ Het stotterpercentage werd bepaald door een onafhankelijke logopedist aan de hand van een 10 minuten durende audio opname van een telefoongesprek door de persoon die stottert met drie andere personen; twee vreemden en de therapeut.

²⁵ Beoordeling met GRADE. Voor de beide uitkomsten:

Risk of bias: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen;

Indirectness: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen;

Imprecision (-1): betrouwbaarheidsintervallen voor deze twee uitkomstmaten ontbreken, zodat mate van nauwkeurigheid moeilijk is vast te stellen.

Inconsistency: niet van toepassing.

Publication bias (-1): er werd een stage 3 RCT voor het evalueren van de effectiviteit van de reguliere versie van het Camperdown Program. Zo schrijven O’Brian et al (2003): The promise of this Stage 2 clinical trial has led the authors to initiate a Stage 3 randomized controlled trial of the Camperdown Program”. Een publicatie is echter niet te vinden. Mogelijk is er dan ook publicatiebias in het spel.

behandeling), en 2.6 (12 maanden na behandeling). Stotterpercentage was ca. 7 in de telehealth groep bij de start van de therapie, en ca 5.4 in de face-to-face groep; in de analyse werd overigens voor dit verschil gecorrigeerd. De reductie in stotterpercentage was derhalve ongeveer 60%. De zelf-gerapporteerde stotterernst (1 = niet stotteren, 9 = zeer ernstig) nam in de telehealth groep af van 3.9 naar 2.3 na 9 maanden, en in de face to-face groep van 3.8 naar 2.4, een afname van circa 40%. Met betrekking tot de natuurlijkheid van de spraak rapporteren de auteurs geen cijfers, maar vermelden slechts dat er geen verschil was tussen telehealth en face-to-face groep was. De telehealth versie werd frequenter als 'uitermate passend' omschreven ($p=0.018$). Onderstaande tabel biedt een overzicht van het effect van diverse variabelen op de contacttijd met de stottertherapeut.

Tabel 3. Verschil in contacttijd (minuten) met een stottertherapeut tussen behandelgroepen gecorrigeerd voor alle andere variabelen

Variabele	Schatting	95% betrouwbaarheidsinterval
Telehealth versie	-221	-387; -56
Vrouwen	227	0; 453
Oudere studiedeelnemers	-15	-25; -4
Stotterernst start bij de behandeling	213	41; 384
Eerdere behandeling	361	171; 551
Familiegeschiedenis	17	-152; 185

Cream et al (2010) voerden in een universitaire setting onder 89 stotterende adolescenten en volwassenen ($m:v=4:1$; gemiddelde leeftijd: 27 jaar) een multicenter (6 centra) RCT uit waarin herstructurering van de spraak met standaard onderhoud werd vergeleken met dezelfde interventie maar aangevuld met video zelf-modellering. Video zelf-modellering wordt door de onderzoekers als volgt gedefinieerd: 'a behavioral intervention during which people view video images of themselves free of a problem target behavior'. De volgende exclusiecriteria werden gehanteerd: minder dan 2 stotterpercentage; onvoldoende beheersing van het Engels; stotteren begon na de leeftijd van 12 jaar; stotteren ten gevolge van een psychologische aandoening; behandeling in de afgelopen 6 maanden. Drie centra pasten de 'La Trobe smooth

speech program' toe en drie centra een gemodificeerde versie van het Camperdown programma. Volgens de onderzoekers hebben beide programma's in het verleden dezelfde uitkomsten laten zien. stotterpercentage was de primaire uitkomstmaat.²⁶ Er waren 5 secundaire uitkomstmaten: zelf-gerapporteerde angst; zelf-gerapporteerde stotterernst; vermijden van gespreksituaties; kwaliteit van leven; tevredenheid met vloeiend spreken. De follow-up duur bedroeg 6 maanden (gerekend vanaf het moment van randomiseren). Het betreft een goed uitgevoerde studie met een laag tot matige risk of bias (zie bijlage B), al is de

²⁶ stotterpercentage werd bepaald aan de hand van twee 10 minuten durende geluidsopnames van telefoon-gesprekken met onbekende onderzoeksassistenten die de conversaties opnamen,

compliance (dagelijks video bekijken) slechts 50%, terwijl bijna 40% over frequentie van bekijken geen informatie verstrekke. Wat verschil in stotterpercentage betreft levert video zelfmodellering niets op: aan het einde van de follow-up periode is het verschil 0.06 stotterpercentage (95% BI: -1.3 - +1.4 stotterpercentage). Voor de secundaire uitkomstmaten wordt op sommige meetmomenten wel en op andere geen statistisch significant verschil gezien, waarbij onduidelijk blijft of het ook klinisch relevante verschillen betreft. De zekerheid ten aanzien van de effectgrootte is groot voor de uitkomst stotterpercentage en gering voor de secundaire uitkomstmaten.²⁷

Lincoln et al (2010) zijn bij 11 volwassenen (leeftijd: 21-65 jaar; m:v=7:4) nagegaan of vier verschillende combinaties van altered auditory feedback – (minimum / maximum) delayed auditory feedback (DAF), (minimum / maximum) frequency-altered feedback (FAF) – en masking auditory feedback (MAF) – tijdens conversatie een verschillend effect op het percentage gestotterde lettergrepen hebben, in vergelijking met normale auditory feedback.²⁸ Een belangrijke beperking van deze studie is dat niet duidelijk is in welke mate de *volgorde* waarin de combinaties werden geëvalueerd, de resultaten heeft beïnvloed. De resultaten van deze studie zijn samengevat in tabel 4. Tussen de controleconditie en de overige condities bestaan geen statistisch significante verschillen. De zeer wijde betrouwbaarheidsintervallen illustreren dit. Vermoedelijk is dit terug te voeren op grote interindividuele variatie enerzijds en kleine studieomvang anderzijds. De zekerheid ten aanzien van de effectgrootte is gering.²⁹ De onderzoekers concluderen dat: *“Participants’ varying responses to differing AAF settings likely accounted for the failure to find group differences between conditions. These results suggest that studies that use standard DAF and FAF settings for all participants are likely to underestimate any AAF effect. It is not yet possible to predict who will benefit from AAF devices in everyday situations and the extent of those benefits”*.

Tabel 4. Procentuele verschil in stotterpercentage van verschillende combinaties van altered auditory feedback met normale auditory feedback

²⁷ Beoordeling met GRADE. Voor de uitkomst stotterpercentage is er geen aanleiding om voor een van de GRADE-factoren af te waarderen. Voor de andere uitkomstmaten geldt dat wel:

Risk of bias: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen;

Indirectness: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen;

Imprecision: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen;

Inconsistency (-2): geen consistente uitkomsten voor kwaliteit van leven en andere uitkomstmaten;

Publication bias: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen.

²⁸ Stotterpercentage werd aan de hand van video-opnames bepaald door een logopedist ervaren in het meten van stotteren en niet bekend met het doel van het onderzoek en de omstandigheden waarin werd gesproken. Hiertoe bekeek hij DVDs met spraaksamples en scoorde stotterpercentage in real time met behulp van een handheld apparaat.

²⁹ Risk of bias (-1): uitvoering van de studie niet geheel duidelijk (zie tekst)

Indirectness: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen;

Imprecision (-1): zeer wijde betrouwbaarheidsintervallen;

Inconsistency : geen aanleiding om af te waarderen;

Publication bias: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen

Conditie / Combinatie	stotterpercentage verschil	95% betrouwbaarheidsinterval
1. Control (NAF)	— —	
2. MIN FAF + MIN DAF	-27	-65; 53
3. MAX FAF + MAX DAF	-49	-76; 8
4. MAX FAF + MIN DAF	-31	-67; 44
5. MIN FAF + MAX DAF	-39	-71; 28
6. MAX FAF + MAX DAF (READING)	-62	-90; 40
7. White noise (MAF)	-51	-77; 3
8. Control reading (NAF)	— —	

Hewat et al (2006) hebben bij 22 adolescenten en volwassenen onderzocht of een gedragstherapie gebaseerd op het aanleren van het even pauzeren na een moment van stotteren (self-imposed time-out), effectief is. Zij hanteerden daarbij de volgende inclusiecriteria: leeftijd ouder dan 14 jaar, voldoende beheersing van het Engels, geen stottertherapie gevolgd in de voorafgaande 12 maanden. Dit onderzoek werd opgezet op grond van onder meer de volgende uitgangspunten: *'(...) Unlike prolonged-speech, which must be used continually to suppress stuttering, time-out is only applied at times of stuttering. Consequently, it is likely to be less socially conspicuous than a novel speech pattern (...) Time-out appears to be a flexible means to control stuttering because its viability does not depend critically on either the duration of the timeout period or the consistency of the application of the stimulus (...). Time-out would appear to be capable of producing clinically significant reductions in stuttering in far fewer treatment hours than prolonged-speech'*. Wat dat laatste betreft moeten de onderzoekers op basis van hun resultaten vaststellen dat herstructurering van de spraak een meer voorspelbare klinische respons geeft en gepaard gaat met een sterkere reductie van het percentage gestotterde lettergrepen dan de time-out benadering. Verder onderzoek is volgens Hewit et al (2006) nodig *'to identify those clients who are most likely to respond to the program'*.³⁰

Menzies et al (2008) zijn door middel van een RCT (n=32; 2 uitvallers; m:v=25:5; leeftijd: 18-66) nagegaan of cognitieve gedragstherapie (CGT) plus stottertherapie (spraakherstructurering) sociale angst en stotteren (meer) reduceert dan stottertherapie (spraakherstructurering). Exclusiecriteria waren: behandeling met cognitieve gedragstherapie in de voorafgaande 6 maanden; spraakbehandeling ('speech treatment') in de voorafgaande 12 maanden; onvoldoende beheersing van het Engels; verstandelijke beperking; momentane suïcidaliteit; momentaan gebruik van benzodiazepines; niet bereid of niet in staat om een stabiele dosering van psychotrope medicatie tijdens de studie aan te houden. Het CGT-programma bestond uit 10 wekelijkse sessies van individuele behandeling van in totaal 15 uur, en was specifiek gericht op het reduceren van spraak-gerelateerde angst. Dit programma ging – in de

³⁰ Deze studie is niet-vergelijkend van opzet, en kan alleen al daarom getypeerd worden als bewijs dat een geringe mate van zekerheid ten aanzien van de effectgrootte verschaft. Een vergelijkende opzet was in principe goed mogelijk geweest. Hierbij zou de controlegroep een gedragstherapie gebaseerd op spraakherstructurering hebben gevolgd en de experimentele groep gedragstherapie gebaseerd op time-out.

experimentele groep – vooraf aan de stottertherapie, terwijl de controlegroep in die periode geen interventie kreeg. De follow-up duur was 12 maanden.

Bij de start van de studie had 67% van de experimentele groep en 53% van de controlegroep de diagnose sociale fobie. Na 12 maanden was er in de experimentele groep niemand meer met deze klinische diagnose. Deze diagnose werd gesteld door een psycholoog die geen weet had van de studiegroep waartoe de studiedeelnemer behoorde. In de controlegroep was het percentage personen met sociale fobie ongewijzigd. Vanwege de kleine studieomvang was er net geen sprake van een statistisch significant verschil (Fisher's exact test, $p = 0.055$, odds ratio 2.0, [95% BI: 0.9 – 4.5]). Het CGT-programma leek een substantieel, positief effect op het algeheel functioneren te hebben gehad, zoals gemeten met de Global Assessment of Functioning scale (GAF-schaal met score variërend van 0 tot 100). De score op de GAF-schaal was na het volgen van het CGT-programma 21 punten (95% BI: 12.6–32.7) hoger dan in de controlegroep. Dit betekent dat degenen die het CGT-programma hadden gevolgd, meer alledaagse taken met minder psychische moeilijkheden, minder angst en vermijdingsgedrag verrichtten. Het volgen van het CGT-programma leidde er wellicht ook toe dat meer activiteiten werden uitgevoerd die hoog in de 'angst-hiërarchie' stonden: 33% ($p < 0.005$) meer dan in de controlegroep. Ook de scores op het Unhelpful Thoughts and Beliefs About Stuttering (UTBAS) meetinstrument vertoonden op verschillende meetmomenten een significante daling ten opzichte van de controlegroep, maar deze waren aan het einde van de follow-up niet langer significant. Bij aanvang van de studie was het stotterpercentage in de controlegroep ca. 8.5 en in de experimentele groep ca. 7.³¹ Bij de start van de stottertherapie was stotterpercentage in beide groepen met 11% afgenomen. Direct na behandeling waren de percentages reductie in stotterpercentage 35 en 70 in de experimentele respectievelijk de controlegroep, *voor zover het personen betrof die werden gediagnosticeerd met een sociale fobie*. Na 12 maanden bedroegen deze percentages 56 en 88 in de experimentele respectievelijk de controlegroep zonder dat overigens sprake was van statistische significantie. De zekerheid ten aanzien van de effectgrootte is gering voor de uitkomstmaten 'UTBAS' en sociale fobie, en matig voor 'functioning'.³²

Of de aanwezigheid van psychische aandoeningen bij personen die stotteren bijdraagt aan het niet in stand kunnen houden van vloeiend spreken na behandeling, is onderzocht door Iverach et al (2009). Daartoe rekruteerden zij 64 volwassenen ($m:v=4:1$; gemiddelde leeftijd: 32 jaar) voor een studie waarin het effect van zelf-modellering op het handhaven van de baten van spraakmodificatie werd geëvalueerd. Gemiddelde percentage gestotterde letter-

³¹ stotterpercentage werd bepaald aan de hand van opnames van twee 10 minuten durende conversaties met administratieve medewerkers of studenten van de kliniek. Dit gebeurde door een logopedist ervaren in het meten van stotteren en onbekend met het doel van de studie.

³² Beoordeling met GRADE.

Risk of bias: matig (-1).

Indirectness: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen;

Imprecision: met -1 afgewaardeerd omdat grootte van het effect zeer onzeker is voor uitkomstmaten UTBAS en sociale fobie..

Inconsistency: n.v.t.

Publication bias: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen.

grepen was 8.3 bij aanvang van de behandeling. De CIDI-Auto-2.1 (Computerized Version of the Composite International Diagnostic Interview) – een gestandaardiseerd computer interview waarvan de betrouwbaarheid en validiteit voor wetenschappelijk onderzoek voldoende is gebleken – werd gebruikt voor het vaststellen van psychische problematiek. Daarnaast werd de IPDEQ (International Personality Disorder Examination Questionnaire gehanteerd om te screenen op negen persoonlijkheidsstoornissen (paranoïde, schizoïde, antisociaal, impulsief, borderline, histrionisch, obsessief-compulsief, angststoornis, afhankelijke persoonlijkheidsstoornis). De onderzoekers gingen voor verschillende variabelen (een persoonlijkheidsstoornis, een angststoornis, een stemmingsstoornis, 1-2 psychische stoornissen aanwezig, meer dan 3 psychische stoornissen aanwezig) *op drie momenten* (voor de behandeling, direct na de behandeling, en 6 maanden na de behandeling) na of er een verschil was in percentage gestotterde lettergrepen, zelf gerapporteerde stotterernst en zelf gerapporteerd vermijdingsgedrag.³³ Dit resulteert per uitkomstmaat in $5 * 3 = 15$ keer een statistische test uitvoeren, hetgeen de kans op toevalsbevindingen verhoogt; een merkwaardige analyse. Meer voor de hand zou hebben gelegen, gezien de vraagstelling van de studie, om te analyseren of bijvoorbeeld het verschil in percentage gestotterde lettergrepen *na 6 maanden follow-up ten opzichte van einde behandeling* voor degenen die geen persoonlijkheidsstoornis en degenen die wel een persoonlijkheidsstoornis hebben, hetzelfde is of niet. Hoe het ook zij, de onderzoekers vonden meestal geen statistisch significant verschil. Voor de uitkomstmaat percentage gestotterde lettergrepen na 6 maanden vinden zij wel een verband: personen met 1-2 psychische stoornissen stotteren meer in vergelijking met hen die geen psychische stoornis hebben. Voor de uitkomstmaat zelf gerapporteerde stotterernst was er voor geen van de variabelen een statistisch significant resultaat. Voor de uitkomstmaat zelf gerapporteerd vermijdingsgedrag waren er na 6 maanden twee statistisch significante resultaten: degenen met een angststoornis toonden meer vermijdingsgedrag naar eigen zeggen dan degenen zonder angststoornis, idem voor personen met meer dan drie psychische aandoeningen.³⁴

7.3.3 Studies naar effectiviteit van cognitieve en gedragsinterventies, toegepast in Nederland in de afgelopen jaren

In 2004 publiceerden Huinck en Peters de resultaten van een longitudinale (exploratieve) studie van drie stottertherapieën: het “Comprehensive stuttering programme (CSP)”, de “Doetinchemse methode (DM)”, en “individuele stottertherapie (IS)”. Volgens de onderzoekers ‘wordt in het CSP met name gewerkt aan beïnvloeding van het spraakgedrag via het aanleren van nieuwe spreektechnieken (gecontroleerde ademhaling, geleidelijke steminzet

³³ stotterpercentage werd bepaald door een onafhankelijke logopedist aan de hand van twee telefoongesprekken opgenomen op een recorder. Het eerste gesprek was een 10 minuten durend routinegesprek. Het tweede was een ‘surprise’ gesprek door een onderzoeksassistent.

³⁴ De mate van zekerheid ten aanzien van de effectgrootte is gering. De statistische uitvoering van de studie is ondermaats. Derhalve is voor risk of bias met -2 afgewaardeerd.

en vertraagde articulatie). Daarnaast wordt ook aandacht besteed emotionele en cognitieve aspecten van stotteren. In contrast hiermee staat de DM waarin men zich vooral richt op de belevingsaspecten van het stotteren en het aanleren van een meer ontspannen manier van spreken met adem-regulerende oefeningen. De DM besteedt dus meer tijd aan emoties en cognities terwijl de CSP meer focust op het veranderen van het spraakgedrag'. Beide therapieën worden in groepsverband aangeboden, waarbij de duur van de therapie vast omschreven is en een vast protocol wordt gehanteerd. IS is in tegenstelling tot voorgaande therapieën individueel gericht waarbij 'het therapieprogramma afhankelijk is van de aard van de individuele stotterproblematiek en derhalve het accent meer kan liggen op verandering van het spraakgedrag dan wel de beleving van het stotteren zonder dat de tijdsduur op voorhand vaststaat'.

Tabel 5 geeft enkele karakteristieken van de therapie en van de studiedeelnemers. Daarbij springen twee zaken in het oog. Het aantal deelnemers aan de verschillende therapieën is gering. Verder zijn er aanzienlijke verschillen tussen de studiedeelnemers naar gelang de therapie die werd gevolgd, hetgeen de uitkomsten van de studie van Huinck & Peters kan hebben beïnvloed. Om de effectiviteit van de therapieën te evalueren werden drie meetmomenten gekozen: direct na de therapie, na 1 jaar follow-up en na 2 jaar follow-up. Deze tweejarige follow-up meting is een sterk punt van deze studie. Voor zover valt na te gaan zijn gestandaardiseerde meetinstrumenten voor het meten van de uitkomstmaten (stotterpercentage en spreek snelheid; spraak kwaliteit; spraakmotoriek; met de spraak verbonden emotionele, sociale en cognitieve factoren) gebruikt. Uitgaande van de tweede follow-up meting is het percentage uitvallers voor CSP, DM en IS 3.8, 6.7 respectievelijk 48. Met name het grote percentage uitvallers in de IS-groep ondermijnt de betrouwbaarheid van de onderzoeksresultaten.

Tabel 5. Enkele karakteristieken van de therapie en van de studiedeelnemers volgens Huinck & Peters (2004)

	CSP	DM	IS
Aantal deelnemers onderzoek	26	15	25*
Aantal uren therapiecontact per persoon	25.2	28.6	20.8
-Percentage tijd besteed aan spraakgedrag	73.3	36.1	32.9
-Percentage tijd besteed aan emotioneel / cognitieve aspecten	26.7	64.9	67.1
Percentuele samenstelling naar opleidingsniveau:	32	80	60
-lager en middelbaar beroepsonderwijs			
-HAVO/VWO	12	7	0
-HBO/WO	56	13	40
* 10 deelnemers vielen in de therapiefase uit.			

