

Verhaltens- und fertigkeitenbasierte Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus

Behavioural and skill-based early interventions in children with autism spectrum disorders

Abstract

Introduction

Autism spectrum disorders (ASD) comprise typical or infantile autism (Kanner syndrome), Asperger's disorder and atypical autism or pervasive developmental disorder - not otherwise specified. The syndrome is characterized by deficits in (1) verbal and nonverbal communication, (2) reciprocal social interaction and (3) repetitive patterns of behaviour, interests and activities.

Early behavioural interventions are based on learning theory and behaviour therapy. They take into account specific deficits in perception, emotional reactions, social interaction and communication. In Germany, these comprehensive models are not widely evaluated and implemented.

Research questions

- What are the clinical effectiveness and safety of early behavioural or skills-based early interventions in autism compared to other interventions or to treatment as usual?
- What are specific factors responsible for the effectiveness?
- What are the cost-effectiveness and cost consequences of different early interventions in autism?
- Which legal, social and ethical aspects are relevant with regard to the implementation of the respective interventions in persons with autism?

Methods

Following a systematic review of the literature, controlled studies on early behavioural or skills-based interventions published since 2000 in English or German with children until the age of twelve are included and critically appraised. Studies must have at least ten participants per intervention group.

Results

In total, 15 publications based on 14 studies, eight systematic reviews and one health economic study are included. Most studies evaluate early interventions based upon the Lovaas model (Early intensive behavioural treatment (EIBT), Applied behavioural analysis (ABA)). Other evaluate pragmatic interventions or interventions based on other theoretical models like specific parent interventions, responsive education and prelinguistic milieu teaching, joint attention, symbolic play, and picture exchange communication system. Behaviour analytic interventions referring to the Lovaas model remain the most empirically evaluated early interventions in autism. Preschool children with autism can achieve improvements in cognitive and functional domains when treated within behavioural interventions with a frequency of at least 20 hours

Stefan Weinmann¹
Christoph Schwarzbach²
Matthias Begemann³
Stephanie Roll¹
Christoph Vauth²
Stefan N. Willich¹
Wolfgang Greiner⁴

1 Institut für Sozialmedizin,
Epidemiologie und
Gesundheitsökonomie,
Charité - Universitätsmedizin
Berlin, Berlin, Deutschland

2 Forschungsstelle für
Gesundheitsökonomie und
Gesundheitssystemforschung,
Leibniz Universität Hannover,
Hannover, Deutschland

3 Kompetenzzentrum
Versicherungswissenschaften
GmbH, Hannover,
Deutschland

4 Fakultät für
Gesundheitswissenschaften,
Universität Bielefeld,
Bielefeld, Deutschland

per week. It is not clear which is the minimum duration of effective interventions, and which active components are necessary for the effectiveness. There was no high quality evidence for other comprehensive early interventions. The identified health economic study is not suitable to evaluate the cost-effectiveness or cost consequences of early interventions. No publications concerning legal, ethical or social aspects were identified. The financial situation of persons with autisms and their families will be improved through the implementation of the "Pflege-Weiterentwicklungsgesetz" (Pf-WG). Further questions concern the organisation of care and the legal representation of autistic patients. Ethical questions arise mainly in the context of the equal supply of care to each individual patient in all regions of the country and the situation of the caregivers.

Discussion

There are only a few studies with high methodology evaluating early interventions in children with autism. Most studies have a short duration with a lack of blinded outcome assessment in many cases. The lack of high quality comparative studies does not allow answering questions of comparative effectiveness of early interventions in autism. It can be concluded that interventions referring to the Lovaas model seem to have the highest effectiveness. This seems to be especially true when they are run clinic-based. However, there was no solid evidence with regard to factors responsible for the effectiveness of programmes according to the ABA model. With regard to communication improvement, a systematic parent training seems to be superior to treatment as usual where a mixture of therapeutic elements is used. As well for clinical and health economic studies there is a substantial problem of generalisability into the German context. The identified health economic study is not suitable to evaluate the cost-effectiveness or cost consequences of early interventions.

Conclusion

Based on the available studies, there is no sufficient evidence for any of the evaluated behavioural early intervention programmes. Studies suggest that preschool children with autism in behavioural intervention programmes with a frequency of at least 20 hours per week can achieve improvements in cognitive and functional domains. There is no evidence that in a substantial portion of the children a normal development can be achieved by early interventions. Most research evidence is available for ABA. A minimal necessary intensity of interventions to achieve positive outcomes cannot be derived from literature. There are no valid statements possible as to cost-effectiveness or consequences of these interventions. Effective early interventions may reduce total autism costs in the long run. This may be achieved when the initial high treatment expenditures are more than compensated later if persons with this disorder have better social functioning.

Zusammenfassung

Einleitung

Zu den autistischen Syndromen werden der frühkindliche Autismus (Kanner-Syndrom), das Asperger-Syndrom und atypische Autismusformen oder nicht-spezifizierte tiefgreifende Entwicklungsstörungen gezählt. Bei den autistischen Syndromen liegen Beeinträchtigungen (1) der Kommunikation und (2) der sozialen Interaktion vor. Weiterhin weisen

(3) die Kinder in unterschiedlichem Maß stereotypes, repetitives Verhalten auf und haben bestimmte Sonderinteressen.

Verhaltensbasierte Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus basieren auf lerntheoretischen und verhaltenstherapeutischen Konzepten. Sie berücksichtigen die besonderen vorliegenden Beeinträchtigungen in der Wahrnehmung, der emotionalen Reaktionen, der sozialen Interaktionen sowie der Kommunikationsmuster. Die systematische Anwendung und Evaluation solcher Modelle in Deutschland ist aber bisher eher die Ausnahme.

Fragestellungen

- Wie sind die gesundheitliche Effektivität und Sicherheit von verhaltens- oder fertigkeitenbasierten Frühinterventionen bei autistischen Syndromen untereinander und verglichen mit einer Standardbehandlung?
- Gibt es Hinweise auf besondere Wirkfaktoren für die Effektivität?
- Wie ist die Kosten-Effektivität?
- Wie hoch sind die Kosten der verschiedenen Interventionen?
- Lassen sich aus ethischen und rechtlichen Überlegungen Schlüsse für die Anwendung der betrachteten Interventionen bei Betroffenen mit autistischem Syndrom in der Praxis ziehen?

Methoden

Basierend auf einer systematischen Literaturrecherche werden ab 2000 in deutscher oder englischer Sprache veröffentlichte kontrollierte Studien zu verhaltens- oder fertigkeitenbasierten Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus im Alter von bis zu zwölf Jahren eingeschlossen und bewertet. Die Mindestzahl an Studienteilnehmern muss zehn pro Interventionsgruppe betragen.

Ergebnisse

Insgesamt 15 Veröffentlichungen klinischer Primärstudien, acht systematische Reviews und eine ökonomische Veröffentlichung erfüllen die Einschlusskriterien. Die meisten Studien evaluieren intensive Frühinterventionen, die sich an das Modell von Lovaas (Early intensive behavioural treatment (EIBT), Applied behavioural analysis (ABA)) anlehnen. Einige Studien evaluieren andere Interventionen, die teilweise pragmatisch waren und teilweise einem bestimmten Modell folgen (spezifisches Elterntraining, Responsive education and prelinguistic milieu teaching (RPMT), Joint attention (JA) und symbolisches Spielen (SP), Picture exchange communication system (PECS)). Verhaltensanalytische Interventionen basierend auf dem Lovaas-Modell können weiterhin als die am besten empirisch abgesicherten Frühinterventionen angesehen werden. Vorschulkinder mit Autismus können durch verhaltensbasierte Interventionen mit einer Mindestintensität von 20 Stunden pro Woche Verbesserungen in kognitiven und funktionalen Bereichen (expressive Sprache, Sprachverständnis und Kommunikation) erreichen. Es bleibt jedoch unklar, welche Mindestintensität notwendig ist, und welche Wirkkomponenten für die Ergebnisse verantwortlich sind. Für andere umfassende Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus liegt keine hochwertige Evidenz vor. Die für den ökonomischen Teilbereich identifizierte und einbezogene Publikation ist methodisch und thematisch nicht dazu geeignet, die Fragen nach der Kosten-Effektivität oder den Kostenwirkungen von Frühinterventionen beim Autismus auch nur ansatzweise zu beantworten. Publikationen zu rechtlichen, ethischen oder sozialen Aspekten werden nicht identifiziert. Die finanzielle Lage der Betroffenen

und der Familien wird durch das Pflege-Weiterentwicklungsgesetz (Pf-WG) verbessert. Weitere rechtliche Belange betreffen die Betreuung und die Deliktfähigkeit der Menschen mit Autismus. Auch die gleichzeitige Betreuung und Versorgung sind insbesondere vor dem Hintergrund der Pflege im häuslichen Umfeld eine wichtige Frage.

Diskussion

Es gibt nur wenige methodisch angemessene Studien zur Beurteilung der Wirksamkeit von Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus. Die meisten Studien sind vergleichsweise kurz und haben teilweise kein verblindetes Ergebnis-Rating. Der Mangel an hochwertigen vergleichenden Studien lässt keine solide Antwort auf die Frage zu, welche Frühintervention bei welchen Kindern mit Autismus am wirksamsten ist. Programme nach dem Lovaas-Modell scheinen am wirkungsvollsten zu sein. Dies gilt vor allem, wenn sie klinikbasiert durchgeführt werden. Zu einzelnen Wirkfaktoren von Frühinterventionen nach dem ABA-Modell konnte allerdings keine solide Evidenz gefunden werden. Es zeigte sich, dass ein Elternttraining hinsichtlich der Verbesserung der Kommunikation besser ist als eine Routinebehandlung, in der eine Mischung von Therapieelementen angewendet wird. Sowohl für die klinischen als auch die gesundheitsökonomischen Studien besteht das Problem unzureichender Verallgemeinerbarkeit der Studienergebnisse in den deutschen Versorgungskontext. Die ökonomischen Studien sind methodisch und thematisch nicht dazu geeignet die aufgeworfenen Fragestellungen zu beantworten.