Tabel 6. Diverse uitkomsten van drie verschillende stottertherapieën volgens Huinck & Peters (2004)

	CSP	DM	IS
--	-----	----	----

	CSP	DM	IS
Baseline stotterpercentage (1)	13.2	8.6	10.2
stotterpercentage na 1 jaar (2)	8.0	6.2	6.1
stotterpercentage na 2 jaar (3)	6.9	6.1	6.1
<i>Percentuele verbetering stotterpercentage (3 t.o.v. 1)*</i>	91	41	67
Baseline SPM (1)	126	138.2	135.0
SPM na 1 jaar (2)	147.8	153.3	158.6
SPM na 2 jaar (3)	154.0	150.0	162.0
<i>Percentuele verbetering SPM (3 t.o.v. 1)*</i>	18	8	17
Baseline zelfevaluatie (1)	4.79	5.18	4.88
Zelfevaluatie na 1 jaar (2)	6.39	7.18	6.50
Zelfevaluatie na 1 jaar (3)	6.51	7.18	5.92
<i>Percentuele verbetering zelfevaluatie (3 t.o.v. 1)*</i>	26	28	18
Spraa kmototoriek –sequentie /p t k/ DDK-taak			
Baseline	13.19	14.92	13.58
Na 1 jaar	16.75	16.79	15.00
Na 2 jaar	15.77	16.46	15.71
<i>Percentuele verbetering (3 t.o.v. 1)*</i>	16	9	14
* Berekend door HdB			

Tabel 6 geeft uitkomsten weer van de verschillende stottertherapieën. Vanwege de geringe aantallen studiedeelnemers is voorzichtigheid geboden bij de interpretatie. Nochtans lijkt het erop dat het CSP van de drie therapieën het meest effectief is. De “individuele stottertherapie” lijkt voor de meeste uitkomstmaten effectiever dan de “Doetinchemse methode” (tabel 6). Een belangrijke uitkomstmaat was de zelfbeleving, een term waarmee Huinck en Peters (2004) de met de spraak verbonden sociale, emotionele en cognitieve factoren aanduiden. Zelfbeleving werd nagegaan met behulp van de volgende instrumenten:

- Perceptions of stuttering inventory (struggle, avoidance, expectancy)
- Spreeksituatielijst van Brutten (emotionele reactie, gestoorde spraak)
- Communicatievragenlijst van Erikson (S44, S24)
- Vragenlijst stotterernst van Lanyon
- Inventarisatie vragenlijst omgaan met anderen -Spanning (kritiek geven, aandacht vragen, waardering uitspreken, gespreksinitiatief nemen, jezelf waarderen en ‘totaal’)
- Inventarisatie vragenlijst omgaan met anderen -Frequentie (kritiek geven, aandacht vragen, waardering uitspreken, gespreksinitiatief nemen, jezelf waarderen en ‘totaal’)
- Prestatie motivatie test (prestatie-motief, negatieve faalangst, positieve faalangst)

Huinck & Peters (2004) hebben de uitkomsten voor zelfbeleving weergegeven als *absolute* verschillen tussen voormeting en nameting (inclusief follow-up). Aangezien de voormetingen per stottertherapie verschillende uitkomsten te zien kunnen (en zullen) geven, was het beter geweest als *percentages verbetering* waren weergegeven om de relatieve effectiviteit van de stottertherapieën te bepalen. Gaan we af op de mate waarin het verschil tussen uitkomst bij het tweede follow-up moment en voormeting statistisch significant is, dan zijn er van de 23 gemeten verschillen, 16, 9 en 7 statistisch significant voor CSP, DM respectievelijk IS. Ook hier lijkt CSP wat effectiviteit betreft in het voordeel ten opzichte van beide andere stottertherapieën. Hierbij dient wel te worden aangetekend dat de CSP-groep de meeste deelnemers had, waardoor statistische significantie *sowieso* gemakkelijk te bereiken is.

Huinck & Peters (2004) hebben voor de uitkomstmaat spraakkwaliteit (fonatie, articulatie, toonhoogte, luidheid en natuurlijkheid van spreken) de resultaten grafisch weergegeven. Door de gebruikte schaalgrootte is het onmogelijk de resultaten grafisch te interpoleren. De mate waarin van statistische significantie sprake is weergegeven in tabel 7. CSP lijkt in dit opzicht minder effectief dan de beide andere therapieën.

Tabel 7. Effect van drie stottertherapieën op spraakkwaliteit volgens Huinck & Peters (2004)

Statistische significantie van verschil tussen voormeting en laatste follow-upmeting naar gelang de stottertherapie			
	CSP	DM	IS
Voice Dynamic factor	n.s.*	P=0.001	P=0.001
Articulation quality factor	P<0.05	n.s.	n.s.
Speech power factor	n.s.	P=0.001	P=0.001
*: niet significant			

De zekerheid ten aanzien van de effectgrootte zoals onderzocht in de studie van Huinck & Peters (2004) is gering, met name vanwege de kleine aantallen studiedeelnemers waardoor de uitkomsten weinig nauwkeurig zijn, wat het lastig maakt de uitkomsten te beoordelen in termen van wel/niet klinisch relevant. Een tweede, reeds eerder genoemde beperking is het hoge percentage uitvallers in de IS-groep.³⁵

In haar proefschrift gaat Huinck (2006) in op de vraag of de mate van stotterernst en de ernst van negatieve emoties en cognities geassocieerd is met de diverse uitkomsten. Haar conclusies zijn dat tussen stotterernst en ernst van negatieve emoties en cognities geen relatie bestaat en dat degenen die het meest stotterden ook het meeste baat van de therapie hadden, maar ook de meeste terugval toonden in een tijdsbestek van twee jaar. Voorts

³⁵ *Risk of bias*: matig (-1).

Indirectness: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen;

Imprecision: met -1 afgewaardeerd omdat grootte van het effect zeer onzeker is.

Inconsistency: n.v.t.

Publication bias: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen.

meent zij dat de aanvankelijke verschillen tussen de subgroepen met milde en ernstige negatieve emoties na behandeling verdwenen, 'voornamelijk als gevolg van sterke afname van negatieve emoties en cognities in de subgroep met sterk negatieve emoties cognities'. Huinck (2006) voerde deze analyse alleen uit voor de CSP-groep, zodat we niet weten of de verkregen resultaten ook gelden voor de beide andere therapieën.

Conclusie

Zekerheid effect-grootte: gering voor alle relevante uitkomstmaten	Diverse stottertherapieën, variërend van ademtherapie, 'response contingent reinforcement' via 'fluency shaping', Comprehensive stuttering programme" (CSP), de 'Doetinchemse methode (DM)', tot de 'individuele stottertherapie (IS)' 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 controle groep naar voren. Ook is er geen follow-up gedaan. Er is onvoldoende bewijs om de Alexander techniek toe te passen in het kader van stottertherapie. Toevoegen van video zelfmodellering 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 en van circa 40% in zelfgerapporteerde stotterernst. Zij zijn even effectief. Maar het Camperdown programma zelf is niet in een RCT met andere stottertherapieën vergeleken.
--	---

	De zekerheid over de effectgrootte is gering voor de uitkomstmaat stotterfrequentie. Dit kan deels worden teruggevoerd op het feit dat het vaak gaat om studies met weinig deelnemers, waardoor weinig nauwkeurige resultaten worden verkregen. Ook de grote variatie in typen therapieën en onderzoeksopzetten van studies speelt hierbij een rol. De afzonderlijke resultaten van studies zijn daardoor moeilijk te combineren, zodat geen nauwkeuriger schattingen van het effect kunnen worden verkregen. 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. Er is nog weinig onderzoek gedaan naar variabelen (co-morbiditeit, sociaaleconomische status, opleidingsniveau etc.) die de effectiviteit van interventies beïnvloeden, waardoor “patient-treatment matching” nog toekomstmuziek is. Onderzoek van stottertherapieën die in Nederland worden gegeven en zoals geëvalueerd door Huinck & Peters (2004) laat geen stellige conclusies over de <i>relatieve</i> effectiviteit toe, al lijkt het “Comprehensive stuttering programme” effectiever dan de “Doetinchemse methode” en “individuele stottertherapie” in termen van vermindering van de stotterfrequentie en betere zelfbeleving, maar juist minder effectief in termen van verbetering van de spraakkwaliteit (fonatie, articulatie, toonhoogte, luidheid en natuurlijkheid van spreken). Over het geheel lijkt de “individuele stottertherapie” effectiever dan de “Doetinchemse methode”. Geen enkele behandeling kan garanderen dat op de langere termijn een normaal vloeiende spraak kan worden bereikt.
--	---

Samenvatting

Met name 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 woorden of 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. Hierbij moet wel worden opgemerkt dat de effectgroot-

tes van de afzonderlijke studies die in de meta-analyse zijn gecombineerd, nogal uiteenlopen: van 0 tot 1.87. Volgens Herder et al (2006) lijken er op grond van vier geïnccludeerde studies geen (grote) verschillen in effectgrootte tussen verschillende stottertherapieën te bestaan.

Uit het uitgebreide literatuuroverzicht van Bothe et al (2006) komen therapieën waarin wordt geleerd ‘uitgerekt’ te spreken, als effectieve therapie naar voren. Bothe et al (2006) rapporteren geen effectgroottes, maar of een therapie er al dan niet in slaagt het percentage gestotterde lettergrepen of woorden te reduceren tot onder de 5% , een overigens arbitraire drempelwaarde. Beperken we ons tot die studies uit Bothe et al (2006) waarin follow-up gegevens worden vermeld en waarin van een vergelijkende onderzoeksopzet sprake was, dan varieert de reductie in stotterfrequentie van 48 tot 81% in therapieën gebaseerd op het leren van ‘uitgerekt’ spreken.

In de review van Woodman & Moore (2012) is één studie opgenomen waarin de effectiviteit van de Alexander techniek voor stotterfrequentie, fysieke en psychosociale uitkomsten wordt geëvalueerd. Deze techniek wordt door de reviewers geduid als een alternatieve behandelwijze. De uiteenlopende resultaten van deze studie laten geen definitieve conclusie toe. In één studie wordt een telehealth versie van het Camperdown programma geëvalueerd. Dit is een programma voor herstructurering van de spraak met aandacht voor ademen, fonatie en articuleren. Uitkomst van deze studie is dat de telehealth versie mogelijk niet minder effectief is dan de face-to-face versie van dit programma (Carey et al, 2010). 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 controle groep naar voren.

In 2004 publiceerden Huinck en Peters de resultaten van een longitudinale (exploratieve) studie van drie stottertherapieën die door Nederlandse stottertherapeuten worden gegeven: het “Comprehensive stuttering programme (CSP)”, de “Doetinchemse methode (DM)” en “individuele stottertherapie (IS)”. Volgens de onderzoekers ‘wordt in het CSP met name gewerkt aan beïnvloeding van het spraakgedrag via het aanleren van nieuwe spreektechnieken (gecontroleerde ademhaling, geleidelijke steminzet en vertraagde articulatie). Daar-

naast wordt ook aandacht besteed aan emotionele en cognitieve aspecten van stotteren. In contrast hiermee staat de DM waarin men zich vooral richt op de belevingsaspecten van het stotteren en het aanleren van een meer ontspannen manier van spreken met adem-regulerende oefeningen. De DM besteedt dus meer tijd aan emoties en cognities terwijl de CSP meer focust op het veranderen van het spraakgedrag'. Beide therapieën worden in groepsverband aangeboden, waarbij de duur van de therapie vast omschreven is en een vast protocol wordt gehanteerd. IS is in tegenstelling tot voorgaande therapieën individueel gericht waarbij 'het therapieprogramma afhankelijk is van de aard van de individuele stotter-problematiek en derhalve het accent meer kan liggen op verandering van het spraakgedrag dan wel de beleving van het stotteren zonder dat de tijdsduur op voorhand vaststaat'

Vanwege de geringe aantallen deelnemers aan het onderzoek is grote voorzichtigheid geboden bij de interpretatie van de uitkomsten van het onderzoek van Huinck en Peters (2004). Bovendien betreft het ook geen direct-vergelijkend onderzoek. Nochtans lijkt het erop dat het CSP het meest effectief is in termen van reductie van de stotterfrequentie en het verbeteren van emotionele, sociale en cognitieve factoren, gemeten met gestandaardiseerde, zelf ingevulde vragenlijsten, gevolgd door de "Individuele stottertherapie" en daarna de "Doetinchemse methode (DM)". CSP lijkt echter minder effectief dan de andere twee methoden in termen van spraakqualiteit (fonatie, articulatie, toonhoogte, luidheid en natuurlijkheid van spreken). Voor de andere uitkomstmaten (spreeksnelheid, tevredenheid over het eigen spreken en spraakmotoriek) lijken er geen relevante verschillen te zijn.

Het literatuuronderzoek heeft laten zien dat er voor de uitkomsten vermijdingsgedrag (situatievermijding en woordvermijding), natuurlijkheid van spreken, participatie of kwaliteit van leven, onvoldoende studies zijn om te bepalen hoe effectief de verschillende stottertherapieën zijn. In hoeverre effecten van verschillende stottertherapieën op stottergedrag, participatie en kwaliteit van leven op langere termijn (tenminste 2 jaar) behouden blijven is op basis van de gevonden studies niet of nauwelijks te kwantificeren. In een deel van de studies waarin follow-up gegevens tot 6 of 12 maanden na behandeling worden gerapporteerd blijkt na behandeling wel enige terugval op te treden.

Informatie met betrekking tot de vraag in hoeverre leeftijd, geslacht en co-morbiditeit de effectiviteit beïnvloeden ontbreekt nagenoeg. Het blijft bij een aanwijzing dat de gelijktijdige aanwezigheid van meerdere psychische stoornissen (angststoornissen, persoonlijkheidsstoornissen, stemmingsstoornissen) misschien de effectiviteit van stottertherapie beperkt voor één of meer uitkomstmaten.

De zekerheid ten aanzien van de effectgrootte van de interventies is voor de meeste uitkomstmaten gering. Dit kan voor een groot deel worden teruggevoerd op het feit dat het vaak gaat om studies met weinig deelnemers, waardoor weinig nauwkeurige resultaten

worden verkregen. Er is ook grote variatie in typen therapieën en onderzoekopzetten van studies, waardoor de afzonderlijke resultaten van studies moeilijk te combineren zijn.

7.4 Van bewijs naar aanbeveling

7.4.1 Zekerheid ten aanzien van de effectgrootte

In het algemeen kan worden geconcludeerd, dat de effectgrootte voor de meeste uitkomstmaten van de hierboven besproken stottertherapieën onzeker is. Oorzaak: het aantal studies (RCT's) is gering en de studies zijn qua omvang klein. Vanuit dit perspectief is er geen reden om aan één van de besproken stottertherapieën de voorkeur te geven.

7.4.2 Balans van gewenste en ongewenste effecten

Binnen de literatuurstudie bleek de stotterfrequentie (stotterpercentage) de meest gerapporteerde uitkomstmaat. Andere uitkomstmaten dan stotterfrequentie zoals vermijdingsgedrag (situatievermijding en woordvermijding), natuurlijkheid van het spreken, participatie of kwaliteit van leven lijken daardoor onvoldoende belicht.

In de dagelijkse praktijk volgen volwassenen en adolescenten die stotteren verschillende vormen van hulp bij hun stotteren, zoals bijvoorbeeld paramedische zorg of niet-reguliere, commerciële stotterprogramma's. Paramedische zorg wordt door een logopedist of logopedist-stottertherapeut verleend. Deze 'op maat' gegeven zorg wordt verleend op basis van een in samenspraak tussen de logopedist/logopedist-stottertherapeut en de PDS ('shared decision making') opgesteld behandelplan en is passend bij de hulpvraag en de problematiek. De logopedist of logopedist-stottertherapeut voldoet aan eisen van het Kwaliteitsregister Paramedici. Niet-reguliere, commerciële stotterprogramma's zijn vaak gebaseerd op een specifieke visie of aanname over stotterend spreken, vaak (maar niet per se) op basis van eigen ervaringen met en persoonlijke oplossingen voor stotteren. Het aangeboden programma is in grote lijnen hetzelfde voor alle deelnemers. Leiders of coaches van niet-reguliere stotterprogramma's hoeven niet te voldoen aan kwaliteitseisen.

Het gewenste effect van zorg geleverd door de logopedist is dat de PDS therapie op maat verkrijgt. Ongewenst effect kan zijn dat de logopedist te beperkt geschoold is wat betreft behandel mogelijkheden, zijn eigen beperkingen niet erkent met als gevolg dat de PDS te lang tijd en energie stopt in die aanpak en te laat wordt doorverwezen.

De meerwaarde van hulp aangeboden door ervaringsdeskundigen betreft het inlevingsgevoel als (ex)lotgenoot. Ongewenst effect kan zijn dat wat voor de ene PDS heeft gewerkt niet voor een ander hoeft te werken. Of dat de ervaringsdeskundige te beperkt geschoold is op

het vlak van diagnostiek en behandeling en zijn eigen beperkingen niet erkent. Dit kan tot gevolg hebben dat de PDS te laat wordt doorverwezen.

Therapie uitsluitend gericht op spraakverandering zorgt niet voor een afname van angst, vermijdingsgedrag en zorgt niet voor een toename van het psychosociale functioneren. Dit gebeurt ook niet in de periode na de therapie (Menzies 2008; Yaruss, Quesal, Reeves, et al 2002). Na een dergelijke aanpak lijkt angst en zorg vaak te blijven bestaan (Cream, Onslow, Packman, & Llewellyn 2003; Plexico et al 2009). Dit is een ongewenst effect.

Ook in de klinische setting komt naar voren dat er ongewenste effecten op kunnen treden als de therapie niet of niet goed wordt afgestemd op de PDS. De PDS heeft in dat geval vaak moeite het geleerde in de praktijk te (blijven) brengen. Ook komt terugval regelmatig voor (Manning 2010, pag 475-476, 530, 575-588).

Dit ligt anders voor cognitieve gedragstherapie want deze draagt bij aan het verminderen van angst, vermijdingsgedrag en problematische gedachten en opvattingen over stotteren (Menzies 2008). Cognitieve gedragstherapie zorgt ervoor dat de kwaliteit van leven wordt verhoogd. Dit is een gewenste uitkomst. De PDS ziet na behandeling stotteren niet (meer) als probleem, zodat hij geen sociaal-emotionele handicap (meer) heeft. De PDS kan naar behoren participeren in de maatschappij en gaat vanwege zijn stotteren geen activiteiten uit de weg. Ook vanuit de praktijk, de klinische setting, is dit de ervaring.

Het is een gewenst effect dat op maat gemaakte behandeldoelen die passen bij de problematiek en de hulpvraag van de specifieke PDS worden behaald.

Zowel PDS als logopedist-stottertherapeuten die bekend zijn met deelname aan groepstherapie erkennen dat de activiteiten en mogelijkheden van groepstherapie een passende aanvulling zijn op individuele behandeling. Er is nog niet veel onderzoek gedaan naar de effecten van groepstherapie. In een aantal studies wordt echter wel aangegeven dat groepstherapie (Stewart & Richardson 2003; Hearne et al 2008; Beilby et al 2013) en zelfhulpgroepen (Boyle 2013) positief bijdragen aan de resultaten van behandeling. Het onderzoek van Huinck en Peters (2004) wijst op een zekere mate van relatieve effectiviteit van groepstherapie. De groepssetting versterkt het leer- en groei effect zowel wat betreft bevorderen van- als van onderhouden van geleerde vaardigheden en inzichten (Manning 2010, blz 411). Ook Turnbull meldt de kracht van deelname aan groepstherapie: "Het is onze ervaring dat veel cliënten die deelnemen aan groepstherapie meer vooruitgang boeken en betere resultaten op het gebied van gedragsbehoud bereiken dan cliënten in een één-op-één setting." (Turnbull & Stewart vertaald 2005, pag 136) (Stewart 1996). Jongeren blijken voorkeur te hebben voor groepstherapie wanneer zij hulp zoeken (Hearne 2008) en voor jonge adolescenten brengt een combinatie van individuele en groepstherapie een significant effect (Fry 2009).

Uit het wetenschappelijk onderzoek komt naar voren dat gebruik van apparatuur gebaseerd op Delayed Auditory Feedback (DAF) niet zorgt voor een significant verschil in stotterpercen-

tage. In de praktijk blijkt dat een DAF bij een deel van PDS een tijdelijk effect heeft. Dit effect dooft doorgaans echter uit. Voor sommige PDS kan een DAF een toegevoegde waarde hebben. Het is wel belangrijk dat de gebruiker beseft dat, omdat het effect tijdelijk is, de DAF slecht sporadisch ingezet kan worden. Het heeft de voorkeur dit in samenspraak met de logopedist-stottertherapeut te doen.