Schlussfolgerung

Basierend auf der derzeitigen Studienlage liegt für keine der untersuchten verhaltensbasierten Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus ausreichende Evidenz vor. Die in diesem Bericht ausgewerteten Studien und Reviews legen nahe, dass Vorschulkinder mit Autismus durch verhaltensbasierte Interventionen mit einer Mindestintensität von 20 Stunden pro Woche Verbesserungen in kognitiven und funktionalen Bereichen erreichen können. Es gibt bisher keine Hinweise, dass bei einem substantiellen Anteil der Kinder eine vollständige Normalisierung der Entwicklung erreicht werden kann. Die meiste Evidenz liegt für die ABA vor. Ein Minimum an erforderlicher oder sinnvoller Behandlungsintensität kann jedoch nicht angegeben werden. Eine professionelle Umsetzung eines verhaltensbasierten Frühinterventionsprogrammes in engem und ausführlichem Kontakt mit den Kindern und unter Einbeziehung der Eltern erscheint sinnvoll. Zur Kosten-Effektivität von intensiven Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus können keine validen Angaben gemacht werden. Effektive Frühinterventionen könnten jedoch die Gesamtkosten des Autismus langfristig reduzieren, indem die anfallenden hohen Aufwendungen durch eine spätere bessere soziale Anpassung überkompensiert werden.

Schlüsselwörter: Autismus, Frühinterventionen, Verhaltenstherapie, frühkindliche Entwicklung

Executive Summary

1. Introduction

Autism spectrum disorders (ASD) comprise typical or infantile autism (Kanner syndrome), Asperger's disorder and atypical autism or pervasive developmental disorder - not otherwise specified. The syndrome is characterized by deficits in (1) verbal and nonverbal communication, (2) reciprocal social interaction, and (3) repetitive patterns of behaviour, interests and activities.

In the last years epidemiological studies have shown increased prevalence rates; however, it is not clear if this is due to methodological problems of studies, the change of diagnostic criteria, or if it reflects true rising prevalence. People with autism often require care and support over longer time periods, sometimes life-long. Children with autism attend all available kinds of nursing and school classes with special forms of instruction and specialized classes in smaller groups are implemented to meet the special needs of the children. However, adequate support with respect to the special needs of the disorder is not always available in Germany. Adult persons with autism receive care in different settings, institutions and social services; only some of these are adequately prepared to deal with their specific needs.

For autism, pharmacologic as well as psychosocial treatment options are available. Some medications can improve behavioural or emotional aspects of the disorder. However, there is no evidence that the course of the disorder can be influenced. Most interventions are psychosocial interventions and aim at improving child development and behaviour and strengthen or shape familial and social bindings and contacts. Most psychosocial interventions are based on learning theory and behaviour therapy and take into account the specific deficits in perception, emotional reactions, social interaction and communication.

In Germany, these comprehensive models are not widely evaluated and implemented. There are strong expectations with regard to these early behavioural interventions developed in the USA as early studies showed that a significant portion of treated children reached cognitive improvements that made them undistinguishable from normal peers and could attend normal classes. However, these early studies have been criticised because of methodological problems and selection effects. Thus newer studies have to be evaluated in order to get information on which early interventions are worthwhile being implemented in Germany and what are the active components.

2. Research questions

The evaluation of early intervention programmes in autism is a great challenge due to the nature of the disorder and methodological problems. Currently there are no uniform evaluation standards. Study outcome parameters in autism research should aim at the core symptoms and de-

ficits including development, communication, social interaction, language and behaviour as well as questions of sleep, aggression, intelligence, quality of life and objective measures as normal school attendance rates and institutionalization rates. The objective of this health technology assessment (HTA) is to perform an evaluation of the clinical effectiveness and safety of behavioural or skills-based early interventions in autism among each other and against routine treatment, and to look at active ingredients like type and intensity of treatment.

The economic part aims at estimating the cost-effectiveness and cost consequences of different behavioural or skills-based early interventions in autism. Furthermore some ethical, legal and social aspects are discussed.

3. Methods

The relevant literature for the topic is identified through a systematic electronic review, a hand-search, and the contacting of appropriate institutions. However, the expert survey does not claim completeness.

Controlled studies published since 2000 in English or German with children until the age of twelve years having a diagnosis of autism according to internationally accepted criteria (Diagnostic and statistical manual of mental disorders (DSM) or International classification of diseases (ICD) criteria) are included. The minimum participant number must be ten per intervention group. The study must evaluate behavioural or social skills interventions specifically developed for autism. A behavioural or social skills intervention is defined as an intervention aiming to improve the behaviour and/or functional skills or child development using strategies of behaviour therapy or social skills training. Outcome parameters must be assessed at least six months or later after the beginning of the study. No restrictions are defined with regard to the endpoints under investigation. All studies are selected independently by two researchers according to predefined inclusion and exclusion criteria.

4. Results

Using a list of search terms, a total of 2,281 clinical studies (999 publications or primary studies, 1,251 publications of reviews, and 30 publications of HTA), 235 economic and 135 ethical/legal studies are identified. Following a review of the abstracts, 102 clinical and 52 economic publications are marked as being potentially relevant. Of the 102 clinical studies, a total of 15 fulfil the predefined inclusion criteria and are included in the present HTA.

These 15 publications are based on 14 studies, eight are randomized controlled trials (RCT), six are non-randomized controlled trials. Only one health economic study is included. Three evidence-based practice guidelines are reported. Six studies are conducted in the USA, five in Great Britain and one each in Israel, Australia and Norway. No study was performed in Germany.

Most studies evaluate early interventions based upon the Lovaas model (Early intensive behavioural treatment (EIBT), Applied behavioural analysis (ABA)). Other evaluate pragmatic interventions or interventions based on other theories like specific parent interventions, Responsive education and prelinguistic milieu teaching (RPMT), joint attention und symbolic play, and Picture exchange communication system (PECS). The evaluated interventions and control interventions differ considerably. The latter include treatment as usual, eclectic treatment using a mixture of elements, low-frequency treatment and waiting lists.

Based on a systematic evaluation of primary studies, reviews and HTA reports, behaviour analytic interventions referring to the Lovaas model remain the most empirically evaluated early interventions for children with autism. In most studies children with a higher initial intelligence quotient (IQ) had a better outcome than those with lower IQ. The effectiveness varies strongly with the type of the control intervention. Studies suggest that preschool children in behavioural interventions with a frequency of at least 20 hours per week with autism can achieve improvements in cognitive and functional domains (expressive and receptive language and communication). It is not clear which is the minimum duration of effective interventions, and which active components are necessary. In addition there is no solid evidence of a superiority of very early interventions. On the basis of the selected studies no solid statements are possible with regard to factors responsible for the effectiveness of programs according to the Lovaas model. On the other hand, a systematic parent training seems to be superior to treatment as usual with regard to communication improvement.

There was no high quality evidence for other comprehensive early interventions. There was weak evidence that improvements in social communication and language observed in studies with PECS or RPMT is effectively transferred into childrens' daily life.

The identified health economic study is not suitable to evaluate the cost-effectiveness or cost consequences of early interventions in autism. In this study costs for early intervention programmes (according to the Lovaas model) of between GBP 15,000 and 30,000 were reported. However, the study had severe methodological limitations like lacking reference times. Effectiveness measures were not combined with cost estimates. Thus no statement is possible with regard to resource allocation. In a descriptive study a value of more than USD 60,000 for a behavioural early intervention programme is given. Valid statements for the German context are not possible.

No publications concerning legal, ethical or social aspects were identified. The financial situation of persons with autisms and their families will be improved through the implementation of the "Pflege-Weiterentwicklungsgesetz" (Pf-WG). Further questions address the organisation of care and the legal representation of autistic patients. Ethical questions arise mainly in the context of the equal supply of care to each individual patient in all regions of

the country and the situation of the caregivers. Another point is the situation of the caregivers in a home setting, especially as they get older.

5. Discussion

There are only a few studies with qualitatively high methodology evaluating early interventions in autism. Most studies have a short duration with no blinded outcome assessment. Manual fidelity has not always been assessed. In most studies standardized outcome parameters are used. However, for example the Wechsler intelligence scales used in many studies may not be optimal in autism research.

The lack of high quality comparative studies does not allow answering questions of comparative effectiveness of early interventions in autism. It can be concluded that interventions referring to the Lovaas model remain the most empirically evaluated early interventions in autism. This seems to be especially true when they are run clinic-based. A systematic parent training seems to be superior to treatment as usual with regard to communication improvement.

As well for clinical and health economic studies there is a substantial problem of generalizability into the German context. Clinical studies show that effect sizes differ according to the type of the control intervention. Therefore further studies in Germany may be desirable.

There is evidence that intervention programmes including parents are of utmost importance. Parents should be trained as co-therapists and should know the relevant techniques. However, early intervention programmes should be adjusted to the families' needs. Interventions seem to be successful when they support families and help them to cope with and communicate adequately with their children. For the children it is important to be in close contact with peers at the same age.

Early interventions should focus on specific core elements like joint attention, expressive language and language comprehension, imitation and social interaction. It seems not appropriate to take into consideration all relevant aspects of childrens' daily life at the same time. A manual-based approach seems to have advantages compared to eclectic programmes with a mixture of different elements. There should be room for an individualized approach.

The identified economic study is not suitable to evaluate the cost-effectiveness or cost consequences of early interventions.

Ethical considerations for patients with autism focus on the autonomy of subjects, especially with respect to informed consent, while participating in studies. Other questions concern the equal accessibility of possibilities for treatment and questions that arise in the context of different treatment options.

The legal situation in Germany has changed just recently. A law, called Pf-WG, is intended to improve not only the financial situation of but also the support for patients and usual care givers. Another legal question concerns the

legal capacity respectively the legal representation of people with autism. Depending on the severity of the illness, people with autism might not have the capacity to legally represent themselves and therefore cannot for example sign binding contracts. In this case a legal guardian (for young adults usually the parents) has to be assigned. Furthermore people with autism will probably also lack their capacity for delicts. Therefore they cannot be held liable for their acts. If a person with autism causes damages, it is possible, that the victims will end up without any compensation. Ethical questions are discussed with respect to an equal access to all existing health care options. This is especially the case in view of the home setting that is usually applicable in Germany by the respective families. Another concern in this context is the care burden for the caregivers, particularly as they get older.