Er lijken vooralsnog geen aanwijzingen dat het toepassen van de Alexander techniek of van video zelf-modellering of self-imposed time-out een toegevoegde waarde heeft.

7.4.3 Waarden en voorkeuren

Aangezien geen enkele manier van hulp bij stotteren op grond van de in wetenschappelijke literatuur gepubliceerde RCTs *bewezen* effectiever is dan een andere moet er des te meer recht gedaan worden aan de wensen en behoeften van de persoon die stottert (PDS). Deze vormen de basis voor het behandelplan dat wordt opgesteld op basis van informed consent.

De werkgroep is van mening dat het stotterprobleem breder is dan het percentage gestotterde lettergrepen, zoals dit vaak naar voren komt in veel wetenschappelijk onderzoek. Gezien de veelheid aan variabelen die het lange-termijn effect van hulp beïnvloeden en de unieke combinatie van variabelen per PDS is de voorkeursbenadering een multidimensionele aanpak. Veel gerenommeerde auteurs die over stottertherapie schrijven vinden een multidimensionale aanpak nuttig in de behandeling voor PDS (o.a. Guitar 2014; Manning 2010 (p588); Yaruss 2010). Dit wordt ondersteund door de American Speech-Language-Hearing Association (ASHA 2007). Niet alleen het aanpakken van het kernstottergedrag (het al dan niet hoorbare stotteren), maar ook de kwaliteit van leven behoeft aandacht. Craig, Blumgart & Tran (2009) laten zien dat de kwaliteit van leven bij PDS lager is dan bij een controlegroep van niet stotterende personen. Door het toepassen van het ICF-model kan het stotterprobleem multidimensioneel worden aangepakt; alle elementen vormen samen het stotterprobleem dat behandeld dient te worden.³⁶

In 2009 is de ICF-logopedie ontwikkeld. De Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie (NVLF, www.nvlf.nl) heeft de beroepsgroep getraind in het toepassen van de ICF in de behandeling. De NVLF hanteert het ICF- gedachtegoed bij het ontwikkelen van richtlijnen en andere kwaliteitsinstrumenten zoals de logopedische standaarden, het beroepsprofiel en kwaliteitstoetsen.

De werkgroep is van mening dat de logopedist of logopedist-stottertherapeut alle ICF-elementen samen met de PDS in kaart dient te brengen. Vervolgens dient de PDS grondig geïnformeerd te worden over de verschillende behandelmogelijkheden, met betrekking tot

36 De World Health Organization (WHO) heeft een internationaal classificatiesysteem ontwikkeld om het functioneren van mensen te duiden. Dit is de 'International Classification of Functioning, Disability and Health (ICF)'.

alle elementen die relevant zijn. Voor- en nadelen moeten duidelijk zijn en gericht op de specifieke omstandigheden van de PDS. Uiteindelijk kunnen therapeut en PDS op basis van “shared decision making” afspreken welk pad gevolgd gaat worden. Dit dient verantwoord te worden door middel van een behandelplan met SMART-doelen. Door het koppelen van deze doelen aan de ICF-elementen ontstaat de gewenste mogelijkheid om het hele stotterprobleem te behandelen en de behandeling te evalueren.

De werkgroep is van mening dat een logopedist en/of logopedist-stottertherapeut het gedachtengoed van de ICF en NVLF kwaliteitsinstrumenten toepast, en waar mogelijk evidence based practice handelen implementeert in zijn dagelijks werk.

a. Personen die stotteren

Omdat grote of matige zekerheid ten aanzien van de effectgrootte van diverse stottertherapieën ontbreekt voor de meeste uitkomstmaten, kunnen voorkeuren van de PDS een belangrijke rol spelen.

Een therapie met goede uitkomst omvat meer dan een afname van stotterfrequentie en/of stotterintensiteit. Een therapie kan succesvol genoemd worden als onder andere het stotteren is afgenomen in frequentie en/of intensiteit, de PDS tevreden is met zijn spreken en/of de PDS vrijuit durft te stotteren. Er is geen makkelijke “genezing” voor stotteren. Dit is de reden dat er voor elke PDS een op maat gemaakte behandeling moet zijn. Een therapie zal veel moeite kosten van de PDS en er kan langere tijd overheen gaan. Het kan ook voor komen dat de PDS therapie stopt en later hervat. De logopedist-stottertherapeut sluit daarbij aan en helpt de juiste weg te vinden, de persoon die stottert moet het echter zelf doen. De logopedist-stottertherapeut zal over een breed scala van vaardigheden moeten beschikken om de behandeling aan te kunnen passen aan de behoefte van de PDS. Tevens is het wenselijk als de logopedist-stottertherapeut naast individuele therapie ook groepstherapie in kan zetten (al dan niet met behulp van een andere logopedist-stottertherapeut), zodat het maximale aan hulp beschikbaar is voor de PDS. In de praktijk blijkt dat veel mensen die stotteren het contact met anderen die stotteren als waardevol en leerzaam ervaren. Dit komt dit naar voren uit de focusgroep, het is de ervaring van Demosthenes leden en het onderzoek van Boyle (2013) onderstreept het.

Een therapie moet meer omvatten dan het aanleren van een spraaktechniek en/of andere lichaamsgerichte oefeningen. Aan de perceptie van en de gevoelens bij het stotteren zal vaak ook gewerkt moeten worden. Dit is de belangrijkste uitkomst van de focusgroep wat betreft de inhoud van de therapie en lijkt ook uit onderzoek onder PDS naar voren te komen (Yaruss, Quesal & Murphy 2002). Doorgaans is het alleen mogelijk goed met stotteren om te gaan in het dagelijks leven als de stotterende persoon rationeel erover kan denken en praten. Het omgaan met stotteren in het dagelijks leven (en niet alleen in de therapiesetting) moet een essentieel onderdeel van de therapie zijn.

Tevredenheid over het spreken kan doorgaans alleen behaald worden doordat de PDS zelf de verantwoording neemt voor zijn stotteren, naar buiten treedt en zich niet laat beperken in zijn leven.

b. Logopedisten - Stottertherapeuten

Logopedisten in Nederland zijn opgeleid om patiënten met vloeiendheidsstoornissen te behandelen. Niet alle logopedisten echter voelen zich bekwaam genoeg op het gebied van het begeleiden van stotteren. Logopedisten-stottertherapeuten die lid zijn van de Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie (NVST) hebben zich gespecialiseerd in stotteren, zij werken waar mogelijk evidence based en hebben doorgaans meer kennis, vaardigheden en meer ervaring op het gebied van het behandelen van vloeiendheidsstoornissen dan een allround logopedist. Zij zijn zowel geschoold in het werken aan spreektechnische aspecten als in het werken aan psychische, pedagogische en psychosociale problematiek, welke regelmatig met het stotteren van een patiënt verbonden is. Zij volgen de internationale tendens van geïntegreerde aanpak.

Ook worden zij geacht als onderdeel van hun specialisatie zich te scholen in het geven van groepstherapie als aanvulling op individuele therapie.

In Nederland worden op dit moment verschillende vormen van groepstherapie gegeven door logopedist-stottertherapeuten. Er bestaan vormen van intensieve groepstherapie (Bezemer et al 2006; Weijts et al 2012). En daarnaast worden in de klinische praktijk ook andere vormen van groepstherapie gegeven, zoals oefengroepen, oudergroepen, kindergroepen.

Er lijkt geen aanwijzing om de stottertherapieën zoals in Nederland door logopedist-stottertherapeuten gegeven worden aan te passen. Er lijkt tevens geen noodzaak om zich in een andere of één specifieke vorm van stottertherapie te bekwamen. Dit betekent dat bij de therapiekeuze sprake moet zijn van 'shared decision making' en dat de persoon die stottert zo nodig doorverwezen wordt. Dit betekent ook dat de praktiserende logopedist-stottertherapeut zich nadrukkelijk ervan bewust is dat er bij alle klinische procedures drie overstijgende factoren zijn die bijdragen aan succesvolle therapie-uitkomst: de 'working alliance' van de PDS en de therapeut, de mate van flexibiliteit waarin de therapeut een behandelprotocol aanhangt en uitvoert en de kwaliteit (de mate van expertise) van de clinicus (goed therapeutschap) (Ahn & Wampold (2001) in Manning (2010, p 310)).

Training van stottertherapeuten in cognitieve gedragstherapie (CGT) is nuttig gebleken. Hoewel het bewijs hiervoor niet sterk is kan CGT met name voor personen die stotteren én die angstgevoelens en vermijdingsgedrag willen verminderen, van belang zijn. Recent onderzoek meldt dat Acceptance and Commitment Therapy aangeboden in groepsverband een nieuwe vorm van interventie kan zijn (Beilby, 2012). Ook de training van logopedist-

stottertherapeuten op gebied van de groepssetting als aanvulling op de één-op-één setting is wenselijk omdat zowel uit (beginnend) onderzoek als de praktijk blijkt dat het een toegevoegde waarde heeft.

De specialisatie 'stottertherapeut' heeft binnen de logopedie in Nederland een duidelijke plaats als vervolg op de initiële opleiding logopedie en draagt nadrukkelijk bij aan de scholing van de 'expert' logopedist-stottertherapeut.

7.4.4 Kosten van een therapie

Er zijn geen exacte cijfers bekend over de kosten van het behandelen van stotteren, mede door de verscheidenheid van de toegepast therapeutische technieken. In hoeverre het toepassen van de hierna volgende aanbevelingen effect zou hebben op de met stottertherapie gepaard gaande kosten is moeilijk te becijferen, te meer omdat er geen duidelijke voorkeuren ten aanzien van bepaalde stottertherapieën of –technieken kan worden aangegeven.

Aan het betrekken van de kosten bij het opstellen van de aanbevelingen heeft de werkgroep dan ook geen groot gewicht kunnen toekennen. Nader onderzoek naar de kosteneffectiviteit van stottertherapie is wenselijk gezien de ontwikkelingen in de gezondheidszorg.

Aanbevelingen

13. Behandeling van stotteren voor adolescenten en volwassenen dient individueel gericht te zijn. Dit kan in een individuele en/of groepssetting plaatsvinden. De behandeling is gebaseerd op een in samenspraak tussen de logopedist/logopedist-stottertherapeut en de persoon die stottert ('shared decision making') opgesteld behandelplan dat alle ICF-elementen omvat. De wensen en behoeften van de persoon die stottert zijn de basis van dat behandelplan.
14. Afhankelijk van wat de persoon die stottert en de logopedist/logopedist-stottertherapeut overeengekomen zijn is de behandeling gericht op de psychosociale aspecten ((spreek-)angst en vermijdingsgedrag), op verbaal-motorische aspecten of op beide. Bij de behandeling van de psychosociale aspecten wordt cognitieve gedragstherapie aanbevolen.
15. Overige elementen van stottertherapie dienen te zijn: *Bevorderen van transfer*. Het is essentieel dat de PDS de geleerde vaardigheden en inzichten in het dagelijks leven toepast. *Bevorderen van zelfmanagement en onderhoud*. De PDS is in staat het stotteren en het daarmee samenhangende gedrag te evalueren en dit zo nodig bij te sturen.
16. In algemene zin wordt het gebruik van op AAF gebaseerde apparaten afgeraden. Echter, in specifieke situaties kan apparatuur bij een deel van de personen die stotteren voor een verlaging van het stotterpercentage zorgen. Men dient er rekening mee te houden dat het effect doorgaans uitdooft.

Rationale voor de aanbevelingen

- Diverse stottertherapieën hebben direct na behandeling positieve effecten op de stotterfrequentie die echter in grootte uiteenlopen. Zes maanden na de therapie rapporteren sommige studies behoud van de positieve effecten en andere studies (enige) terugval. De zekerheid over de effectgrootte is gering voor de uitkomstmaat stotterfrequentie, door beperkingen in de studie-opzet en aantal deelnemers. Andere uitkomstmaten dan stotterfrequentie zoals vermijdingsgedrag (situatievermijding en woordvermijding), natuurlijkheid van het spreken, participatie of kwaliteit van leven zijn onvoldoende onderzocht.
- De wetenschappelijke literatuur levert geen sterk bewijs dat de ene stottertherapie (veel) effectiever is dan een andere stottertherapie.
- Het gezamenlijk bepalen van de keuze voor een specifieke stottertherapie op geleide van de wensen en behoeften van de persoon die stottert is dan ook gepast.
- Aan de kosten van stottertherapie heeft de werkgroep bij het opstellen van deze aanbeveling geen groot gewicht kunnen toekennen, onder meer vanwege het ontbreken van informatie over de huidige kosten.
- De aanbeveling voor therapie in een groepssetting berust op de ervaring van werkgroepleden en op de ervaringen van personen die stotteren, zoals verwoord tijdens een in het kader van deze richtlijn georganiseerde focusgroep. Therapie in een groepssetting kan de motivatie voor therapie versterken en een aanvulling zijn op lotgenotencontact.

Literatuur

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

9. Carey, Brenda, Sue O'Brian, Mark Onslow, Susan Block, Mark Jones & Ann Packman (2010). Randomized controlled non-inferiority trial of a telehealth treatment for chronic stuttering: the Camperdown Program. *International Journal of Language & Communication Disorders.*, vol. 45, no. 1, 108–120.
10. Craig A, Blumgart E, Tran Y. The impact of stuttering on the quality of life in adults who stutter. *J Fluency Disord.* 2009 Jun;34(2):61-71.
11. Cream A, O'Brian S, Jones M, Block S, Harrison E, Lincoln M, Hewat S, Packman A, Menzies R, Onslow M (2010). Randomized Controlled Trial of Video Self-Modeling Following Speech Restructuring Treatment for Stuttering. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, Vol. 53, 887–897 .
12. Fry JP (2009). The effect of an intensive group therapy program for young adults who stutter: A single subject study. [References]. *International Journal of Speech-Language Pathology* 11[1], 12-19.
13. Hearne A, Packman A, Onslow M, Quine S et al (2008). Stuttering and its treatment in adolescence: the perceptions of people who stutter. *Journal of Fluency Disorders* 33[2], 81-98.
14. Guitar, B. (2013). *Stuttering: an integrated approach to its nature and treatment*. 4th Edition. Baltimore, MD; Lippincott Williams & Wilkins.
15. Herder, Carl, Courtney Howard, Chad Nye, Martine Vanryckeghem Effectiveness of Behavioral Stuttering Treatment: A Systematic Review and Meta-Analysis (2006). *Contemporary issues in communication science and disorders*, Volume 33, 61–73
16. Hewat S, Onslow M, Packman A, O'Brian S. A phase II clinical trial of self-imposed time-out treatment for stuttering in adults and adolescents. *Disabil Rehabil.* 2006 Jan 15;28(1):33-42.
17. Huinck, W.J., H.F.M. Peters (2004). *Efficacy research in stuttering therapy. A longitudinal observation of the effects of three treatment programme*. (Nijmegen: Nijmegen University Press).
18. Huinck, W.J. (2006). *Stuttering: Studies of therapy outcome and speech motor control* (z.p.).
19. Ingham, R. J., & Andrews, G. (1973). An analysis of a token economy in stuttering therapy. *Journal of Applied Behavior Analysis*, 6, 219–229.
20. Iverach L, Jones M, O'Brian S, Block S, Lincoln M, Harrison E, Hewat S, Cream A, Menzies RG, Packman A, Onslow M. The relationship between mental health disorders and treatment outcomes among adults who stutter. *J Fluency Disord.* 2009 Mar;34(1):29-43.
21. James, J. E., Ricciardelli, L. A., Rogers, P., & Hunter, C. E. (1989). A preliminary analysis of the ameliorative effects of time-out from speaking on stuttering. *Journal of Speech and Hearing Research*, 32, 604–610.
22. Ladouceur, R., & Saint-Laurent, L. (1986). A multidimensional behavioral treatment and evaluation package. *Journal of Fluency Disorders*, 11(2), 93–103.
23. Lincoln M, Packman A, Onslow M, Jones M. An experimental investigation of the effect of altered auditory feedback on the conversational speech of adults who stutter. *J Speech Lang Hear Res.* 2010 Oct;53(5):1122-31.
24. Manning, W.H., *Clinical Decision Making in Fluency Disorders*, Third Edition, (2010)
25. Menzies RG, O'Brian S, Onslow M, Packman A, St Clare T, Block S. An experimental clinical trial of a cognitive-behavior therapy package for chronic stuttering. *J Speech Lang Hear Res.* 2008 Dec;51(6):1451-64.
26. Miltenberger, R. G., Wagaman, J. R., & Arndorfer, R. E. (1996). Simplified treatment and long term follow-up for stuttering in adults: A study of two cases. *Journal of Behavior Therapy and Experimental Psychiatry*, 27, 181–188.
27. Nippold MA. Stuttering in school-age children: a call for treatment research. *Lang Speech Hear Serv Sch.* 2011 Apr;42(2):99-101.
28. O'Brian S, Onslow M, Cream A, Packman A. The Camperdown Program: outcomes of a new prolonged-speech treatment model. *J Speech Lang Hear Res.* 2003 Aug;46(4):933-46.
29. Öst, L., Gotestam, K. G., & Melin, L. (1976). A controlled study of two behavioral methods in the treatment of stuttering. *Behavior Therapy*, 7, 587–592.
30. Perkins, W. H., Rudas, J., Johnson, L., Michael, W. B., & Curlee, R. F. (1974). Replacement of stuttering with normal speech: III. Clinical effectiveness. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 39, 416–428.

31. Plexico L, Manning WH, Levitt H (2009). Coping responses by adults who stutter: part II. Approaching the problem and achieving agency. *Journal of Fluency Disorders* 34[2], 108-126.
32. Saint-Laurent, L., & Ladouceur, R. (1987). Massed versus distributed application of the regulated-breathing method for stutterers and its long-term effect. *Behavior Therapy*, 18, 38–50.
33. Stewart T (1996). A further application of the Fishbein and Ajzen model to therapy for adult stammerers. *European Journal of Disorders of Communication* 31[4], 445-464.
34. Stewart T, Richardson G (2004). A qualitative study of therapeutic effect from a user's perspective. *Journal of Fluency Disorders* 29[2], 95-108.
35. Turnbull, J. Stewart, T., vertaald door Smitskanp, T., (2005) Therapieboek Stotteren Vol-wassenen, blz 136
36. Yaruss, J. S., Quesal, R. W., & Murphy, W. (2002). National Stuttering Association Members' opinions about stuttering treatment. *Journal of Fluency Disorders*, 27, 227–242.
37. Yaruss JS (2010). Assessing quality of life in stuttering treatment outcomes research. *J Fluency Disord.* 35(3):190-202.
38. Yaruss JS, Coleman CE, Quesal RW. Stuttering in school-age children: a comprehensive approach to treatment. *Lang Speech Hear Serv Sch.* 2012 Oct;43(4):536-48.
39. Weijts, M., van den Eerenbeemt, J., Hartjesveld, G., van Wijngaarden, L. Het Integraal Zorgtraject Stotteren, unieke vorm van zorg. *Logopedie*. Oktober 2012, 30-34.
40. Woodman, J. P., N. R. Moore (2012). Evidence for the effectiveness of Alexander Technique lessons in medical and health-related conditions: a systematic review. *Int J Clin Pract*, January 66 (1), 98–112.

Hoofdstuk 8: Effectiviteit van farmacotherapie bij adolescenten en volwassenen

8.1 Inleiding

De oorzaak van stotteren noch de oorzaak van individuele momenten van stotteren zijn met enige zekerheid vastgesteld (zie ook de inleiding van deze richtlijn). Er zijn veel pogingen ondernomen om effectieve farmaca te identificeren. In dit hoofdstuk wordt nagegaan wat de actuele stand van zaken is. Vanwege het feit dat in Nederland geen farmacotherapie wordt toegepast zal deze stand van zaken kort worden beschreven. Gradering van de zekerheid ten aanzien van de effectgrootte blijft dan ook achterwege.

8.2 Methode

Er is gezocht naar systematische reviews / meta-analysen en individuele RCTs waarin farmaca werden geëvalueerd op werkzaamheid en veiligheid. Voor de beschrijving van de zoekstrategie zij verwezen naar paragraaf 2 van de tekst over non-farmacologische interventies. Er werden twee relevante reviews en twee relevante RCTs gevonden.

8.3 Onderbouwing

Eerst worden de systematische review van Bothe (2006) en Boyd (2011) besproken. Daarna worden individuele studies besproken die nadien zijn gepubliceerd.

8.3.1 Overzicht van systematische reviews

Bothe et al (2006)

In 2006 publiceerden Bothe et al een systematische review van studies naar de effectiviteit en veiligheid van farmaca. Deze farmaca betroffen:

- anticonvulsiva: carbamazepine
- antidepressiva: fenelzine, paroxetine, sertraline, mianserine, clomipramine en desipramine
- antipsychotica: haloperidol, olanzapine, risperidon
- cardiovasculaire geneesmiddelen: clonidine, oxprenolol, propranolol, verapamil
- cholinergica: bethanechol
- aopamine antagonisten: pimozid, tiapride
- neuromusculaire blokkers: botuline toxine
- anxiolytica + antidepressiva: benzodiazepine met citalopram

Van de 35 studies:

- was er één (risperidon) die een reductie van de stotterfrequentie liet zien tot onder de 5%; informatie over de stotterfrequentie voorafgaande aan de toediening van risperidon werd door de auteurs niet vermeld;
- waren er drie (haloperidol, propranolol, sertraline) die wezen op een meer dan 50% reductie van de stotterfrequentie;
- waren er vier (botuline toxine, clomipramine, desipramine, carbamazepine) die een verbetering lieten zien op cognitief, sociaal of emotioneel vlak.

De effectiviteit van farmacotherapie lijkt gelet op deze resultaten gering. Daarbij komt dat farmacotherapie niet zelden bijwerkingen heeft. Deze bijwerkingen kunnen mild zijn, zoals een droge mond, obstipatie, vermoeidheid of gewichtstoename. Ze kunnen ook ernstig zijn, zoals Parkinson-achtige symptomen als gevolg van haloperidol, of toevallen door tricyclische antidepressiva.

Boyd et al (2011)

Boyd et al (2011) voerden een review uit waarbij zij studies includeerden die specifiek betrekking hadden op de leeftijdsgroep jonger dan 18 jaar. Zij vonden zeven studies, waarvan twee casestudies die zij als zeer zwak bewijs typeerden. Vier studies typeerden zij als zwak bewijs omdat aan twee essentiële kwaliteitscriteria niet werd voldaan: de aanwezigheid van een controle- of placebogroep, en data over onvloeiendheid voorafgaande en na de interventie. Een studie (Althaus et al 1995) typeerden zij als sterk bewijs omdat het een dubbel-blind uitgevoerde, placebogecontroleerde, cross-over trial betrof. In deze studie (n=25) varieerde de leeftijd van de studiedeelnemers van 6-13 jaar. Van deze 25 kinderen hadden er zes ook ADHD, terwijl vier andere kinderen tevens een ontwikkelingsstoornis of chronische motorische stoornis hadden.

Het middel dat werd geëvalueerd was clonidine dat gedurende acht weken werd geslikt in een hoeveelheid van 4 µg/kg lichaamsgewicht per dag. Onvloeiendheid werd gemeten in termen van aantal herhalingen, verlengingen, blokkades en tussenwerpsels. Daartoe werd kinderen gevraagd een tekst voor te lezen, zinnen te herhalen die werden voorgelezen, en te vertellen over hun belevenissen tijdens een weekend of vakantie. Hoe precies werd gemeten blijkt niet uit deze studie. Evenmin is duidelijk welke eenheid de uitkomsten hebben. Bij degenen die clonidine kregen, nam de frequentie van herhalingen en verlengingen toe: verschil tussen nameting en voormeting was 2.33 (95% CI: -4.7; 9.3) respectievelijk 0.58 (-0.22; 0.79). De wijde betrouwbaarheidsintervallen laten overigens zien dat de verkregen uitkomsten weinig nauwkeurig zijn. Enkele andere effecten als gevolg van de clonidinetoediening waren wel significant en klinisch van belang volgens de auteurs: op basis van een gedragschecklist rapporteerden ouders en leerkrachten dat de kinderen minder hyperactief, meer taakgericht en beter benaderbaar waren.

8.3.2 Individuele studies naar de werkzaamheid en veiligheid van farmaca

Maguire et al rapporteerden in 2010 studie naar de werkzaamheid en veiligheid van Pagoclone.³⁷ (Noot HdB: voor onderstaande tekst is gebruikgemaakt van de review van dr. Bert Bast zie <http://www.stotteren.nl/professionals/wetenschappelijk-onderzoek/algemeen/136-stotterpil.html>).

Deze studie werd door de farmaceutische industrie gesponsord. De primaire uitkomstmaten betroffen de gebruikelijke objectieve en subjectieve 'stotterernst-schalen' (SSI-3, SSS, SEV, stotterpercentage). De secundaire uitkomstmaten waren de natuurlijkheid van de spraak en de Liebowitz Social Anxiety Scale. Afgezien van de voormeting werd nog 2 of 3 keer gemeten: na (2), 4 en 8 weken vanaf de aanvang van de behandeling. In vrijwel alle gevallen verbeterden zowel in de placebogroep als in de Pagoclonegroep de uitkomsten. Slechts in enkele gevallen was er statistisch significant verschil ten gunste van Pagoclone. Het sterkste effect werd gemeten bij het percentage gestotterde lettergrepen (stotterpercentage); dat bleek na 4 weken Pagoclone met 21% verminderd te zijn (zie tabel 1 voor effectgroottes). De placebo-gecontroleerde dubbelblind uitgevoerde studie werd gevolgd door een zogeheten open label studie. De verbetering in stotterfrequentie (stotterpercentage) bleek na 1 jaar 40% in de Pagoclonegroep. Als je echter deze relatieve percentages omrekent in absolute percentages, zie je een gemiddelde vermindering in stotterpercentage van 8.3% naar 6.7%. Dit lijkt nauwelijks klinisch significant te zijn, zeker wanneer de voorkomende bijwerkingen in beschouwing worden genomen (moeheid, hoofdpijn).

Busan et al (2009) onderzochten de effectiviteit van paroxetine in termen van verminderen van stotterfrequentie en van bewegingen geassocieerd met stotteren. Vijf personen die stotterden kregen 20 mg paroxetine eenmaal daags gedurende 12 weken, en 5 personen die stotterden kregen een placebo. Na 12 weken nam in de paroxetinegroep de stotterfrequentie in absolute termen af met 5,7% (mediaan) en in relatieve termen met 45,2%; de corresponderende cijfers in de placebogroep zijn 1,6% en 15,8%. stotterpercentage werd bepaald op grond van spontaan spreken en een het lezen van een tekstpassage. Er werd geen statistisch significant verschil tussen beide groepen gevonden. Stotter-gerelateerde bewegingen (van het gelaat) – strikt genomen geen relevant bevonden uitkomstmaat - bleken wel significant minder. De onderzoekers hebben geen aandacht geschonken aan het optreden van bijwerkingen van paroxetine. Volgens het farmacotherapeutisch kompas (geraadpleegd d.d. 4 juni 2013) gaat het om de volgende bijwerkingen: in meer dan 10% van de gevallen: misselijkheid, seksuele stoornissen; in 1-10% van de gevallen: toename in cholesterolspiegel, slapigheid, transpiratie, spierzwakte, slapeloosheid, agitatie, abnormale dromen, duizeligheid, sensorische aandoeningen, tremor, visusstoornissen, gapen, obstipatie, diarree, droge mond, asthenie, toename lichaamsgewicht, angst, hoofdpijn, verminderde eetlust; In 0,1-1% van de gevallen om abnormale bloedingen (voornamelijk van huid en slijmvliezen), verwarring, hallucinaties, extrapiramidale aandoeningen, mydriasis, tachycardie, voorbijgaande

³⁷ De farmaceut is gestopt met verder onderzoek naar de werkzaamheid van pagoclone.
<http://thestutteringbrain.blogspot.nl/2011/12/breaking-news-endo-stops-pagoclone.html>.

stijging of daling van bloeddruk, posturale hypotensie, huiduitslag, jeuk, urineretentie, -incontinentie.

Tabel 1. Effectiviteit van Pagoclone ten opzichte van placebo

Uitkomstmaten				Effectgrootte	95% BI
SSI-3 Frequency and Duration Subscore					
	Change to wk 4			0,52	0,13-0,90
	Change to wk 8			0,21	-0,17-0,58
SSS Severity Subscore					
	Change to wk 2			0,40	0,02-0,78
	Change to wk 4			0,20	-0,18-0,58
	Change to wk 8			0,14	-0,24-0,51
Site clinician-rated SEV					
	Change to wk 2			0,20	-0,18-0,58
	Change to wk 4			0,36	-0,02-0,74
	Change to wk 8			0,13	-0,25-0,50
Percentage of syllables stuttered					
	Percent change to wk 4			0,62	0,24-1,01
	Percent change to wk 8			0,28	-0,10-0,66
LSAS (Liebowitz Social Anxiety Scale Total)					
	Percent change to wk 4			0,22	-0,14-0,58
	Percent change to wk 8			0,18	-0,19-0,54
LSAS Fear/Anxiety Subscale					
	Percent change to wk 4			0,15	-0,22-0,51
	Percent change to wk 8			0,06	-0,31-0,42
LSAS Avoidance Subscale					
	Percent change to wk 4			0,26	-0,10-0,62
	Percent change to wk 8			0,25	-0,11-0,61
LSAS Stuttering Subscale					
	Percent change to wk 4			0,30	-0,07-0,66
	Percent change to wk 8			0,23	-0,13-0,60

Bron: Maguire et al (2010)

Conclusie

Zekerheid ten aanzien van effectgrootte:	De meeste studies naar de effectiviteit van farmacotherapie laten geen klinisch relevante effecten zien op stotterfrequentie en uitkomsten van sociale, cognitieve of emotionele aard. Gelet op mogelijke bijwerkingen van farmacotherapie die de kwaliteit van leven negatief kunnen beïnvloeden, lijkt de netto-effectiviteit nihil.
Niet bepaald	

8.4 Van evidence naar aanbeveling

8.5.1 Zekerheid ten aanzien van effectgrootte

Hoewel de kwaliteit van bewijs niet is bepaald kan wel worden opgemerkt dat veel studies naar het effect van diverse farmaca op stotteren methodologisch zwak zijn. Ook kan worden opgemerkt dat meestal geen statistisch significante effecten worden gezien.

8.5.2 Balans van gewenste en ongewenste effecten

Vrijwel alle farmaca gaan gepaard met bijwerkingen bij gebruik op langere termijn. Gegeven het ontbreken van significante effecten van farmaca enerzijds en potentiële bijwerkingen anderzijds is er geen reden om langdurige toepassing van farmaca aan te bevelen.

8.5.3 Waarden en voorkeuren

a. Personen die stotteren

Er is geen literatuur over de effecten van tijdelijk gebruik van medicatie. Een oproep via Demosthenes over effecten van tijdelijk gebruik van medicatie heeft geen respons opgeleverd.

b. Logopedisten – stottertherapeuten

Wanneer farmaca zijn ingezet bij stotteren samengaan met co-morbiditeit is het klinisch van belang dat de therapeut erop bedacht is dat gedrag kan verbeteren terwijl de stotter ernst toeneemt of dat het stotteren is uitgelokt door de farmaca. In het laatste geval is er sprake van verworven stotteren ofwel farmacogeen stotteren (zie inhoudelijke inleiding).

Aanbeveling

17. Gebruik van farmaca in het kader van stottertherapie wordt niet aanbevolen. Wanneer sprake is van co-morbiditeit en stotteren, wordt aanbevolen om in samenspraak met de PDS (en diens directe omgeving) en de voorschrijver van de farmaca te zoeken naar een passende dosis farmaca.

Rationale bij de aanbevelingen

- Vrijwel alle farmaca gaan gepaard met bijwerkingen bij gebruik op langere termijn. Gegeven het ontbreken van significante effecten van farmaca enerzijds en potentiële bijwerkingen anderzijds is er geen reden om (langdurige) toepassing van farmaca aan te bevelen.

Literatuur

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

Hoofdstuk 9: Wanneer en met welke reden dient een patiënt met stotteren door de logopedist te worden doorverwezen naar een logopedist-stottertherapeut of naar een andere zorgverlener?

9.1 Inleiding

De hulpvraag voor een behandeling in verband met stotteren komt in veel gevallen als eerste terecht bij een logopedist. Deze voelt zich echter niet altijd voldoende competent ten aanzien van alle aspecten van deze behandeling. Doorverwijzing naar een in stotteren gespecialiseerde logopedist-stottertherapeut komt dan ook regelmatig voor. Soms treedt hierbij overbodige vertraging op, wellicht door onbekendheid met de expertise en mogelijkheden van de logopedist-stottertherapeut.

Logopedist-stottertherapeuten zijn in stotteren gespecialiseerde logopedisten die na het bachelor logopediediploma een door de NVST (Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie) goedgekeurd extra opleidingstraject hebben gevolgd. Daarnaast zijn er logopedisten die zich hebben verdiept in stottertherapie middels een aantal post-HBO cursussen. De differentiatie tussen logopedisten en gespecialiseerde logopedist-stottertherapeuten is ontstaan vanuit de behoefte om de kwaliteit van zorg voor PDS te verbeteren en de deskundigheid te vergroten. De invloed die stotteren heeft op het sociaal-emotionele functioneren en de kwaliteit van leven van de PDS, maakt de behandeling complex. Cognitieve en emotionele training vormen een onderdeel van de therapie, als ook begeleiding van het gezin van een KDS. De basisopleiding logopedie leidt hier onvoldoende voor op.

Sinds 2012 is er directe toegankelijkheid tot de logopedist en de logopedist-stottertherapeut en hoeft de hulpvrager niet verwezen te worden door de huisarts. Voor zowel de huisarts als de hulpvrager dienen de criteria wanneer naar welke zorgverlener te gaan duidelijk te zijn.

Bij PDS kan er ernstige spreekangst of sociale angst ontstaan, soms samengaan met depressieve klachten. Sociale angst kan ook iemands primaire hoofdprobleem zijn (geworden) en stotteren een bijkomend probleem. In dat geval kan begeleiding van een andere zorgverlener gewenst zijn. In dit hoofdstuk wordt meer helderheid verschaft over wanneer er moet worden doorverwezen en naar welke zorgverlener.

9.2 Methode

Voor de beantwoording van deze uitgangsvraag is geen systematisch literatuuronderzoek verricht. Wat de beschrijving van het patiëntperspectief betreft is gebruik gemaakt van het verslag van een focusgroep bijeenkomst van PDS (CBO 2013). Voor de beschrijving van het professionele perspectief is gebruik gemaakt van de kennis, ervaring en meningen van de werkgroepleden die als logopedist-stottertherapeut werkzaam zijn.

9.3 Onderbouwing

Stotteren is een complexe aandoening, onder meer omdat sociaal-emotionele problematiek relatief vaak voorkomt. Inventariseren hiervan is dan ook van belang. Behandeling van stotteren levert niet altijd binnen de verwachte behandelduur voldoende verbetering op. Verwijzen van logopedist naar logopedist-stottertherapeut, of verwijzen naar een andere zorgverlener kan vanwege sociaal-emotionele problematiek en onvoldoende realisatie van de behandeldoelen zinvol zijn. In het onderstaande wordt hierop nader ingegaan.

9.3.1 Sociaal-emotionele problematiek

Stotteren kan in grote mate de communicatie beïnvloeden en daarmee ook het sociale en emotionele welbevinden van de PDS. Voor oudere kinderen en volwassenen die stotteren kunnen de communicatieve problemen zo groot worden, dat zij het sociale leven, de opleiding en beroepskeuze beïnvloeden. Bij sommige PDS ontwikkelen zich serieuze emotionele problemen zoals depressies of sociale angst (Blumgart, Tran, & Craig 2010; Iverach & Rapee 2013; Koedoot, Bouwmans, Franken, & Stolk 2011; Tran, Blumgart, & Craig 2011). Tijdens de logopedische diagnostische procedure wordt de PDS bevraagd op angst vermijdingsgedrag. Er worden vragenlijsten afgenomen die de angst voor spreken en spreeksituaties in kaart brengen, waaronder de Behaviour Assessment Battery (BAB) (zie uitgangsvraag 2). Als blijkt dat de angst die wordt ervaren niet gerelateerd is aan het stotteren, of als deze angst buitenproportioneel is, dan is er volgens het diagnostische classificatie systeem voor psychische stoornissen DSM-5, mogelijk sprake van een sociale angststoornis (Iverach & Rapee 2013).

Het verdient aanbeveling om de PDS of het KDS in de diagnostische fase of gaande de therapie ook te bevragen op mogelijke depressieve gevoelens als daar aanwijzingen voor zijn. In de Multidisciplinaire Richtlijn Depressie (2013) worden vragenlijsten besproken om depressie te signaleren. Voor kinderen van 3 tot 13 jaar wordt de Strength and Difficulties Questionnaire (SDQ) aanbevolen. Deze is vrij verkrijgbaar (www.sdqinfo.org).

Voor jongeren en volwassenen wordt de Vierdimensionale KlachtenLijst (4DKL) aanbevolen. Ook de Depressieherkenningschaal (DHS) is een bruikbaar instrument voor de eerste screening op depressieve klachten (Ruiter & Jong 2010). Beide instrumenten zijn vrij verkrijgbaar via www.trimbos.nl.

Kinderen en jongeren die stotteren hebben een grotere kans om gepest te worden en ervaren van hun leeftijdsgenoten negatieve reacties op hun stotteren. Dit heeft consequenties voor hun zelfwaardering en maakt hen kwetsbaar voor het ontwikkelen van psychische problemen tijdens de volwassenheid (Blood et al 2010; Langevin 2009). De logopedist of logopedist-stottertherapeut heeft regelmatig contact met het kind of de jongere en moet alert

zijn op mogelijk pestgedrag. Dit kan door gericht te vragen naar pesten. De volgende vragenlijst, afkomstig uit de concept JGZ richtlijn pesten (2012) kan daarbij als leidraad dienen:

Vragen om pesten te signaleren:

Zit je lekker in je vel? Hoe voel je je op school?

Gepest ?

Ben je de laatste tijd wel eens gepest of mag je wel eens niet meedoen met de groep?

Pester?

Heb je de laatste tijd wel eens iemand gepest, uitgelachen of gezegd dat hij/zij niet 5 mee mag doen met de groep?

Cyberpesten?

Krijg je wel eens iets vervelends via je mobiele telefoon, internet of online gamen?

Stuur je zelf wel eens negatieve berichten naar anderen?

Meeloper?

Doe je wel eens mee met het pesten van andere kinderen?

Gevolgen van pesten?

Ben je bang of somber? Heb je hoofdpijn, buikpijn, weinig zin in eten? Slaap je goed?

Bij aanwijzingen dat er mogelijke sprake is van pesten, is aanvullende diagnostiek en/of individuele zorg geïndiceerd. De JGZ richtlijn pesten (2012) benadrukt het belang van de betrokkenheid van ouders bij het bepalen van een zorgtraject en van het aansporen van de ouders om het pestprobleem op school te bespreken.

9.3.2 Verloop therapie

De logopedist heeft een methodische werkwijze en werkt volgens de stappen van het methodisch logopedisch handelen. Onderdeel hiervan is het regelmatig evalueren van de gestelde behandeldoelen met de PDS en/of diens directe omgeving, meestal iedere twee tot drie maanden.

Bij de behandeling van jonge stotterende kinderen tot en met zes jaar treedt gemiddeld na 11-12 behandelsessies een significante verbetering van het stotteren op (Kingston, Huber, Onslow, Jones, & Packman 2003; Millard, Nicholas, & Cook 2008; Yaruss, Coleman, & Hammer 2006). Het gaat hierbij om behandeling volgens het Lidcombe Programma en behandeling volgens het Demands and Capacities model of een soortgelijk model³⁸. Het effect van deze interventies is groot in vergelijking met niet-behandelen, zie hiervoor hoofdstuk 3, uitgangsvraag 3c.

Bij oudere kinderen en volwassenen is er minder duidelijkheid over het verwachte verloop van de therapie in een bepaalde tijdsperiode. Er zijn veel variabelen die een rol spelen in het therapieproces, zoals bijvoorbeeld de leeftijd van de PDS, de intensiteit en frequentie van de aangeboden therapie, de mate van de secundaire problemen zoals angst en vermijdingsgedrag en de steun vanuit de omgeving van de PDS (Manning 2010).

³⁸ Het betreft hier de Parent-Child Interaction Therapy (PCIT) en de Family-focused Treatment Approach

Tijdens het gezamenlijk evalueren van het therapieproces en het tussentijdse resultaat is een open dialoog belangrijk, waarin de PDS vrij en zonder voorbehoud zijn/haar visie en gevoelens moet kunnen uiten. Samen met de logopedist of logopedist-stottertherapeut ('shared decision making') zal dan een beslissing genomen kunnen worden over de te nemen stappen in de therapie.