6. Conclusion

Based on the available studies there is no sufficient evidence for any of the evaluated early intervention programmes. Studies suggest that preschool children with autism in behavioural intervention programmes with a frequency of at least 20 hours per week can achieve improvements in cognitive and functional domains. There is no evidence that in a substantial portion of the children a normal development can be achieved by early interventions. In the studies with the best outcomes, for up to half of the included children an acceleration of the development could be achieved so that they approached the values of their normal peers. In other studies only modest improvements could be achieved compared to treatment as usual. Research evidence suggests that the core symptoms of autism are amenable to early treatment. Most research evidence is available for ABA. However, effect sizes depended on the control interventions with studies with higher intense control interventions having lower effect sizes. A minimal necessary intensity of interventions to achieve positive outcomes cannot be derived from literature. There are no valid statements possible as to cost-effectiveness or cost consequences of these interventions.

Kurzfassung

1. Einleitung

Zu den autistischen Syndromen werden der frühkindliche Autismus (Kanner-Syndrom), das Asperger-Syndrom und atypische Autismusformen oder nicht-spezifizierte tiefgreifende Entwicklungsstörungen gezählt. Bei den autistischen Syndromen liegen Beeinträchtigungen (1) der Kommunikation und (2) der sozialen Interaktion vor. Weiterhin weisen (3) die Kinder in unterschiedlichem Maß stereotypes, repetitives Verhalten auf und haben bestimmte Sonderinteressen.

In den letzten Jahren zeigten epidemiologische Studien einen Anstieg der Prävalenzrate. Bisher ist ungeklärt, ob diese Zunahme hauptsächlich durch Unterschiede in der Studienmethodik erklärt werden kann oder tatsächlich ein epidemiologisch häufigeres Auftreten widerspiegelt. Menschen mit autistischen Syndromen benötigen über längere Zeit sowie oft das gesamte Leben Unterstützung und Betreuung. Kinder bzw. Jugendliche mit Autismus besuchen alle verfügbaren Kindergarten- und Schularten, wobei spezielle Unterrichtsformen in kleinen Gruppen angewendet werden, um den besonderen Bedürfnissen der Kinder Rechnung zu tragen. Eine dem Syndrom gerecht werdende Förderung und Integration der betroffenen Kinder ist allerdings bisher in Deutschland unzureichend verwirklicht. Erwachsene Menschen mit Autismus werden in Deutschland von unterschiedlichen Einrichtungen und sozialen Diensten betreut, wobei nur sehr wenige auf deren spezifische Problematik eingestellt sind.

Für den Autismus existieren sowohl medikamentöse als auch nicht-medikamentöse Behandlungsverfahren. Einige Medikamente können bestimmte Aspekte des Verhaltens, der Affekte oder des Aktivitätsniveaus verändern. Hinweise auf eine Verbesserung des Gesamtverlaufs durch medikamentöse Interventionen existieren bisher nicht, so dass die wichtigsten Interventionen nicht-medikamentöser Natur sind und auf die Förderung der Entwicklung, die Beeinflussung des Verhaltens und Förderung der familiären sowie sozialen Bindungen zielen. Mittlerweile gibt es eine Vielzahl von psychosozialen Interventionen. Die meisten basieren auf lerntheoretischen sowie verhaltenstherapeutischen Konzepten und berücksichtigen die besonderen vorliegenden Beeinträchtigungen in der Wahrnehmung, der emotionalen Reaktionen, der sozialen Interaktionen und der Kommunikationsmuster.

Die systematische Anwendung und Evaluation solcher Modelle in Deutschland ist aber bisher eher die Ausnahme. An die zumeist in den Vereinigten Staaten von Amerika (USA) entwickelten intensiven verhaltensbasierten Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus werden seit der Veröffentlichung von Studien, in denen eine bedeutender Teil der Kinder ein Intelligenzniveau im Normbereich Gleichaltriger und eine Aufnahme in eine normale Schule erreichte, hohe Erwartungen geknüpft. Die frühen Studien wurden aufgrund von methodischen Mängeln und Selektionseffekten allerdings kritisiert, so dass anhand der Auswertung neuerer Untersuchungen Hinweise gewonnen werden müssen, welche Frühinterventionen auch in Deutschland gefördert werden sollten und welche Interventionsbestandteile zur Wirksamkeit beitragen.