9.4 Van evidence naar aanbeveling

a. Personen die stotteren

PDS en ouders van stotterende kinderen uit de focusgroep hebben aangegeven dat zij vaak onvoldoende informatie krijgen over de behandelmogelijkheden in Nederland. Zij willen op de hoogte zijn van het bestaan van gespecialiseerde logopedist-stottertherapeuten en van organisaties als de Nederlandse Federatie Stotteren met daarbij het stotterinformatiecentrum (SIC) en de website stotteren.nl.

Goede informatievoorziening aan ouders en aan PDS is nodig om mee te kunnen denken en te bepalen welke zorg door welke zorgverlener het meest geschikt is.

Voor patiënten verdient een behandeling dicht bij huis de voorkeur. Lange reistijden kunnen een grote belasting zijn voor de PDS of voor het gezin van een stotterend kind. Voordeel van een behandelaar dicht bij huis is bovendien dat deze de leefomgeving kent en wellicht contacten heeft met de zorgverlenende instanties en de scholen in de buurt.

De focusgroep verwacht dat de logopedist begrip toont voor de problematiek rond stotteren in een breed kader, waarbij ook de sociaal-emotionele factoren worden aangekaart. Mocht er eventueel een verwijzing naar een andere professional nodig zijn, dan wil men dat op tijd horen en men wil ondersteund worden bij de keuze van de juiste zorgverlener. Men voelt zich soms te lang aan het lijntje gehouden.

Ditzelfde gaf de focusgroep aan over het beleid van huisartsen en jeugdartsen: te weinig begrip voor de sociaal-emotionele factoren van stotteren en te laat verwijzen wordt veelvuldig als knelpunt genoemd. Het is onder meer een taak van de logopedist en logopedist-stottertherapeut om huisartsen en jeugdartsen in hun professionele netwerk te informeren over stotteren, de criteria om te verwijzen en de behandelmogelijkheden.

b. Logopedisten - stottertherapeuten

Hieronder worden de belangrijkste verschillen tussen een logopedist en een logopedist-stottertherapeut weergegeven (Bezemer, Bouwen, & Winkelman 2008):

De logopedist:

- beschikt over basiskennis over stotteren
- heeft de mogelijkheid veel voorlichting 'dichtbij' de cliënt te geven
- krijgt meestal de aanmelding bij de eerste signalen waarbij nog weinig sprake is van aangeleerde secundaire gedragingen

- zit vaak dicht op de leefwereld van het kind, kent wellicht de school of peuterspeelzaal
- heeft veel kennis omtrent de gehele spraak- en taalontwikkeling
- is gewend veel ontwikkelingsaspecten mee te nemen in onderzoek/ therapie
- heeft in toenemende mate toegang tot recente informatie over stotteren, o.a. via post-HBO cursussen en literatuurstudie

De logopedist-stottertherapeut:

- heeft actuele kennis omtrent de laatste research-gegevens betreffende stotteren
- beschikt over een rijk scala aan therapiebenaderingen voor elke ontwikkelingsfase. Voor iedere cliënt kan zo een afgewogen therapiekeuze plaatsvinden
- kan een gekozen benadering aanpassen aan de cliënt, werkt eclectisch, waardoor deze het vereiste maatwerk krijgt
- heeft meer stotterende cliënten in therapie waardoor andere therapievormen mogelijk zijn zoals: sessies van een uur (in tegenstelling tot half uur sessies van de logopedist), groepstherapieën, ouderbegeleiding in groepen, begeleiding van leerkrachten. Diverse manieren van leren krijgen zo gestalte
- beschikt over een scala aan middelen en materialen ten dienste van onderzoek en therapie bij stotteren en ontwikkelt zo nodig nieuwe strategieën en materialen
- is op de hoogte van de wederzijdse beïnvloeding tussen stotteren en andere stoornissen
- biedt de mogelijkheid voor de cliënt tot een second opinion

Uiteraard worden in deze publicatie de verschillen tussen de logopedist en de logopedist-stottertherapeut met opzet vergroot en kunnen logopedisten in sommige gevallen de kenmerken van een logopedist-stottertherapeut bezitten.

Voor het geven van therapie aan een PDS is het wenselijk dat de logopedist of logopedist-stottertherapeut minimaal de aanbevolen werkwijzen uit deze richtlijn kan uitvoeren. Immers, deze richtlijn doet uitspraken over de optimale logopedische zorg aan personen die stotteren op het gebied van diagnostiek, behandeling en nazorg, waarbij rekening is gehouden met de stand van zaken van de wetenschappelijke literatuur en inzichten binnen de beroepsgroep anno 2013. Dit houdt in dat de psychosociale aspecten als (spreek-)angst en vermijdingsgedrag en verbaal-motorische aspecten van stotteren mogelijke therapiedoelen zijn. Van de logopedist mag verwacht worden dat deze inzicht heeft in het eigen therapeutisch vermogen en handelen en dat deze de professionele verantwoordelijkheid neemt om maatregelen te nemen als hij/zij weet of merkt dat de eigen deskundigheid tekort schiet.

De logopedist kan verwijzen naar een logopedist-stottertherapeut maar kan ook een (telefonisch) consult aanvragen of gecoacht worden bij het plannen en uitvoeren van de therapie.

Afstemming en overdracht bij (terug)verwijzing

Wanneer sprake is van verwijzen van logopedist naar logopedist-stottertherapeut, of verwijzen naar een andere zorgverlener vanwege sociaal-emotionele problematiek en onvoldoende realisatie van de behandeldoelen, gebeurt dat met een heldere vraagstelling. De verwijzende therapeut vraagt daarbij de PDS toestemming om de huisarts en de collega te informeren over gegevens uit anamnese, onderzoek, therapie en reden van verwijzing, en zal zich bij de gegevensoverdracht houden aan de NVLF-Richtlijn Logopedische Verslaglegging (www.logopedie.nl) en de Wet bescherming persoonsgegevens (www.rijksoverheid.nl/onderwerpen/persoonsgegevens). Ook wordt aanbevolen dat informatiemateriaal en adviezen van de verschillende zorgverleners op elkaar zijn afgestemd en dat de verwijzende therapeut zich houdt aan de competenties of het competentie gebied van de zorgverlener naar wie wordt doorverwezen.

De aanbevelingen over verwijzen en samenwerking zoals geformuleerd in deze richtlijn, kunnen in een lokaal of regionaal overleg worden omgezet in werkafspraken over doorverwijzen van PDS met stotteren. In de Landelijke Eerstelijns Samenwerkingsafpraak Aspecifieke lage rugpijn (LESA) staan vragen die hiervoor extra handvatten kunnen bieden (Faber et al, 2008). De werkgroep heeft deze overgenomen.

Deze vragen kunnen gebruikt worden als bespreekpunten bij het maken van lokale of regionale werkafspraken over doorverwijzen bij stotteren.

- Wanneer worden patiënten doorverwezen naar welke therapeut?
- Vindt er bij verwijzing door de huisarts een tussenevaluatie van de behandeling plaats? Welke werkafspraken worden hierover gemaakt?
- Hoe vindt onderlinge afstemming plaats van de werkwijze en verantwoordelijkheden?
- Welke werkafspraken worden gemaakt over rapportage en terugverwijzing?
- Zijn het voorlichtingsmateriaal en de adviezen van de zorgverleners op elkaar afgestemd?
- Welke therapeuten (logopedist, logopedist-stottertherapeut, andere behandelaar) zijn beschikbaar in de regio (Faber et al 2008)?

Kosten

Er is niet exact duidelijk wat de kosten zijn van het wel of niet tijdig verwijzen naar een passende zorgverlener of therapie, maar het is aannemelijk dat doorgaan met een therapie zonder het gewenste resultaat kostenverhogend is.

In Nederland zijn er niet veel logopedist-stottertherapeuten (ca. 60). Voor patiënten is het goedkoper om dicht bij huis behandeld te worden en niet wekelijks een eind te hoeven reizen naar een gespecialiseerde logopedist.

Aanbevelingen

Deskundigheid

18. De logopedist dient de aanbevelingen uit deze richtlijn voor diagnostisch en therapeutisch handelen te kunnen uitvoeren. Indien de 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.

In verband met sociaal-emotionele problematiek

19. Bij vermoeden van sociale angst of depressie bij de persoon die stottert op grond van de bevindingen bij de Behaviour Assessment Battery (BAB) dient de logopedist of logopedist-stottertherapeut dit te objectiveren met de Strength and Difficulties Questionnaire of de Vier Dimensionale KlachtenLijst. Bij een positieve indicatie dient de logopedist of logopedist-stottertherapeut te overleggen met de PDS of de ouders over een verwijzing naar de huisarts voor een mogelijke doorverwijzing naar een psycholoog of psychiater.
20. De logopedist of logopedist-stottertherapeut dient na te vragen of er bij stotterende kinderen en jongeren sprake is van pesten. Hierbij kan de vragenlijst uit de JGZ richtlijn pesten worden gebruikt. Bij positieve indicatie dient de logopedist of logopedist-stottertherapeut dit met de ouders te bespreken en de mogelijke vervolgstappen af te spreken.

In verband met verloop therapie

21. De logopedist/logopedist-stottertherapeut verschaft tijdens de intake informatie aan de persoon die stottert over de behandelmogelijkheden van logopedisten en logopedist-stottertherapeuten teneinde deze in staat te stellen tot het maken van een geïnformeerde keuze ten aanzien van de behandeling. De logopedist of logopedist-stottertherapeut wijst onder meer op informatieve instanties en websites, zoals www.stotteren.nl.
22. Als de therapie gegeven door een logopedist bij stotterende kinderen tot zes jaar na 11 tot 12 behandelsessies of drie maanden behandeling onvoldoende progressie ten opzichte van de gestelde behandeldoelen laat zien, dient een logopedist-stottertherapeut te worden geconsulteerd.
23. Als tijdens twee- of driemaandelijks evaluaties van het therapieproces blijkt dat de opgestelde realistische en haalbare behandeldoelen onvoldoende zijn gerealiseerd volgens de persoon die stottert of de logopedist/logopedist-stottertherapeut, dan moet de behandelende logopedist of logopedist-stottertherapeut de mogelijkheid van verwijzing naar een andere behandelaar bespreken.

24. De logopedist/logopedist-stottertherapeut formuleert bij doorverwijzing een vraagstelling waarin de voor de vraagstelling relevante elementen van de ICF zijn opgenomen.³⁹ De logopedist/logopedist-stottertherapeut maakt binnen zijn/haar regio werkafspraken over samenwerking, door- en terugverwijzing en informatieoverdracht. Dit wordt met de samenwerkingspartners vastgelegd.

Rationale voor de aanbevelingen

- De complexiteit van stotteren en de bijkomende sociaal-emotionele problematiek vraagt van de therapeut specifieke deskundigheid.
- Doorgaan met een therapie die onvoldoende effect heeft is ongewenst.
- Bij de behandeling van jonge stotterende kinderen tot en met zes jaar treedt gemiddeld na 11-12 behandelsessies een significante verbetering van het stotteren op (Kingston, Huber, Onslow, Jones, & Packman 2003; Millard, Nicholas, & Cook 2008; Yaruss, Coleman, & Hammer 2006).
- Bij sommige PDS ontwikkelen zich serieuze emotionele problemen zoals depressies of sociale angst (Blumgart, Tran, & Craig 2010; Iverach & Rapee, 2013; Koedoot, Bouwmans, Franken, & Stolk 2011; Tran, Blumgart, & Craig 2011).
- Kinderen en jongeren die stotteren hebben een grotere kans om gepest te worden en ervaren van hun leeftijdsgenoten negatieve reacties op hun stotteren (Blood et al 2010; Langevin 2009).
- De logopedist-stottertherapeut heeft extra expertise in het behandelen van stotteren.
- De logopedist en logopedist-stottertherapeut zijn niet toegerust om complexe of ernstige sociaal-emotionele problematiek, al dan niet als gevolg van het stotteren, te behandelen.
- Voor signalering van sociaal-emotionele problematiek wordt bij kinderen van 3 tot 13 jaar de Strength and Difficulties Questionnaire (SDQ) aanbevolen (Ruiter & Jong 2013). Deze is eenvoudig in het gebruik en is vrij verkrijgbaar (www.sdqinfo.org).
- Voor signalering van sociaal-emotionele problematiek bij jongeren en volwassenen wordt de Vierdimensionale KlachtenLijst (4DKL) of de Depressieherkenningsschaal (DHS) aanbevolen (Ruiter & Jong 2010). Beide instrumenten zijn eenvoudig in het gebruik en zijn vrij verkrijgbaar via www.trimbos.nl.

³⁹ Voor de overdracht van gegevens bij doorverwijzing wordt verwezen de NVLF-Richtlijn Logopedische Verslaggeving en naar de Wet bescherming persoonsgegevens

Literatuur

1. Landelijke Stuurgroep Multidisciplinaire Richtlijnontwikkeling in de GGZ en Trimbos Instituut. (2014). Opgeroepen op februari 20, 2014, van [www.ggzrichtlijnen.nl: http://www.ggzrichtlijnen.nl/index.php?pagina=/richtlijn/pagina.php&fSelectTG_3=4&fSelectedSub=3&fSelectedParent=4](http://www.ggzrichtlijnen.nl/index.php?pagina=/richtlijn/pagina.php&fSelectTG_3=4&fSelectedSub=3&fSelectedParent=4).
2. Bezemer, M., Bouwen, J., & Winkelman, C. (2008). Achtergronden en ontwikkeling van stottertherapie: logopedische therapie of vrije markt? Logopedie, 12, 380-386.
3. Blood, G. W., Boyle, M. P., Blood, I. M., & Nalesnik, G. R. (2010). Bullying in children who stutter: Speech-language pathologists' perceptions and intervention strategies. Journal of Fluency Disorders, 35, 92-109.
4. Blood, G. W., Ridenour Jr., V. J., Qualls, C. D., & Hammer, C. S. (2003). Co-occurring disorders in children who stutter. Journal of Communication Disorders, 36,, 427–448.
5. Bloodstein, O., & Bernstein Ratner, N. (2008). A Handbook on stuttering. Delmar: Clifton Park.
6. Blumgart, E., Tran, Y., & Craig, A. (2010). Social anxiety disorder in adults who stutter. Depression and Anxiety, 27, , 687-692.
7. TNO. Richtlijn pesten (2012). <https://www.ncj.nl/programmaliijn-kennis/landelijke-werkdocumenten/richtlijn/?item=81>.
8. CBO. (2012). Knelpunteninventarisatie Richtlijn Stotteren. Utrecht: CBO.
9. CBO. (2013). Verslag focusgroepbijeenkomst personen die stotteren.
10. Donaher, J., & Richels, C. (2012). Traits of attention deficit/hyperactivity disorder in school-age children who stutter. Journal of Fluency Disorders, 37,, 242-252.
11. Faber, E., Custers, J., Van Ederen, C., Bout, J., Cinjee, G., Kolnaar, B., et al. (2008). Landelijke Eerstelijns Samenwerkings Afspraak Aspecifieke lage rugpijn. Huisarts Wet, 51 (9), 5-9.
12. Iverach, L., & Rapee, R. M. (2013). Social anxiety disorder and stuttering: Current status and future directions. Journal of Fluency Disorders, <http://dx.doi.org/10.1016/j.jfludis.2013.08.003>.
13. Kingston, M., Huber, A., Onslow, M., Jones, M., & Packman, A. (2003). Predicting treatment time with the Lidcombe Program: replication and meta-analysis. Int J Lang Commun Disord, 38(2), 165-177.
14. Koedoot, C., Bouwmans, C., Franken, M., & Stolk, E. (2011). Quality of life in adults who stutter. Journal of Communication Disorders, 44 , 429-443.
15. Landelijke Stuurgroep Multidisciplinaire Richtlijnontwikkeling in de GGZ. (2005). Multidisciplinaire richtlijn ADHD bij kinderen en jeugdigen. Trimbos Instituut.
16. Langevin, M. (2009). The Peer Attitudes Toward Children who Stutter scale: Reliability, known groups validity, and negativity of elementary school-age children's attitudes. Journal of Fluency Disorders, 34 , 72-86.
17. Manning, W. (2010). Clinical Decision Making in Fluency Disorders. Delmar: Cengage Learning.
18. Millard, S. K., Nicholas, A., & Cook, F. M. (2008). Is Parent–Child Interaction Therapy Effective in Reducing Stuttering? Journal of Speech, Language, and Hearing Research, 51,, 636-650.
19. Tran, Y., Blumgart, E., & Craig, A. (2011). Subjective distress associated with chronic stuttering. Journal of Fluency Disorders, 36, 17-26.
20. Yaruss, J. S., Coleman, C., & Hammer, D. (2006). Treating Preschool Children Who Stutter: Description and Preliminary Evaluation of a Family-Focused Treatment Approach. Language, Speech, and Hearing Services 1n Schools, 118-136.

Hoofdstuk 10: Hoe dient adequate nazorg te worden georganiseerd en uitgevoerd?

10.1 Inleiding

Stotteren is een taai probleem. Verbetering van spreken met diverse reeds genoemde technieken en/of attitudeveranderingen is wellicht makkelijk bereikbaar in de klinische situatie, maar het toepassen van dit alles en handhaven van verbetering in de dagelijkse praktijk is vaak moeilijk. Terugval komt geregeld voor, en grote winst kan pas bereikt worden als de PDS in niet-klinische situaties (d.w.z. tijdens participatie in de maatschappij) de transfer van de therapie heeft geïnternaliseerd; de PDS is zijn eigen therapeut geworden. In dit proces is nazorg van cruciaal belang. Uit de bijeenkomst van de Focusgroep is gebleken dat de vorm van nazorg onvoldoende gedefinieerd is. Zowel de Nederlandse Stottervereniging Demosthenes als de Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie (NVST) hebben voor ogen dat nazorg programmatische aanpak behoeft en zullen hierover met de NVLF in gesprek gaan. De begrippen nazorg en zelfhulp dienen daarbij duidelijk van elkaar onderscheiden te worden.

10.2 Methode

Voor de beantwoording van deze uitgangsvraag is geen systematisch literatuuronderzoek verricht. Wat de beschrijving van het patiëntperspectief betreft is gebruik gemaakt van het verslag van een focusgroepbijeenkomst van PDS (CBO, 2013). Voor de beschrijving van het professionele perspectief is gebruik gemaakt van de kennis, ervaring en meningen van de werkgroepleden die als logopedist-stottertherapeut werkzaam zijn.

Definities van nazorg en zelfhulp

De begrippen nazorg en zelfhulp worden niet altijd duidelijk van elkaar onderscheiden in de literatuur over stotteren. In deze richtlijn verstaat de werkgroep in navolging van de definitie van Van Dale onder nazorg 'het traject na afloop van de gevolgde therapie'. De invulling hangt af van de individuele situatie van de PDS dan wel het kind dat stottert (KDS). Het initiatief voor een contact kan zowel uitgaan van de PDS als van de logopedist-stottertherapeut. De Regieraad definieert nazorg als *'Geheel van maatregelen gericht op terugkeer naar een zoveel mogelijk normale situatie, met een zo hoog mogelijke zelfredzaamheid van een patiënt. Nazorg kan zowel lichamelijke, geestelijke als maatschappelijke maatregelen behelzen'*. Onder nazorg verstaat de werkgroep in kader van de richtlijn: het traject na afloop van therapie met bijhorende zorg en nacontrole afspraken. Bovengenoemde definiëring geeft richting aan de wijze waarop de logopedist of logopedist-stottertherapeut een nazorgprogramma organiseert.

Ter verheldering van het onderscheid tussen nazorg en zelfhulp verstaat de werkgroep in navolging van de Regieraad onder 'zelfhulp' *“Vorm van hulpverlening gebaseerd op het uitgangspunt dat mensen in staat zijn zichzelf en elkaar te helpen door bewustwording, uitwisseling van gelijksoortige ervaringen en door het ondernemen van activiteiten”* (Regieraad Kwaliteit van Zorg, 2013). Met betrekking tot zelfhulp worden in de internationale literatuur de termen 'self-help/mutual aid group' en 'support group' niet altijd strikt onderscheidend gehanteerd. Relevant voor zelfhulp in Nederland zijn de bestaande zelfhulpgroepen en bijvoorbeeld stottercafés ondersteund door de Nederlandse Stottervereniging Demosthenes.

Programmatische aanpak: definitie en elementen

In haar Advies Nacontrole in de oncologie bepleit de Gezondheidsraad *“om na afloop van de behandeling voor elke patiënt schriftelijke voorlichting te bundelen in een nazorgplan, dat ter beschikking komt van de patiënt, de huisarts en andere betrokken partijen. Een dergelijk nazorgplan behelst meer dan alleen het programma van nacontrole. Het bevat op zijn minst informatie over de lichamelijke en psychosociale gevolgen van ziekte en behandeling, over de wenselijkheid en inrichting van de nacontrole, het moment van heroverweging en over blijvende aandachtspunten.”*

Het document Gestandaardiseerde Logopedie-Stottertherapie (GLS) geeft ondersteuning bij een programmatische aanpak voor nazorg bij stotteren. Het document is een verzameling van afgesproken doelstellingen en procedures die worden gebruikt bij onderzoek en behandeling van stotteren. De GLS wordt gedragen door de leden van de NVST en is beschikbaar (bijlage 1 en via de website van de NVST (www.nedverstottertherapie.nl)). In de GLS staat als advies beschreven in de hoofdstukken "Transfer" dat de therapeut na beëindiging van de therapie, controle- afspraken maakt gedurende 2 jaar en dat de therapeut de PDS en diens omgeving wijst op de mogelijkheid van deelname aan zelfhulpgroepen als ondersteuning voor het zelfstandig bijhouden van de geleerde vaardigheden.

Kwalitatief goede nazorg

Binnen de richtlijn oncologische zorg (www.oncoline.nl/dimensies d.d. 2 November 2013) worden de doelen van kwalitatief goede nazorg gedefinieerd in een schema(IOM, 2001). De werkgroep heeft dat schema overgenomen ter beschrijving van kwalitatief goede nazorg bij stotteren. De uitgangspunten kunnen door de logopedist of logopedist-stottertherapeut gebruikt worden bij het maken van een nazorgplan voor stotteren.

De uitgangspunten van goede nazorg stotteren			
Dimensie van kwaliteit	Patiëntgerichte kwaliteit	Professionele kwaliteit	Organisatorische kwaliteit
Goede nazorg stotteren	bevordert de kwaliteit van leven, het dagelijks functioneren en de zelfredzaamheid van de patiënt	is gebaseerd op de meest actuele inzichten uit wetenschap (evidence) en professie (expert opinion)	is geïntegreerd in de logopedische zorg stotteren als structureel onderdeel van het zorgcontinuüm
	is gedifferentieerde zorg, die aansluit bij de behoeften (fysiek, psychisch, sociaal) en voorkeuren van de patiënt (zorg op maat)	wordt aangeboden met de beste deskundigheid	is toegankelijk voor elke patiënt
	is gebaseerd op de autonomie en regierol van de patiënt en diens actieve betrokkenheid	wordt aangeboden in/met open communicatie	is gecoördineerde zorg met één vaste aanspreekpersoon voor de patiënt
	is respectvol	is doelgericht en doelmatig	is veilig

10.3 Onderbouwing

Terugval in oude stotterpatronen wordt regelmatig gerapporteerd. Dit blijkt onder andere uit een enquête gehouden onder (volwassen) leden van de National Stuttering Association (NSA), die als doel had de ervaringen met support groups dan wel support groups in combinatie met logopedie te verkennen (Yaruss et al 2002).

Terugval komt voor bij alle leeftijdsgroepen en maakt aandacht voor het inbedden van nazorg binnen het therapieproces zeer relevant. Adequate nazorg voldoet aan de behoefte van de PDS - zelfs als die initieel wellicht niet expliciet gevoeld is (Bezemer, Bouwen & Winkelman 2010; Manning 2010).

In een vroeg stadium van de behandeling dient de omgeving van de PDS betrokken te worden; dit gebeurt bij voorkeur bij de start van de therapie, maar is zeker geïndiceerd bij de transferfase, de onderhoudsfase en de nazorg.

Tijdens de afbouw van therapie kan nazorg georganiseerd in de vorm van een 'open einde' prettig zijn (de deur is als het ware op een kiertje) (Verslag Focusgroep bijeenkomst 17 april 2013).

Met name bij adolescenten en volwassenen wordt lotgenotencontact (onder meer middels de Nederlandse Stottervereniging Demosthenes) als zeer waardevol ervaren; het besef dat er andere mensen bestaan met vergelijkbare problemen kan zeer verhelderend werken (Boyle, 2013). Een dergelijk contact met lotgenoten kan een bestanddeel vormen van de therapie (met name bij groepstherapie), maar ook na afloop van de therapie kan lotgenotencontact (bijvoorbeeld in de vorm van zelfhulpgroepen en stottercafé 's) heel nuttig zijn. Terwijl de deelname aan dergelijke groepen aangemoedigd en in principe onbeperkt moge-

lijk is, kan het voor de deelnemer zelf nuttig zijn om een plan van actie en doeleinden hierbij op te stellen. Secundaire factoren (bijvoorbeeld reisafstanden) kunnen hierbij relevant zijn. Nazorg op maat, direct na de therapie georganiseerd en vormgegeven, tijdig voorbereid, en na afsluiting van therapie gedurende twee jaar (zie GLS) beschikbaar, voldoet aan de behoefte van de PDS en is van belang bij het managen van het stotteren.

10.4 Van onderbouwing naar aanbeveling

10.4.1 Gewenste en ongewenste effecten van nazorg versus zelfhulp

De logopedist-stottertherapeut ziet nazorg als nadrukkelijk onderdeel van therapie. In de klinische praktijk blijkt dit echter moeizaam te realiseren. Dit lijkt verband te houden met verminderde lijdensdruk, de bezuinigingen in de gezondheidszorg dan wel met het ontbreken van een voor iedereen duidelijk kader van deze nazorg (Klink 2013).

Deelname aan een ondersteunende groep kan zorg-gerelateerd zijn (nazorg met begeleiding van een zorgprofessional) maar kan ook een vorm van zelfhulp zijn. Een potentieel ongewenst effect voor de PDS kan zijn dat dit onderscheid niet altijd duidelijk is. Verzekeringsmaatschappijen dragen bij aan deze onduidelijkheid door sommige vormen van groepssessies zonder tussenkomst van professioneel relevant opgeleide hulpverleners te vergoeden. Wanneer een PDS overweegt hulp in de vorm van groepssessies te zoeken is het raadzaam om zich van te voren goed te informeren; hij kan daarbij gebruik maken van de adviezen van de International Stuttering Association (ISA) m.b.t. vragen die aan een therapeut gesteld dienen te worden.

(<http://www.demosthenes.nl/wc2013/index.php/program/accepted-abstracts/treatment-therapy/305-stuttering-therapy-and-the-danger-of-misleading-treatment-claims>).

10.4.2 Professioneel en patiënten perspectief

De logopedist heeft een methodische werkwijze en werkt volgens de stappen van het methodisch logopedisch handelen. Onderdeel hiervan is nazorg. Programmatische aanpak van nazorg in de vorm van een nazorgplan valt onder kwalitatief goede zorg stotteren. Op maat ingerichte ondersteuning als basis voor nazorg moet door de logopedist-stottertherapeut tijdens de therapie in gang worden gezet. Dit kan multidisciplinair zijn: soms is (tijdelijke) ondersteuning nodig in aansluiting op de behoeften (fysiek, psychisch, sociaal) en voorkeuren van de PDS. Binnen de gezondheidszorg is focus op zelfmanagement van de patiënt als onderdeel van (na)zorg in opmars en zeer relevant (Engels & Kistenmaker 2009).

Daarnaast kan nazorg georganiseerd worden in een context van zelfhulp, of middels telehealth (bv. <http://www.stotters.nl/>) – de PDS heeft zijn eigen virtuele therapeut, welke soms de verlenging van de eigen therapeut kan zijn.

Volgens de richtlijn oncologische zorg (www.oncoline.nl) is er weinig specifiek Nederlands of Europees onderzoek naar de wijze waarop nazorg het beste georganiseerd kan worden, maar individualisering hierbij is zeker gewenst. Patiënten willen nazorg die bij hun situatie past en willen hier ook in meebeslissen [Cardella et al 2007]. De medische keuzes behoren door de specialist in overleg met de patiënt gemaakt te worden [Milliat-Guittard et al 2007].

10.4.3 Kosten van nazorg

Er zijn geen exacte cijfers bekend over de kosten van nazorg die volgt op de behandeling van stotteren. Lotgenotencontact gebeurt vaak op vrijwillige basis met minimale kosten.

Het is aannemelijk dat een onvoldoende zorgvuldig traject van nazorg de kans op terugval vergroot. Dit betekent in veel gevallen dat de PDS na verloop van tijd opnieuw een therapie-traject zal ingaan, wat uiteraard kosten met zich meebrengt. Alhoewel de kosten van nazorg niet duidelijk zijn, is het logisch dat deze minder zijn dan een nieuwe therapie.

Aanbeveling

25. Elke aanpak bij stotteren moet oog hebben voor- en methoden insluiten om gunstige langetermijneffecten te bevorderen en om met terugval om te gaan. De logopedist/logopedist-stottertherapeut dient dan ook de invulling van de nazorg als onderdeel van het therapieproces te bespreken en overeen te komen met de PDS en zijn omgeving. Bij afsluiting van de behandeling van stotteren dient de logopedist/logopedist-stottertherapeut een programmatische aanpak te kiezen voor een individueel nazorgplan gedurende 2 jaar. Voor de invulling van deze programmatische aanpak wordt verwezen naar het document Gestandaardiseerde Logopedie-Stottertherapie (zie bijlage 1 GLS). De logopedist/logopedist-stottertherapeut doet de PDS en diens omgeving de suggestie om met het oog op terugvalpreventie en bevordering van langetermijneffecten contact te zoeken met lotgenoten, in de vorm van deelname aan activiteiten bijvoorbeeld georganiseerd door de patiëntvereniging Demosthenes.

Rationale voor de aanbevelingen

- Terugval komt geregeld voor, en grote winst kan pas bereikt worden als de PDS in niet-klinische situaties (d.w.z. tijdens participatie in de maatschappij) de transfer van de therapie heeft geïnternaliseerd en kan beschikken over een nazorgtraject.
- De begrippen nazorg en zelfhulp worden niet altijd duidelijk van elkaar onderscheiden in literatuur over stotteren.
- De doelen van kwalitatief goede nazorg stotteren dienen te worden gedefinieerd.
- In literatuur over stotteren en in de klinische praktijk wordt doorgaans een wenselijke duur van twee jaar nazorg aangehouden.

- Aan de kosten van nazorg heeft de werkgroep bij het opstellen van deze aanbeveling geen groot gewicht kunnen toekennen, onder meer vanwege het ontbreken van informatie over de huidige kosten.

Literatuur

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

Bijlage 1: De Gestandaardiseerde Logopedie Stottertherapie (GLS)

Hieronder is de inleiding, doel en werkwijze van de GLS opgenomen. De GLS is in zijn volledigheid te vinden op:

[http://www.nedverstottertherapie.nl/pdf/GestLogopedieStottertherapie\(GLS\)NVST2014.pdf](http://www.nedverstottertherapie.nl/pdf/GestLogopedieStottertherapie(GLS)NVST2014.pdf).

Het staat onder Stotteren en Stottertherapie op de homepage.

Inleiding

De Gestandaardiseerde Logopedie-Stottertherapie (GLS) is een toetsings-instrument waarmee aan personen die stotteren (PDS) verleende zorg kan worden getoetst aan de gewenste zorg. De GLS is een standaard, opgezet vanuit de logopedische hulpvraag “stotteren” en is ontwikkeld als aanvulling op de logopedische standaarden voor de Vrije Vestiging van de Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie (NVLF). Een ‘standaard’ is gedefinieerd als ‘een professioneel overeengekomen uitvoeringsniveau, dat geschikt is voor het betreffende werkveld’ (Meulenberg et al 2008). Logopedische standaarden omschrijven de minimaal wenselijke zorg, die logopedisten in verschillende werkvelden verlenen. De GLS omschrijft de minimaal wenselijke zorg, die aan de mens met een hulpvraag op gebied van stotteren wordt verleend.

De GLS is ontwikkeld vanuit de wens om het niveau van de zorg voor personen die stotteren met een hulpvraag op het best mogelijke peil te brengen en te houden. Ook dient de GLS als voorloper voor een standaard ‘vloeiendheidstoornissen’ en als voorloper op een richtlijn voor diagnostiek en behandeling van vloeiendheidstoornissen.

Dit document neemt geen theoretisch standpunt in over stotteren en pleit niet voor een specifieke filosofie van behandelen. In plaats daarvan is het document een verzameling van afgesproken doelstellingen en procedures die worden gebruikt bij onderzoek en behandeling van stotteren.

Doel

De GLS dient als leidraad voor de dagelijkse praktijk van logopedisten, stottertherapeuten en anderen die met oog voor de gehele mens werken, gericht op vergroten van het functioneren en de participatie van de stotterende mens.

Ook dient de GLS als bijdrage aan de ontwikkeling binnen de zorg om het niveau van zorg waar mogelijk te verbeteren, door deze doeltreffender en doelmatiger te maken. Met doeltreffender wordt bedoeld: werkzamer, veiliger, meer aanvaardbaar voor cliënt en behandelaar, beter toepasbaar en beter uitvoerbaar. Met doelmatiger wordt bedoeld: goedkoper bij gelijkblijvende kwaliteit.

Aanleiding voor de ontwikkeling van GLS

De ontwikkeling van de GLS is een initiatief van de Kwaliteitskring Erasmus te Rotterdam. Dit initiatief is ontstaan vanuit de behoefte aan een middel om het niveau van de zorg voor personen met vloeiendheidstoornissen op het best mogelijke peil te brengen en te houden. Daarnaast maken ontwikkelingen in het aanbod van zorg voor vloeiendheidstoornissen en in de werkwijze van zorgverzekeraars duidelijk dat het beschrijven van een GLS voor meer transparantie kan zorgen.

Proces

Voorafgaand aan het ontwikkelen van de GLS zijn de 'Guidelines for Practice in Stuttering Treatment van de American Speech-Language-Hearing Association' (ASHA 1995) en de 'Clinical Guidelines van de Royal College of Speech and Language Therapists' (2005) bestudeerd. Bij het ontwikkelen van de GLS is uitgegaan van de Guidelines for Practice in Stuttering Treatment' van de ASHA en van een aantal stappen in het proces van richtlijnontwikkeling zoals aangegeven door het Kwaliteitsinstituut voor de gezondheidszorg CBO. Met oog op aansluiting op de Nederlandse situatie en op internationale ontwikkelingen is bij de vormgeving tevens gebruik gemaakt van de organisatie van de inhoud volgens het Erasmus 4-componenten model (Bezemer et al., 2010) en de 'International Classification of Functioning, Disability and Health' (2001) van de World Health Organisation. Tijdens het vertalen van de richtlijnen en het aanpassen aan de Nederlandse situatie is er in een panel van deskundigen, de Kwaliteitskring Erasmus, gesproken over het minimaal wenselijk en het reëel haalbare uitvoeringsniveau. Dit heeft geleid tot het opstellen van de GLS.

Context en Gebruik

De GLS moet worden gebruikt binnen de geldende context van de klinische besluitvorming. De aanbevelingen moeten niet worden beschouwd als regels, maar als gestandaardiseerde aanwijzingen, die de logopedist helpen bij de besluitvorming tijdens het assessment en de behandelingen van stotteren. Zij zijn geschreven vanuit het oogpunt van minimaal wenselijke best practice.

De GLS dient te worden gelezen en geïnterpreteerd in overeenstemming met het klinische oordeel van de logopedist. Het mag duidelijk zijn dat niet elke aanbeveling van de GLS van toepassing is op iedere klinische situatie.

Stijl van Dienstverlening

De stijl van handelen van de logopedist is afhankelijk van vele factoren. Logopedisten leveren hun zorg aan mensen met een hulpvraag op gebied van stotteren met behulp van een verscheidenheid aan benaderingen. De stijl van de ene logopedist is niet beter dan de stijl van een andere logopedist. Het is essentieel dat de gekozen aanpak geschikt is voor de persoon die stottert en de heersende cultuur van de leefomgeving. De logopedist dient daarom in bepaalde situaties samen te werken met andere professionals om de communicatieve vaardigheden van het stotterende individu te beïnvloeden.

Bijlage 2: Beoordeling studies

Naam beoordelaar: Hans de Beer. Datum: 11-02-2013

Titel: Stuttering Treatment Research 1970-2005 (I +II). Auteurs: Bothe et al. Bron: Am J of Speech-language Pathology 15 (2006).

Vraagstelling: To complete a systematic review, incorporating trial quality assessment, of published research about behavioral, cognitive (and related), pharmacological treatments for stuttering. Goals included the identification of treatment recommendations and research needs based on the available high-quality evidence.

Beoordeling van de validiteit:

METHODEN

1. Is de vraagstelling adequaat geformuleerd?

☒ Ja

☐ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

2. Is de zoekactie adequaat uitgevoerd?

☒ Ja (kanttekening: niet gezocht in Cinahl, sommige trefwoorden ontbreken zoals *stammering* of *dysfluency*)

☐ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

3. Is de selectieprocedure van artikelen adequaat uitgevoerd?

☐ Ja

☒ Nee (hoe de selectieprocedure werd uitgevoerd is niet duidelijk? Door 1 of 2 personen?)

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

4. Is de kwaliteitsbeoordeling adequaat uitgevoerd?

☒ Ja (al valt hier wel wat op af te dingen; namelijk niet zo transparant gedaan)

☐ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

5. Is adequaat beschreven hoe data-extractie heeft plaatsgevonden?

☒ Ja

☐ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

6. Zijn de belangrijkste kenmerken van de oorspronkelijke onderzoeken beschreven?

☒ Ja (tamelijk matig, want interventies en patiëntengroepen worden niet in detail beschreven)

☐ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

7. Is adequaat omgegaan met klinische en statistische heterogeniteit van de onderzoeken?

☐ Ja

☐ Nee

☒ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

8. Is statistische pooling op een correcte manier uitgevoerd?

☒ Ja / niet van toepassing (vanwege heterogeniteit terecht geen pooling uitgevoerd)

☐ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

Conclusie: Redelijk goede systematische review.

Indeling van methodologische kwaliteit van systematische reviews:

Score van 7-8 (7-8 x ja geantwoord): goed

Score van 6: redelijk goed

Score van ≤5: matig

Naam beoordelaar: Hans de Beer. Datum: 19-03-2013

Titel: Effectiveness of Behavioral Stuttering Treatment: A Systematic Review and Meta-Analysis

Auteurs: Herder et al. Bron: CONTEMPORARY ISSUES IN COMMUNICATION SCIENCE AND DISORDERS • Volume 33 • 61–73 • Spring 2006

Vraagstelling: The purpose of the present study was to conduct a systematic review and meta-analysis of the effectiveness of behavioral stuttering treatment for people who stutter.

Beoordeling van de validiteit:

Korte beschrijving van de patiëntencategorie: those who had been diagnosed as PWS using labels such as stuttering or stammering.

Korte beschrijving van de onderzochte interventie(s):

All included studies used a behaviorally based intervention as the method to improve speech behaviors.

Korte beschrijving van de controlebehandeling(en):

All included studies identified both experimental and control (or comparison) groups to which participants were assigned before intervention. A control group is defined as a nontreatment condition; a comparison group is defined as an alternative treatment condition.