2. Fragestellungen

Die Evaluation von Frühinterventionsprogrammen stellt aufgrund der Natur der Störung und methodischer Probleme eine große Herausforderung dar. Es gibt derzeit keine einheitlichen Standards zur Beurteilung der Effektivität von Frühinterventionen beim Autismus. Ergebnisparameter bei Studien zu autistischen Syndromen sollen Kernbereiche des Autismus (wie Entwicklungsschritte, kommu-

nikative Fähigkeiten, soziale Interaktionen, sprachliche Fähigkeiten, repetitive Verhaltensweisen), besondere Verhaltensauffälligkeiten (wie Schlafstörungen und Aggression), Intelligenz und Lebensqualität aber auch objektive Parameter wie Schulaufnahme oder die Notwendigkeit einer Heimaufnahme erfassen. Untersucht wird in diesem Health Technology Assessment (HTA)-Bericht die Fragestellung, wie die gesundheitliche Effektivität und Sicherheit von verhaltens- oder fertigkeitenbasierten Frühinterventionen bei autistischen Syndromen untereinander und verglichen mit einer Standardbehandlung ist. Weiterhin wird geprüft, ob es Hinweise auf besondere Wirkfaktoren für die Effektivität wie z. B. Art und Intensität der Behandlung gibt.

Für den ökonomischen Teil liegt die Frage nach der Kosten-Effektivität der verschiedenen verhaltens- und/oder fertigkeitenbasierten Interventionen und den Kosten einer derartigen Betreuung zugrunde.

Weiterhin soll geprüft werden, ob sich aus ethischen und rechtlichen Überlegungen heraus Schlüsse für die Anwendung der betrachteten Interventionen bei Betroffenen mit autistischem Syndrom in der Praxis ziehen lassen.

3. Methoden

Die relevante Literatur wird durch eine systematische elektronische Literaturrecherche, eine Handrecherche und das Anschreiben einschlägiger Institutionen identifiziert. Dabei erhebt diese Befragung keinen Anspruch auf Vollständigkeit.

Eingeschlossen werden ab 2000 in deutscher oder englischer Sprache veröffentlichte kontrollierte Studien mit Kindern im Alter von bis zu zwölf Jahren, die eine Diagnose aus dem Autismusspektrum haben. Die Diagnose muss mittels eines etablierten Diagnose- und Klassifikationssystems (Diagnostic and statistical manual of mental disorders (DSM) oder International classification of diseases (ICD)) erfolgen. Die geprüften Interventionen sind verhaltens- oder fertigkeitenbasierte Interventionen, die speziell für Kinder mit Autismus entwickelt werden. Eine verhaltens- oder fertigkeitenbasierte Intervention wird hier definiert als Intervention, die eine Verbesserung des Verhaltens und/oder der funktionellen Fertigkeiten oder des Entwicklungsprozesses der Kinder zum Ziel hat und verhaltenstherapeutische Strategien oder ein Training spezifischer Fertigkeiten verwendet. Die Mindestzahl an Studienteilnehmern muss zehn pro Interventionsgruppe betragen. Lediglich Studien mit einer Erhebung der Outcomes (Behandlungsergebnisse) von mindestens sechs Monaten nach Beginn der Intervention werden berücksichtigt. Es gibt keine Einschränkungen hinsichtlich der untersuchten Endpunkte. Die Auswahl der Studien erfolgt unabhängig voneinander durch zwei Wissenschaftler unter Beachtung der vorab definierten Ein- und Ausschlusskriterien.

4. Ergebnisse

Auf der Grundlage der definierten Suchbegriffe und der erfolgten Recherche werden nach Ausschluss doppelter Studien 2.281 Treffer für die medizinische Recherche (davon 999 Treffer für klinische Primärstudien, 1.252 Treffer für klinische systematische Reviews sowie Metaanalysen und 30 Treffer für HTA-Berichte), 235 gesundheitsökonomische und 135 Treffer für ethische/rechtliche/soziale Aspekte identifiziert. Nach Durchsicht der Abstracts werden 102 klinische und 52 ökonomische Texte als Volltexte bestellt. Davon erfüllen letztlich 15 Veröffentlichungen klinischer Primärstudien, acht systematische Reviews und eine ökonomische Veröffentlichung die vorab definierten Einschlusskriterien. Drei Behandlungsleitlinien, in denen Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus genannt sind, werden berichtet.

Die 15 identifizierten Veröffentlichungen klinischer Primärstudien basieren auf 14 Studien, davon acht randomisierte kontrollierte Studien (RCT) und sechs nicht-randomisierte kontrollierte Studien. Sechs Studien wurden in den USA, fünf Studien in Großbritannien und jeweils eine Studie in Israel, Australien und Norwegen durchgeführt, keine in Deutschland.

Die meisten Studien evaluieren intensive Frühinterventionen, die sich an das Modell von Lovaas (Early intensive behavioural treatment (EIBT), Applied behavioural analysis (ABA)) anlehnen. Einige Studien bewerten andere Interventionen, die teilweise pragmatisch waren und teilweise einem bestimmten Modell folgen (spezifisches Elterntaining, Responsive education and prelinguistic milieu teaching (RPMT), Joint attention (JA), symbolisches Spielen (SP) und Picture exchange communication system (PECS)). Die untersuchten Interventionen waren ebenso wie die Vergleichsinterventionen (teilweise Routinebehandlung, sogenannte eklektische Behandlung aus Mischelementen, Warteliste, niederfrequenter Behandlung oder anderes spezifisches Behandlungskonzept) sehr unterschiedlich.