METHODEN

1. Is de vraagstelling adequaat geformuleerd?

☒ Ja

☐ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

2. Is de zoekactie adequaat uitgevoerd?

☒ Ja

☐ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

3. Is de selectieprocedure van artikelen adequaat uitgevoerd?

☒ Ja

☐ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

4. Is de kwaliteitsbeoordeling adequaat uitgevoerd?

☐ Ja

☒ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

5. Is adequaat beschreven hoe data-extractie heeft plaatsgevonden?

☐ Ja

☒ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

6. Zijn de belangrijkste kenmerken van de oorspronkelijke onderzoeken beschreven?

☐ Ja

☒ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

7. Is adequaat omgegaan met klinische en statistische heterogeniteit van de onderzoeken?

☒ Ja

☐ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

8. Is statistische pooling op een correcte manier uitgevoerd?

☒ Ja / niet van toepassing

☐ Nee

☐ Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

Conclusie:

Matig uitgevoerde systematische review

Indeling van methodologische kwaliteit van systematische reviews:

Score van 7-8 (7-8 x ja geantwoord): goed

Score van 6: redelijk goed

Score van ≤ 5 : matig

Bijlage 3: Evidence tabel effectiviteit van gedragsinterventies

Studie (1 ^{ste} auteur, jaar van publicatie)	Randomisation adequate?	Allocation concealed?	Groups similar at baseline?	Patient blinded?	Care provider blinded?	Outcome assessor blinded?	Co-interventions avoided/minimised?	Compliance acceptable?	Drop-out rate described/acceptable?	Timing outcome assessment similar?	Intention-to-treat analysis?	No selective reporting of outcome?	Risk of bias per studie per uitkomstmaat
Perkins 1974 (N=44;	-	-	-	Nvt	nvt	-	?	?	-	+	+	+	Spreek snelheid: <i>hoog</i> Stotterfrequentie: <i>hoog</i> SEC-variabelen: <i>hoog</i>
James 1989 (N=24; 4 drop-outs)	-	-	-	Nvt	nvt	-	?	?	±	+	+	+	Spreek snelheid: <i>hoog</i> Stotterfrequentie: <i>hoog</i>
Ladouceur 1986 (N=16)	-	-	?	Nvt	nvt	-	?	?	?	+	+	+	Spreek snelheid: <i>hoog</i> Stotterfrequentie: <i>hoog</i>
Miltenberger 1996 (N=2)	-	-	-	Nvt	nvt	-	?	?	+	+	+	+	Spreek snelheid: <i>hoog</i> Stotterfrequentie: <i>hoog</i>
Saint-Laurant 1987 (N=40)	+	-	?	Nvt	nvt	+	+	?	+	-	+	+	Spreek snelheid: <i>matig</i> Stotterfrequentie: <i>matig</i>
Ost 1976 (N=15)	±	-	?	Nvt	nvt	+	+	?	+	+	+	+	Spreek snelheid: <i>matig</i> Stotterfrequentie: <i>matig</i>
Carey et al (2010)	+	+	+	Nvt	nvt	+	+	+	+	+	+	? (spreek snelheid niet geëvalueerd)	stotterpercentage: <i>laag</i> .
Cream et al (2010)	+	+	+	Nvt	+	+	+	-	+	+	+	+	Alle uitkomsten (zie tekst: <i>laag tot matig</i> (vanwege beperkte compliance)
Menzies et al (2008)	+	?	-	Nvt	nvt	+	+	?	- (>20%)	+	-	+	Stotterfrequentie: <i>matig</i> Sociale angst: <i>matig</i>
Huinck et al (2004)	-	-	-	Nvt	nvt	?	+	+	-	+	-	+	Voor alle uitkomstmaten: <i>matig/hoog</i>

Bijlage 4: Evidence tabel gedrags- en cognitieve interventies

Author(s): Hans de Beer. **Date:** 2013-03-06

Question: Should behavioral and cognitive approaches be used for stuttering?

Bibliography: Bothe et al. Stuttering Treatment Research 1970-2005: I. Systematic Review Incorporating Trial Quality Assessment of Behavioral, Cognitive, and Related Approaches, American Journal of Speech-Language Therapy, 15, 321-341.

Quality assessment							No of patients		Effect		Quality	Importance
No of studies	Design	Risk of bias	Inconsistency	Indirectness	Imprecision	Other considerations	Behavioral and cognitive approaches	Control	Relative (95% CI)	Absolute		
Stuttered syllables (follow-up >=6 months; Better indicated by higher values)												
6	randomised trials ¹	serious ²	serious ³	no serious indirectness	no serious imprecision ⁴	None	141 ⁵	-	-	not pooled	⊕⊕○○ LOW	CRITICAL
Number of syllables per minute (follow-up >=6 months; Better indicated by lower values)												
6	randomised trials ¹	serious ²	serious ³	no serious indirectness	no serious imprecision ⁴	None	141 ⁵	-	-	not pooled	⊕⊕○○ LOW	CRITICAL

¹ Niet alle studies zijn gerandomiseerde trials, maar ook geen observationele studies.

² Meeste studies zijn niet gerandomiseerd. Geblindeerd vaststellen van de uitkomsten gebeurt meestal niet. Er is onzekerheid over vergelijkbaarheid van groepen.

³ Er is een aanzienlijke spreiding in de uitkomsten van individuele studies.

⁴ Dit is moeilijk vast te stellen omdat de gegevens ontbreken om een gecombineerde schatting te maken.

⁵ Dit betreft het totaal aantal geëvalueerde proefpersonen.

Bijlage 5: Overzicht van zoekacties voor stotteren

Naam file	aantal
med 20120730 speech and language therapy guidelines na 1995	13*
med 20120731 aanvulling speech and language therapy guidelines na 1995	13*
psy 20120731 speech and language therapy guidelines na 1995	33*
cl systrev 20120808 speech and language systrev	13
med 20120730 speech and language therapy systrev na 1995	111
psy 20120808 speech and language developmental systrev na 1995	29
emb 20120808 speech and language therapie guidelines vanaf 1995	64
emb 20120808 speech and language therapie systrev vanaf 1995	11
cin 20120809 speech guideilnes	10*
cin 20120809 speech systematic reviews	37
Update van 12 feb 2013	
med 20130212 stotteren systrev na 1995	2
med 20130212 stotteren rct na 1995	99
psy 20130212 stotteren systrev trials na 1995	107
emb 20130212 P stotteren trials systrev	94
cin 20130212 P stotteren systrev	6
cin 20130212 P stotteren trials	10

* Deze waren onvoldoende bruikbaar voor deze richtlijn.

Zoekactie van 20120730

Database: Ovid MEDLINE(R) In-Process & Other Non-Indexed Citations and Ovid MEDLINE(R) <1946 to Present>

Search Strategy:

- 1 "stotteren richtlijnen".ti. (0)
- 2 exp "rehabilitation of speech and language disorders"/ (7997)
- 3 guideline/ or practice guideline/ (22758)
- 4 (speech adj therap*).ti. (549)
- 5 Speech Therapy/ (4799)
- 6 Language Therapy/ (1105)
- 7 4 or 5 or 6 (5602)
- 8 guidelin*.ti. (42983)
- 9 3 or 8 (56465)
- 10 7 and 9 (22)
- 11 10 (22)
- 12 limit 11 to yr="1995 -Current" (14)
- 13 2 and 9 (22)
- 14 13 (22)
- 15 limit 14 to yr="1995 -Current" (13)
- 16 exp Stuttering/ (2891)
- 17 stutter*.tw. (3251)
- 18 stammer*.tw. (265)
- 19 fluency disorders.mp. (41)

.....

16 guideline/ or practice guideline/ (23179)
 17 (dutch or english or french or german).la. (18999648)
 18 13 and (15 or 16) and 17 (38)
 19 limit 18 to yr="1995 -Current" (28)
 20 "med091027 CBO filter sysrev & meta Medline START".ti. (0)
 21 meta analysis.pt. (36967)
 22 (meta-anal\$ or metaanal\$).af. (66218)
 23 (quantitativ\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (3867)
 24 (systematic\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (47091)
 25 (methodologic\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (5405)
 26 medline.tw. and review.pt. (34357)
 27 (pooled adj3 analy*).tw. (6385)
 28 or/21-27 (124498)
 29 "med091027 CBO filter sysrev & meta Medline EINDE".ti. (0)
 30 13 and 17 and 28 (151)
 31 limit 30 to yr="1995 -Current" (143)
 32 developmental.ti. (40859)
 33 developmental.tw. (166702)
 34 Developmental Disabilities/ (13319)
 35 speech disorders/ or stuttering/ (12206)
 36 35 and (33 or 34) (660)
 37 ((stutter* or fluency* or stammer* or clutter*) adj3 developmental).tw. (159)
 38 (dysfluen* adj3 developmental).tw. (6)
 39 (child* adj2 stutter*).tw. (435)
 40 (d?sfluen* adj3 developmental).tw. (13)
 41 (early adj stutter*).tw. (47)
 42 or/36-41 (1091)
 43 13 and (33 or 34) (604)
 44 42 or 43 (1408)
 45 (child??? or childhood or infant* or p?ediatr* or perinat* or neonat* or newborn* or infan* or boy? or girl?
 or kid? or schoolage* or juvenil* or adolescen* or toddler?).tw. (1558274)
 46 exp Child/ (1456397)
 47 exp infant/ (886722)
 48 "Adolescent"/ (1501278)
 49 45 or 46 or 47 or 48 (3084391)
 50 "filter child cbo medline".tw. (0)
 51 44 and 49 (1287)
 52 51 and 17 (1192)
 53 limit 52 to yr="1980 -Current" (1050)
 54 "P voor stotteren bij kinderen".ti. (0)
 55 language therapy/ or speech therapy/ (5562)
 56 (th or rh).fs. (1471365)
 57 (intervent* or therap*).ti. (593790)
 58 treat*.ti. (960849)
 59 or/55-58 (2561520)
 60 53 and 59 (442)
 61 "med101005 Cochrane Highly Sensitive Search Strategy for Randomized Trials in Medline START".ti. (0)
 62 randomized controlled trial.pt. (339011)
 63 controlled clinical trial.pt. (85097)
 64 (randomized or randomised).ab. (306310)
 65 placebo.ab. (140242)
 66 drug therapy.fs. (1573096)
 67 randomly.ab. (187872)
 68 trial.ab. (264547)
 69 groups.ab. (1216413)
 70 or/62-69 (3045624)

71 70 not (exp animals/ not humans/) (2604016)
 72 "med101005 Cochrane Highly Sensitive Search Strategy for Randomized Trials in Medline EINDE".ti. (0)
 73 60 and 71 (99)
 74 from 19 keep 1-28 (28)
 75 from 31 keep 1-140 (140)
 76 from 60 keep 1-3 (3)
 77 from 73 keep 1-96 (96)
 78 "bothe\$.fc_auts. and "2006".fc_pubyr. and "321".fc_pg. (1)
 79 exp *Stuttering/ (2646)
 80 stutter*.ti. (2694)
 81 79 or 78 or 7 or 8 or 9 or 10 (3204)
 82 2 or 3 or 4 or exp Stuttering/th or 11 or 12 (7942)
 83 81 and 82 and 17 (914)
 84 83 and (15 or 16) (3)
 85 (81 or 82) and 17 (9301)
 86 85 (9301)
 87 limit 86 to yr="1995 -Current" (4839)
 88 87 and (15 or 16) (26)
 89 87 and 28 (134)
 90 5 or 6 or 7 or 8 or 9 or 10 (4286)
91 89 and 90 (21) med 20130212 stotteren systrev na 1995
 92 87 and 71 and 90 (387)
 93 "med091027 CBO filter rct Medline START".ti. (0)
 94 randomized-controlled-trial.pt. (339011)
 95 controlled-clinical-trial.pt. (85097)
 96 randomized controlled trial/ (339011)
 97 randomi?ed controlled trial?.tw. (64762)
 98 random-allocation.af. (77042)
 99 double-blind-method.af. (117486)
 100 single-blind-method.af. (16981)
 101 (random adj8 (selection? or sample?)).tw. (30915)
 102 random\$.tw. (625670)
 103 or/94-102 (846073)
 104 "med091027 CBO filter rct Medline EINDE".ti. (0)
 105 controlled clinical trial/ or randomized controlled trial/ (419357)
 106 from 91 keep 1-21 (21)
 107 Clinical Trials as Topic/ (162088)
 108 103 or 105 or 107 (958898)
109 87 and 90 and 108 (101) med 20130212 stotteren rct na 1995

Bijlage 6: Definities en begrippen

Betrouwbaarheidsinterval

Er is altijd enige onzekerheid in het onderzoek. Dit komt omdat een kleine groep patiënten wordt bestudeerd om de effecten van behandeling voor de bredere populatie te voorspellen. Het betrouwbaarheidsinterval is een manier van uitdrukken hoe zeker we zijn over de bevindingen van een studie. Het betrouwbaarheidsinterval wordt meestal aangegeven als '95% BI', wat betekent dat het bereik van waarden een kans van 95 op de 100 heeft dat het de 'ware' waarde bevat. Bijvoorbeeld, een studie kan opmerken dat 'gebaseerd op onze bevindingen zijn we er 95% zeker van dat de "ware" bloeddruk van de bevolking niet hoger is dan 150 en niet lager dan 110. In dat geval zou het 95% BI zou 110-150 zijn. Een breed betrouwbaarheidsinterval wijst op een gebrek aan zekerheid over het werkelijke effect van de test of behandeling - vaak omdat een kleine groep patiënten is bestudeerd. Een smal betrouwbaarheidsinterval geeft een nauwkeuriger schatting (bijvoorbeeld wanneer een groot aantal patiënten is bestudeerd).

Blinderen

Een manier om te voorkomen dat onderzoekers, dokters, paramedici en patiënten in een klinische trial weten tot welke studiegroep een patiënt behoort zodat zij de resultaten niet kunnen beïnvloeden. De beste manier om dit te doen is door patiënten at random aan studiegroepen toe te wijzen. Het doel van 'blinderen' is bias te voorkomen of te beperken. Een enkel-geblindeerde studie is een studie waarin patiënten niet weten tot welke studiegroep zij behoren (bijvoorbeeld of zij nu een experimenteel geneesmiddel of een placebo gebruiken). Een dubbelblind uitgevoerde studie is een studie waarin noch patiënten noch onderzoekers/dokters weten tot welke studiegroep de patiënten behoren. Een drievoudig blind uitgevoerde studie is een studie waarin noch de patiënten noch de klinici of de personen die de statistische analyse uitvoeren weet hebben van de behandeling die patiënten hebben ondergaan.

Case report

Niet-gecontroleerd observationeel onderzoek waarin slechts 1 of enkele patiënten worden beschreven.

Cinahl

Cumulative Index of Nursing and Allied Health Literature. In deze databank die wordt uitgegeven door Cinahl Information Systems, California (V.S.) zijn referenties te vinden van publicaties vanaf 1982 tot heden op het gebied van de verpleegkunde en paramedische beroepen. De databank is alleen door abonnees te raadplegen. Het CBO heeft een abonnement. Informatie over Cinahl is te vinden op: <http://www.cinahl.com>.

Cochrane Collaboration

Internationale organisatie die zich tot doel stelt om ondersteuning te bieden bij het nemen van geïnformeerde beslissingen over gezondheidszorg. Zij doet dit door systematische reviews en meta-analyses te publiceren over de effecten van gezondheidsinterventies.

Cochrane Library

Verzameling databanken voortgekomen uit de Cochrane Collaboration, met als belangrijkste bestanden: a) Cochrane Database of Systematic Reviews, hiervan staan de meeste samenvattingen ook in PubMed en b) Database of Abstracts of Reviews of Effectiveness (DARE), dit zijn op kwaliteit beoordeelde systematische reviews die geen Cochrane reviews zijn.

Effectgrootte (effect size)

Een maat die de grootte van de uitkomst in een groep laat zien in vergelijking met een controlegroep. Bijvoorbeeld, als de absolute risicoreductie 5% zou bedragen en dit de uitkomst is waarin men is geïnteresseerd, dan is de effectgrootte 5%.

De effectgrootte wordt meestal getest met een statistische toets om na te gaan hoe groot de kans is dat het effect een gevolg is van de behandeling en niet op toeval berust (dat wil zeggen om te bepalen of het effect statistisch significant is).

Geheimhouding van de toewijzing (Eng: concealment of allocation)

Bij een RCT worden de personen in de onderzoekspopulatie at random ingedeeld (bijvoorbeeld door middel van gesloten enveloppes) in interventiegroep(en) en controlegroep(en). 'Concealment of allocation' refereert aan het geheim houden of blinderen van deze toewijzing van patiënten aan de verschillende onderzoeksgroepen. Dit betekent dat degene die de groepen indeelt (bijvoorbeeld door het uitdelen van enveloppen) niet op de hoogte is van de inhoud van de enveloppe en dat de codering ook niet te achterhalen is.

Gestandaardiseerde Logopedie-Stottertherapie (GLS)

Is een document met een verzameling van afgesproken doelstellingen en procedures die worden gebruikt bij onderzoek en behandeling van stotteren. De GLS wordt gedragen door de leden van de Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie (NVST) en is beschikbaar als bijlage bij de richtlijn en via de website van de NVST (www.nedverstottertherapie.nl)

Heterogeniteit

Deze term wordt in meta-analyses en systematic reviews gebruikt om aan te geven dat de resultaten van een test of behandeling (ofwel de effectgroottes) significant verschillen in verschillende studies. Zulke verschillen kunnen optreden als resultaat van verschillen in de bestudeerde populatie, de gemeten uitkomsten of vanwege verschillende definities van de variabelen in kwestie.

Inconsistentie (synoniem: substantiele heterogeniteit)

Inconsistentie verwijst naar onverklaarde heterogeniteit van resultaten., d.w. z. van zeer variabele resultaten van het behandel-effect.

Indirectheid

De biomedische literatuur beantwoordt niet direct de uitgangsvraag vanwege verschillen in patiënten, interventies, controlegroep of uitkomstmaten. Ook indirecte vergelijkingen zijn een voorbeeld van indirectheid, bijvoorbeeld het vergelijken van de uitkomsten van interventie A met die van interventie B op basis van interventie A versus placebo en interventie B versus placebo.

Intention-to-treat analyse

Een beoordeling van de uitkomsten bij deelnemers aan een klinische trial, gebaseerd op de groep waaraan zij in eerste instantie at random aan zijn toegewezen. Dit is ongeacht of zij uitvielen, de behandeling volledig afmaakten of switchten naar een andere behandelgroep. Intention-to-treat analyses worden gebruikt om de klinische effectiviteit te bepalen omdat zij de actuele praktijk weerspiegelen: d.w.z. niet iedereen is therapietrouw en de behandeling wordt aangepast naar gelang hoe mensen erop reageren.

Kernstoters of kernstottergedrag

Zijn de gespannen herhalingen, verlengingen en blokkades van syllabes en klanken, kenmerkend voor stotteren. De verstoringen van de vloeiendheid van spreken zijn onvrijwillig en de persoon die stottert heeft ze niet onder controle.

Klinische significantie

Een gunstig effect van een behandeling dat gerelateerd is aan een belangrijke uitkomst zoals de levensduur, en groot genoeg is om belangrijk te zijn voor patiënten en zorgprofessionals. Effecten die statistisch significant zijn niet altijd klinisch significant, omdat het effect klein is of de uitkomstmaat niet van belang is. Als een behandeling bijvoorbeeld de bloeddoorstroming bevordert maar er geen bewijs is dat dit leidt tot een belangrijke klinische uitkomst zoals een kleiner risico op een hartaanval, dan is er geen sprake van klinische significantie.

Kwaliteit van bewijs (ook omschreven als *zekerheid ten aanzien van de effectgrootte*; definitie conform GRADE)

Kwaliteit van bewijs weerspiegelt de mate van zekerheid over een effect.

Hoge kwaliteit van bewijs: verder wetenschappelijk onderzoek zal het vertrouwen in de schatting van het effect *niet veranderen*.

Matige kwaliteit van bewijs: verder wetenschappelijk onderzoek heeft *waarschijnlijk* een belangrijke impact op ons vertrouwen in de schatting van het effect, en *kan* de schatting *veranderen*.

Lage kwaliteit van bewijs: verder wetenschappelijk onderzoek heeft zeer waarschijnlijk een belangrijke impact op ons vertrouwen in de schatting van het effect en *verandert* de schatting *waarschijnlijk*;

Zeer lage kwaliteit van bewijs: *iedere schatting* van het effect is *onzeker*.

Kwaliteit van leven

Is het functioneren van personen op fysiek, psychisch en sociaal gebied en de subjectieve evaluatie daarvan. Kwaliteit van leven bestaat dus uit zowel relatief objectieve als uit subjectieve aspecten. Objectieve aspecten gaan over het feit of iemand als gevolg van zijn gezondheid bepaalde beperkingen heeft. Subjectieve aspecten zeggen iets over het oordeel van de persoon over (aspecten van) zijn gezondheid (Sprangers MAG (AMC). Wat is kwaliteit van leven en hoe wordt het gemeten? In: Volksgezondheid Toekomst Verkenning, Nationaal Kompas Volksgezondheid. Bilthoven: RIVM, <<http://www.nationaalkompas.nl>> Nationaal Kompas 2009.)

Medline

Databestand met referenties van artikelen uit meer dan 4700 tijdschriften, gepubliceerd in meer dan 70 landen. Het merendeel van de beschreven artikelen komt uit Engelstalige tijdschriften. De zoektaal is Engels. Het bestand gaat terug tot ongeveer 1950 en bevat meer dan 14 miljoen referenties. Medline is gratis te raadplegen via PubMed: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/sites/entrez>. Het CBO heeft een abonnement op een meer geavanceerd zoekinterface voor Medline.

Meta-analyse

Een statistische analyse van de resultaten van onafhankelijke studies met het doel een samenvattende schatting van het effect (van een behandeling) te geven. Een meta-analyse maakt vaak deel uit van een systematische review waarbij de resultaten van een aantal vergelijkbare klinische studies worden gebundeld. Hierdoor wordt het mogelijk om met een grotere betrouwbaarheid een uitspraak te doen over het effect van een interventie of behandeling.