Auf der Basis der ausgewerteten systematischen Reviews und der ausgewerteten Primärstudien können verhaltensanalytische Interventionen basierend auf dem Lovaas-Modell weiterhin als die am besten empirisch abgesicherten Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus angesehen werden. In den meisten Studien hatte die Subgruppe der Kinder mit initial höherem Intelligenzquotienten (IQ) bessere Behandlungsergebnisse als die Gruppe mit niedrigerem IQ. Insgesamt hingen die Effektstärken stark von der Art der Routinebehandlung ab. Die Studien legen nahe, dass Vorschulkinder mit Autismus durch verhaltensbasierte Interventionen mit einer Mindestintensität von 20 Stunden pro Woche Verbesserungen in kognitiven und funktionalen Bereichen (expressive Sprache, Sprachverständnis und Kommunikation) erreichen können. Die Kernsymptome des Autismus erscheinen daher durchaus einer frühen Behandlung zugänglich. Es bleibt jedoch unklar, welche Mindestintensität notwendig ist und welche Wirkkomponenten für die Ergebnisse verantwortlich sind. Zudem gibt es keine solide direkte Evidenz

für eine Überlegenheit eines frühen Beginns der Intervention. Auf der Basis der ausgewählten Studien können keine soliden Aussagen zu Wirkfaktoren eltern-, klinik- oder zentrumsbasierter Programme nach dem Lovaas-Modell getroffen werden.

Für andere umfassende Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus liegt keine hochwertige Evidenz vor. Auch für das PECS und das RPMT, die im Grunde genommen keine umfassenden Frühinterventionen, sondern theoriegeleitete zusätzliche Interventionen darstellen, liegen wenige Hinweise vor, dass die in den Studien beobachteten Vorteile in der sozialen Kommunikation und der Sprache auf den Alltag der Kinder übertragen werden können.

Die für den ökonomischen Teilbereich identifizierte und einbezogene Publikation ist methodisch und thematisch nicht dazu geeignet, die Kosten-Wirksamkeit oder die Kostenwirkungen von Frühinterventionen beim Autismus auch nur ansatzweise zu beantworten. In dieser Studie werden Kosten für ein Frühinterventionsprogramm (hier nach dem Modell von Lovaas) zwischen GBP 15.000 und GBP 30.000 angegeben. Der Bezugszeitpunkt dieser Daten wird nicht deutlich. Die Kosten werden weiterhin nicht mit Effektivitätsmaßen verknüpft, so dass keine Aussage über die Effizienz der eingesetzten Mittel getroffen werden kann. In einer deskriptiven Publikation wird ebenfalls sehr kurz auf die Kosten der Implementierung von verhaltenbasierten Frühinterventionsprogrammen eingegangen. Dabei wird angegeben, dass diese mehr als USD 60.000 betragen kann. Valide Aussagen für den deutschen Versorgungskontext sind nicht möglich.

Bezüglich der rechtlichen, ethischen und sozialen Fragestellungen werden keine Publikationen identifiziert. Die finanzielle Lage der Betroffenen und der Familien wird durch das Pflege-Weiterentwicklungsgesetz (Pf-WG) verbessert. Weitere rechtliche Fragestellungen im Umfeld des Autismus ergeben sich z. B. im Zusammenhang mit der Einschränkung der Entscheidungs- bzw. Einwilligungsfähigkeit, Problemen der Geschäftsfähigkeit bzw. der rechtlichen Vertretung der betroffenen Personen. Die Betreuung ist auch aus ethischen Gesichtspunkten relevant, da die Patienten in der Mehrheit im häuslichen Umfeld betreut werden, wobei die Betreuenden oft von den autistischen Personen überlebt werden. Auch die gleichzeitige Betreuung und Versorgung in Deutschland sind insbesondere vor dem Hintergrund der Pflege im häuslichen Umfeld wichtige Fragen.

5. Diskussion

Es gibt nur wenige methodisch angemessene Studien zur Beurteilung der Wirksamkeit von Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus. Die meisten Studien sind vergleichsweise kurz und haben teilweise kein verblindetes Ergebnis-Rating. In vielen Fällen wurde die Einhaltung der therapeutischen Regeln (Manualtreue) nicht erhoben. Es wurden zwar zumeist standardisierte Ergebnisparameter verwendet, jedoch sind beispielsweise die zur Messung des IQ angewendeten Wechsler-Intelligenzskalen

für Kinder mit Autismus nur bedingt geeignet, da sie zu einer Unterschätzung der Intelligenz bei den betroffenen Kindern führen können.