Niet-vergelijkend onderzoek

Onderzoek waar bij geen groepen patiënten met elkaar worden vergeleken; hieronder vallen beschrijvend onderzoek, case reports.

Natuurlijkheid van spreken

Is de mate waarin de spraak van een PDS klinkt als die van een typische spreker die niet stottert. (Guitar 2014)

Odds ratio

Odds zijn een manier om te laten zien hoe waarschijnlijk het is dat iets zal gebeuren (de waarschijnlijkheid). Een odds ratio vergelijkt de waarschijnlijkheid van iets in een groep met de waarschijnlijkheid van hetzelfde in een andere groep.

Een odds ratio van 1 tussen twee groepen zou aantonen dat de waarschijnlijkheid van de gebeurtenis (bijvoorbeeld dat een therapie effectief is) in beide groepen gelijk is. Een odds ratio groter dan 1 betekent dat de gebeurtenis waarschijnlijker is in de eerste groep. Een odds ratio kleiner dan 1 betekent dat de gebeurtenis minder waarschijnlijk is in de eerste groep. Soms kan de waarschijnlijkheid van een gebeurtenis tussen meer dan twee groepen worden vergeleken - in dit geval, wordt een van de groepen gekozen als de 'referentiecategorie', en wordt de odds ratio berekend voor iedere groep in vergelijking met de referentiecategorie. Bijvoorbeeld, om het sterfterisico te berekenen op longkanker bij niet-rokers, gelegenhedsrokers en gewone rokers, kunnen niet-rokers als de referentiecategorie worden gebruikt. Odds ratios zouden berekend worden voor gelegenhedsrokers in vergelijking met niet-rokers en voor gewone rokers in vergelijking met niet-rokers.

Onnauwkeurigheid

Onnauwkeurigheid betekent onzekerheid over de effectgrootte, zoals weerspiegeld door een wijd betrouwbaarheidsinterval, en wordt veroorzaakt door geringe aantallen personen die in een studie zijn onderzocht.

Ontwikkelingsstotteren

Is de meest voorkomende vorm van stotteren die zich ontwikkelt gedurende de kindertijd (anders dan stotteren dat zich ontwikkelt als gevolg van een neurologische aandoening, een trauma of door emotionele stress) (Guitar 2014).

PICO-methode

Dit acroniem omschrijft de vier elementen (Patiënt Interventie Controle Outcome) van een specifieke klinische vraag waarmee kan worden gezocht in de wetenschappelijke literatuur.

PsycINFO

Databank met referenties van artikelen op het gebied van de psychologie, opgesteld door de American Psychological Association en bevat beschrijvingen en abstracts van artikelen, hoofdstukken uit boeken, boeken, proefschriften op het gebied van psychologie en de psychologische aspecten van alle eraan gerelateerde disciplines. Gegevens zijn afkomstig uit 1500 tijdschriften, vanaf 1872. Vroeger werd het bestand uitgebracht onder de naam PsycLit. Dit bestand is alleen door abonnees te raadplegen.

PubMed

PubMed is een bestand met beschrijvingen (referenties) van tijdschriftartikelen uit biomedische, verpleegkundige en tandheelkundige tijdschriften. Het bevat meer dan Medline alleen. Het omvat PubMed, indexed for Medline, PubMed as supplied by publisher en PubMed in Process, dit zijn de referenties die in Medline worden opgenomen maar nog voorzien moeten worden van de MeSH terms (Medline trefwoorden). Pubmed is vrij toegankelijk via: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/sites/entrez>. Zie ook medline.

P value

De p-waarde of overschrijdingskans (van een gegeven steekproefuitkomst) is de kans dat in de verdeling gegeven door de nulhypothese de waarde van de toetsingsgrootte wordt behaald of overschreden (links, rechts dan wel tweezijdig).. Voorbeeld: als in een studie waarin twee behandelingen worden vergeleken, wordt gevonden dat de ene effectiever lijkt dan de andere, dan is de p waarde de waarschijnlijkheid om deze resultaten bij toeval te vinden. De conventie is dat een p waarde van minder dan 0.05 (ofwel een kans van minder dan 5% dat de gevonden resultaten op toeval berusten) wordt beschouwd als een waarde waaronder het waarschijnlijk is dat er waarschijnlijk een werkelijk verschil tussen beide behandelingen bestaat. Het betrouwbaarheidsinterval beschrijft hoe groot dit verschil in effect kan zijn.

Randomised controlled/clinical trial (RCT)

Onderzoek waarbij het effect van een interventie wordt vergeleken met dat van een contro-leinterventie en waarbij aselechte toewijzing (randomisatie) van patiënten aan de indexgroep en referentiegroep wordt toegepast. RCT's worden beschouwd als de beste onderzoeksmethode om een hypothese met betrekking tot medische interventies te testen. In een placebo-gecontroleerde RCT krijgt de controlegroep een placebo toegediend.

Risk of bias

Synoniem: systematic error; Nederlands: vertekening, systematische fout

Wanneer bias of vertekening optreedt wijken de resultaten af van de werkelijkheid door een systematische fout. Vertekening kan optreden als gevolg van onvolkomenheden bij de opzet van de studie, bij het verzamelen van de gegevens, het analyseren, het interpreteren van de resultaten en het publiceren. Vertekening is echter niet altijd te vermijden.

Men spreekt van *selectie-bias* (Eng: selection bias) wanneer de vertekening van de resultaten wordt veroorzaakt door een essentieel verschil in personen die in een studie werden geïnccludeerd en de geëxcludeerde personen. Bijvoorbeeld, als men bij het includeren van personen in een studie systematisch de personen selecteert bij wie de te onderzoeken interventie meer effect heeft.

Er is sprake van *allocation bias* (vorm van selectiebias) wanneer de deelnemers aan een onderzoek niet aselekt over de onderzoeksgroepen werden verdeeld, bijvoorbeeld door onjuiste randomisatieprocedures.

Wanneer er een fout optreedt in een meting van de te onderzoeken parameters spreekt men van *informatie-bias* (Eng: information bias, measurement bias, assessment bias). De fout kan liggen bij de onderzoeker, wanneer bijvoorbeeld geen eenduidige definities van de onderzoeksparameters zijn vastgelegd (interviewer bias, observer bias, interpretation bias). Ook de patiënt kan zorgen voor vertekening door zich een belangrijk gegeven niet te herinneren (recall bias).

Men spreekt van *response bias* wanneer sommige personen akkoord zijn met bepaalde uitspraken, ongeacht de inhoud ervan, of wanneer de respondenten alleen sociaal wenselijke antwoorden geven.

Confounding bias is een vertekening als gevolg van het feit dat onvoldoende rekening wordt gehouden met het verstorende effect van confounders op de relatie tussen centrale determinant en ziekte. Een confounder is een verstorende variabele die verantwoordelijk is voor een vertekende weergave van de relatie tussen de centrale determinant en de ziekte. Een andere vorm van vertekening is publicatiebias (Eng: publication bias). Indien negatieve uitkomsten er toe leiden dat bepaalde studieresultaten niet worden gepubliceerd, is er sprake van publicatiebias. Deze vorm van vertekening is belangrijk bij de beoordeling van systematische reviews en meta-analyses.

Secundair stottergedrag

Is het resultaat van (deels onbewuste) leerprocessen van de persoon die stottert als reactie op het kernstottergedrag. Voorbeelden zijn vlucht en vechtgedragingen zoals knippen met de ogen, verlies van oogcontact, meebewegingen, tongbewegingen, het gebruik van aanloopzinnnetjes (“em.. em... hoe heet het...”), etc. Er kunnen daarnaast reacties zijn zoals gevoelens van angst, frustratie en schaamte en vermijdingsgedragingen (in woorden en/of klanken die de persoon die stottert gebruikt en van situaties).

Stotter ernst

Is een maat gebaseerd op objectieve metingen van het stottergedrag zoals de stotterfrequentie, de duur van de stottermomenten, de type onvloeiendheden en de secundaire gedragingen (Shapiro 1999)

Stuttering-Like Dysfluencies (SLD's)

Type onvloeiendheden bij jonge kinderen die helpen om ‘normaal onvloeiend’ te onderscheiden van ‘stotteren’ (Yairi & Ambrose, 2005). Deze onvloeiendheden komen bij stotterende kinderen veel vaker voor:

- woorddeelherhalingen
- herhalingen van eenlettergrepige woorden
- dysritmische fonaties, zoals gespannen pauzes

% Stuttered Syllables (%SS)

Het percentage gestotterde lettergrepen is een maat voor de stotterfrequentie.

Systematische review

Systematisch literatuuroverzicht van de stand van zaken van medisch-wetenschappelijk onderzoek over een specifieke vraag. Een systematische review is transparant en reproduceerbaar en gaat uit van een expliciete vraagstelling, een uitgebreide zoekstrategie, een transparante procedure voor selectie van onderzoeken, een systematische beoordeling van de kwaliteit van de onderzoeken en een overzichtelijke presentatie van de resultaten. Een meta-analyse kan een onderdeel van een systematische review zijn. Zie ook meta-analyse.

Systematisch uitgevoerd literatuuronderzoek

Zie systematic review.

Uitgangsvraag

Specifieke (klinische) vraag waarvoor in de richtlijn een antwoord in de vorm van een aanbeveling zal worden geformuleerd. De uitgangsvragen vormen de kapstok van de te ontwikkelen richtlijn en zijn het vertrekpunt voor het literatuuronderzoek.

Uitkomstmaat

Datgene wat men meet om het resultaat van een gebeurtenis of interventie te meten. Er wordt onderscheid gemaakt in harde eindpunten zoals dood of aangetoonde morbiditeit en intermediaire of surrogaat eindpunten, die meestal slechts indirect samenhangen met harde eindpunten. Voorbeelden zijn de serumlipidenwaarden en de bloeddruk waarbij het optreden van cardiovasculaire ziekten de harde uitkomstmaat is. Effecten van interventies op intermediaire eindpunten kunnen niet zonder meer worden geëxtrapoleerd naar effecten op harde eindpunten. De waarde van studies die slechts intermediaire eindpunten weergeven is derhalve beperkt.

Bijlage 7: Knelpuntenanalyse richtlijn Stotteren

Het CBO ontwikkelt in samenwerking met de Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie (NVLF), de Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie (NVST) en de patiëntenvereniging “Demosthenes” een evidence-based richtlijn stotteren bij kinderen en volwassenen. De richtlijn is bedoeld om aan te geven hoe de diagnostiek, behandeling en nazorg van cliënten met stotteren eruit dient te zien. Beroepsorganisaties die indirect zijn betrokken bij de diagnostiek en behandeling van cliënten die stotteren zijn benaderd te participeren in een klankbordgroep. De verenigingen die participeren in de klankbordgroep zijn:

- Nederlands Huisartsen Genootschap
- Artsen Jeugdgezondheidszorg Nederland
- Nederlands Instituut van Psychologen
- Nederlandse Vereniging voor Kindergeneeskunde
- Nederlandse Vereniging voor Keel-Neus-Oorheelkunde en Heelkunde van het Hoofd-Halsgebied
- Nederlandse Vereniging voor Arbeids- en Bedrijfskunde
- Landelijke Beroepsgroep Begeleiders in het Onderwijs

Methode

Om een beeld te krijgen van de knelpunten die leven rondom diagnostiek, behandeling en nazorg van stotteren bij kinderen en volwassenen is een enquête opgesteld. Deze enquête is verstuurd naar de verenigingen vertegenwoordigd in de werkgroep, waarin de logopedisten, logopedist-stottertherapeuten en patiënten zijn vertegenwoordigd, en naar de verenigingen vertegenwoordigd in de klankbordgroep. In totaal zijn 40 enquêtes ingevuld en retour ontvangen. Acht enquêtes werden ingevuld tijdens monodisciplinair overleg waarvan zes enquêtes afkomstig waren van de NVST stottertherapeuten, één van de Artsen Jeugdgezondheidszorg en één van de Nederlandse Vereniging voor Arbeids- en Bedrijfskunde. Eén enquête werd ingevuld door het bestuur van stottervereniging Demosthenes. Op basis van eigen visie werden tien enquêtes ingevuld door leden van de NVLF, tien door leden van de NVST, acht door leden van stottervereniging Demosthenes, één door de afgevaardigde huisarts van het NHG, één door een GZ-psycholoog en één door een kinderarts van de NVK.

Een overzicht van de antwoorden die zijn gegeven is te vinden in het bestand ‘resultaten enquête stotteren’. In dit rapport zal een inventarisatie van de resultaten worden beschreven.

Naar aanleiding van de knelpuntanalyse zullen maximaal 8 uitgangsvragen worden opgesteld.

Inventarisatie enquêtes

Uit de enquêtes komt vooral de behoefte naar voren voor meer eenduidigheid rond de signalering, verwijzing, behandeling en nazorg bij stotteren. Het is van belang meer duidelijkheid te creëren over het moment waarop diagnostiek dient plaats te vinden, de inhoud van diagnostiek, de inhoud en timing van de behandelingen en wanneer en naar wie een patiënt met stotteren moet worden doorverwezen.

Onderstaand zullen per onderwerp de punten die naar voren zijn gekomen uit de enquête worden besproken.

Inhoudelijke knelpunten

In de enquête kon worden aangegeven welke knelpunten op het gebied van diagnostiek, behandeling en nazorg in de dagelijkse praktijk voorkomen ten aanzien van de zorg voor kinderen en volwassenen met stotteren. Deze knelpunten kunnen een belangrijke bron zijn voor het formuleren van de uitgangsvragen. Aangezien verwijzing frequent als knelpunt werd ervaren is in deze knelpuntinventarisatie verwijzing als een apart onderdeel opgenomen.

Verwijzing

Het moment waarop door signalerende instanties bij een vermoeden van stotteren actie wordt ondernomen en doorverwezen wordt veelvuldig als een knelpunt genoemd. Artsen Jeugdgezondheidszorg geven aan onvoldoende bekend te zijn met de signalen die wijzen op de noodzaak tot verwijzen. Patiënten en logopedist-stottertherapeuten geven tevens aan dat het moment waarop na een weinig succesvol behandeltraject wordt doorverwezen naar de logopedist-stottertherapeut, de psycholoog of een andere instanties regelmatig te laat is.

Diagnostiek

Er worden knelpunten ervaren met de toe te passen diagnostiek en daarbij behorende tijd die de diagnostiek vraagt en er is discussie over degene die de diagnostiek dient uit te voeren. Patiënten, logopedist-stottertherapeuten en kinderartsen geven aan dat stotteren een multifactoriële problematiek is, die meer vraagt dan diagnostisering en behandeling van het spreken. Daarbij hebben zij hun twijfels of de solistisch werkende logopedist de juiste professional is om de stotterproblematiek in zijn volle omvang in kaart te brengen en de juiste prioriteiten te stellen voor de aspecten waarop de interventie zich dient te richten en het moment waarop interventie wordt gestart.

Behandeling

Stotteren wordt in de literatuur beschreven als een multifactorieel communicatieprobleem, dat vaak gepaard gaat met comorbiditeit op gebied van taal, articulatie, sensomotoriek, cognities, emoties en gedrag en waarvan de problemen zich uiten in de sociaal-

communicatieve context. De onderlinge wisselwerking van de verschillende factoren is lastig te bepalen.

Voor de behandeling van stotteren bestaan verschillende mogelijkheden. Het is niet goed bekend welke interventie voor welke stotterende cliënt de meest effectieve is. Logopedisten en logopedist-stottertherapeuten geven aan dat zij op bewijs van werkzaamheid gebaseerde protocollen en richtlijnen missen om te bepalen welke stappen te nemen en welke doelen te stellen. Dit wordt in hogere mate als lastig ervaren als er sprake is van comorbiditeit. Eenzijdige nadruk op spraak en vloeiend spreken wordt door stottertherapeuten, kinderarts en leden van de patiëntenvereniging als te beperkt en mogelijk schadelijk ervaren. Er worden vraagtekens geplaatst bij degene die de behandeling of aspecten van de behandeling het best uit kan voeren. Variabiliteit en multicausaliteit van het stotteren vragen veel extra onderzoek en afstemming met andere betrokkenen in vergelijking met andere logopedische problemen. Logopedisten en logopedist-stottertherapeuten geven aan dat de financiering onvoldoende is geregeld om de cliënt de optimale zorg te bieden die nodig is.

Nazorg

Terugval na therapie bij stotteren is in de literatuur veelvuldig beschreven. Uit de enquête wordt duidelijk dat logopedisten, logopedist-stottertherapeuten en patiënten nazorg een wezenlijk aspect van de behandeling vinden. Hoe inhoud, timing en duur van de nazorg dient te worden georganiseerd is onvoldoende bekend en onvoldoende beschreven.

Knelpunten in de organisatie en het proces van zorg

De richtlijn stotteren voor kinderen en volwassenen biedt de mogelijkheid om samenwerking tussen de verschillende specialismen betrokken bij de zorg rondom mensen die stotteren te optimaliseren door het gezamenlijk maken van afspraken over organisatie van de zorg, samenwerking en communicatie.

Organisatie van de zorg

Kinderen en volwassenen met ontwikkelingstotteren worden nog vaak te laat verwezen voor uitgebreide diagnostiek. Enerzijds is er regelmatig sprake van een trage verwijzing door huisartsen, CB artsen, jeugdartsen en andere verwijzende instanties. Anderzijds onderkennen ouders en leerkrachten te laat dat nader onderzoek nodig is. Dit heeft mogelijk te maken met onvoldoende kennis over incidentie, verloop van stotteren en onvoldoende bekendheid met de mogelijkheden voor verwijzing. Maar ook doordat het stotteren soms wordt gebagatelliseerd. “Het gaat wel over.” De richtlijn stotteren bij kinderen en volwassenen kan verbetering genereren op het gebied van een keten van signalering en verwijzing door ouders, leerkrachten, huisartsen, CB artsen naar de logopedist, logopedist-stottertherapeut, psycholoog of een multidisciplinair diagnostisch team.

Afstemming tussen de verschillende disciplines gedurende de diagnostische en de interventiefase lijkt te beperkt. De afstemming zou kunnen verbeteren door een duidelijkere taakverdeling en het bevorderen van de onderlinge samenwerking.

Er worden knelpunten ervaren op gebied van de signalering en verwijzing, de taakverdeling van de zorg, de afstemming van de zorg en de financiering van de zorg.

Samenwerking en communicatie

De richtlijn stotteren bij kinderen en volwassenen kan goede initiatieven genereren voor een adequatere signalering van mogelijk stotteren door ouders en hulpverleners en een snellere verwijzing door artsen. Hierbij is het van belang communicatie over stotteren en de behandeling van ontwikkelingstotteren aan alle betrokkenen te verbeteren. Een goede afstemming over signalering, verwijzing, diagnose, behandeling, begeleiding en nazorg tussen cliënt en/of ouders van de cliënt, logopedisten, logopedist-stottertherapeuten, huisartsen, CB-artsen, jeugdartsen, keel-neus en oorartsen, kinderartsen, psychologen, kinderfysiotherapeuten, leerkrachten en peuterspeelzaalleidsters is noodzakelijk. Eenduidige protocollaire samenwerking moet leiden tot een soepele communicatie.

Prioritering

Uit de prioritering van de knelpunten die aangepakt kunnen gaan worden in de richtlijn stotteren komt een aantal thema's naar voren:

- Het benadrukken van het belang van tijdige signalering en correcte diagnostisering van stotteren.
- Het belang van uitgebreide diagnostiek door deskundigen die niet alleen het spraakmotorische aspect beoordelen maar de stotterproblematiek in volledige omvang onderzoeken.
- Het bepalen van de meest optimale behandeling, inclusief nazorg, voor de individuele cliënt op grond van het beste beschikbare wetenschappelijk bewijs, met aandacht voor de totale persoon in zijn sociaal – emotionele context.
- Het opzetten van duidelijke ketenzorg vanaf de signalering tot de nazorg met een duidelijk overzicht van overleg- en verwijzingsmogelijkheden met andere disciplines wanneer bijkomende problemen worden gesignaleerd die de behandeling hinderen.
- Communicatie over stotteren en de behandelmogelijkheden naar leken en hulpverleners.
- Financiering overeenkomstig de zorg die geboden dient te worden.

Bijlage 7: Afkortingen

%SS

Stotterpercentage

BAB

Behavior Assessment Battery

PDS

Persoon die stottert

SSI

Stuttering severity Instrument

TVS-L/NL

Test voor stotterernst lezers / niet-lezers