Der Mangel an hochwertigen vergleichenden Studien lässt keine solide Antwort auf die Frage zu, welche Frühintervention bei welchen Kindern mit Autismus am wirksamsten ist. Insgesamt kann festgestellt werden, dass intensive, verhaltensbasierte Programme nach dem Lovaas-Modell am wirksamsten erscheinen. Dies gilt vor allem, wenn sie klinikbasiert durchgeführt werden. Ein Elterntaining ist hinsichtlich der Verbesserung der Kommunikation besser als eine Routinebehandlung, in der eine Mischung von Therapieelementen angewendet wird. Sowohl für die klinischen als auch die gesundheitsökonomischen Studien besteht das Problem unzureichender Verallgemeinerbarkeit der Studienergebnisse in den deutschen Versorgungskontext. Die klinischen Studien zeigen, dass die Effektstärken stark von der Art der Kontrollintervention abhängen. Daher sind insbesondere weitere Studien wünschenswert, die im deutschen oder einem vergleichbaren Gesundheitssystem durchgeführt werden.

Es gibt deutliche Hinweise, dass der Einbezug der Eltern in die Interventionsprogramme von großer Bedeutung ist. Idealerweise sollten Eltern zu Kotherapeuten ausgebildet werden und die Techniken beherrschen. Frühinterventionsprogramme sollten jedoch auch den Bedürfnissen der Familien entgegenkommen und müssen entsprechend angepasst werden.

Frühinterventionsprogramme erscheinen am erfolgreichsten, wenn sie die Familien unterstützen und darauf zielen, ihnen Kompetenzen im Umgang mit den betroffenen Kindern zu vermitteln. Für die Kinder erscheinen Interaktionen mit Gleichaltrigen von großer Bedeutung. Erst dann kann eine Verallgemeinerung der während der spezifischen verhaltenbasierten Interventionen erlernten Fertigkeiten im Alltag der Kinder und in den täglichen Routinen erreicht werden. Ebenso scheinen sich dann auch typische autistische Verhaltensweisen zu verringern.

Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus sollten auf spezifische Kernbereiche zielen (wie geteilte Aufmerksamkeit, JA, bestimmte sprachliche Fertigkeiten, Imitation, soziale Interaktion). Die gleichzeitige umfassende Berücksichtigung sämtlicher Lebensbereiche erscheint weniger sinnvoll. Ein manualisiertes Behandlungsmodell scheint Vorteile gegenüber einer Mischung von vielen Einzelbestandteilen zu haben. Allerdings sollte das Vorgehen in jedem Fall individualisiert sein und genügend Raum für Modifikationen lassen.

Die ökonomischen Studien sind methodisch und thematisch nicht dazu geeignet, die aufgeworfenen Fragestellungen zu beantworten.

6. Schlussfolgerung

Basierend auf der derzeitigen Studienlage liegt für keine der untersuchten verhaltenbasierten Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus ausreichende Evidenz vor. Die in diesem Bericht ausgewerteten Studien und Reviews

legen nahe, dass Vorschulkinder mit Autismus durch verhaltensbasierte Interventionen mit einer Mindestintensität von 20 Stunden pro Woche Verbesserungen in kognitiven und funktionalen Bereichen erreichen können. Es gibt bisher keine Hinweise, dass bei einem substantiellen Anteil der Kinder eine vollständige Normalisierung der Entwicklung erreicht werden kann. In den Studien mit den besten Behandlungsergebnissen konnte bei bis zur Hälfte der Kinder eine deutliche Beschleunigung der Entwicklungsrate erreicht werden, so dass diese Kinder in die Nähe der Normalwerte für altersentsprechende Kinder oder ganz in den Normwertbereich rücken. Bei anderen Studien konnten allerdings nur leichte Verbesserungen im Vergleich zur Routinebehandlung gezeigt werden. Die Kernsymptome des Autismus erscheinen daher durchaus einer frühen Behandlung zugänglich. Die meiste Evidenz liegt für die ABA vor. Allerdings erscheinen die Effekte umso geringer, desto geringer die Behandlungsintensität ist. Ein Minimum an erforderlicher oder sinnvoller Behandlungsintensität kann jedoch nicht angegeben werden. Zur Kostenwirkung und Kosten-Effektivität von intensiven Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus können keine validen Angaben gemacht werden.

Korrespondenzadresse:

Christoph Schwarzbach
Forschungsstelle für Gesundheitsökonomie und
Gesundheitssystemforschung, Leibniz Universität
Hannover, Königsworther Platz 1, 30167 Hannover, Tel.:
+ 49-511/762-5167
cms@ivbl.uni-hannover.de

Bitte zitieren als

Weinmann S, Schwarzbach C, Begemann M, Roll S, Vauth C, Willich SN, Greiner W. Verhaltens- und fertigkeitenbasierte Frühinterventionen bei Kindern mit Autismus. *GMS Health Technol Assess.* 2009;5:Doc10.

Artikel online frei zugänglich unter

<http://www.egms.de/en/journals/hta/2009-5/hta000072.shtml>

Der vollständige HTA-Bericht steht zum kostenlosen Download zur Verfügung unter:

http://portal.dimdi.de/de/hta/hta_berichte/hta248bericht_de.pdf

Copyright

©2009 Weinmann et al. Dieser Artikel ist ein Open Access-Artikel und steht unter den Creative Commons Lizenzbedingungen (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/3.0/deed.de>). Er darf vervielfältigt, verbreitet und öffentlich zugänglich gemacht werden, vorausgesetzt dass Autor und Quelle genannt werden.