

. UNIVERSITATEA DE MEDICINĂ ȘI FARMACIE „ CAROL DAVILA”, BUCUREȘTI

ȘCOALA DOCTORALĂ

PSIHIATRIA COPILULUI ȘI ADOLESCENTULUI

Teză de doctorat

**ANALIZA STATISTICO- MATEMATICĂ A ARIILOR
CARE SE DEZVOLTĂ PRIN TERAPIE COMPORTAMENTALĂ LA COPII
CU TULBURARE DE SPECTRU AUTIST**

COORDONATOR ȘTIINȚIFIC

PROF. DR. IULIANA DOBRESCU

DOCTORAND

MARIA CRISTINA NEDELCU

BUCUREȘTI

2019

CUPRINS

Pagina

I. PARTEA GENERALĂ

I.1. Importanța lucrării de față	3
I.2. Tulburările de spectru autist	
I.2.1 Epidemiologie	4
I.2.2 Simptomatologie	5
I.2.3 Probleme asociate	6
I.2.4 Tulburări incluse în spectrul autismului	7
I.2.5 Etiologie și factori de risc	8
I.3. Instrumente de diagnostic în tulburările de spectru autist	9
I.4. Intervenția în tulburările de spectru autist	10

II. CONTRIBUȚII PERSONALE

II.1. Scop și obiective	13
II.2. Ipoteze de lucru	13
II.3. Materiale și metode.....	14
II.4. Descrierea programului de terapie	18
II.5. Rezultate	20
II.6. Concluzii și discuții	28
II.7. Limitările studiului	30

III. Bibliografie	32
--------------------------------	-----------

I. PARTEA GENERALĂ

I.1 Importanța lucrării de față

Cercetarea de față își propune să determine influența terapiei comportamentale asupra dezvoltării ariilor de funcționare la copiii diagnosticați cu tulburări de spectru autist. Tulburările de spectru autist reprezintă o preocupare pentru toți specialiștii în sănătatea mintală a copilului și adolescentului, având în vedere datele de prevalență și provocările integrării sociale ale acestor pacienți.

Având în vedere heterogenitatea tulburărilor de spectru autist și multitudinea de simptome și de niveluri de severitate care pot apărea în cazul acestei patologii, dar și modificarea în dinamică a simptomatologiei la același individ, este o provocare pentru specialiștii în sănătate mintală să evalueze și să recomande un program de intervenție eficient.

Un program terapeutic individualizat, instituit la o vârstă cât mai mică și cuprinzând terapie comportamentală în manieră intensivă poate contribui la ameliorarea simptomatologiei în cazul pacienților tulburări de spectru autist. Psihoterapia vizează creșterea adaptabilității, a autonomiei și a integrării copilului prin dezvoltarea ariilor de funcționare – social, comunicare, autoservire, motor, etc. (B. O'Connor, 2010)

Până în prezent, în România nu avem cunoștință de efectuarea unor cercetări pe un lot omogen și extins de pacienți cărora să le fie urmărită evoluția pe arii de funcționare în urma terapiei comportamentale, ale căror rezultate să fie publicate în literatura de specialitate. Prin cercetarea de față ne-am propus constituirea unui lot de pacienți a căror intervenție terapeutică să fie una omogenă, sub coordonarea aceleași persoane. Astfel, metodele terapeutice și de intervenție aplicate sunt aceleași pentru fiecare copil inclus în lot. În urma terapiei, s-a analizat din punct de vedere statistic evoluția pacienților pe ariile de funcționare pentru a determina dacă și în ce măsură acestea se îmbunătățesc prin metodele comportamentale.

Considerăm că rezultatele cercetării de față demonstrează eficiența și beneficiile

intervenției comportamentale asupra dezvoltării ariilor de funcționare la pacienții cu tulburări de spectru autist și reprezintă un punct de plecare important pentru specialiștii în sănătate mintală în vederea dezvoltării unor viitoare studii. De asemenea, rezultatele acestei cercetări oferă o bază științifică a eficienței terapiei comportamentale, atât de necesară pentru părinții copiilor diagnosticați cu tulburările de spectru autist și pentru toate persoanele implicate în îngrijirea acestor pacienți.

I.2 Tulburările de spectru autist

I.2.1 Epidemiologie

Termenul de “autism” a fost folosit pentru prima dată de psihiatrul german Eugene Bleuler în 1911 pentru a descrie simptomele severe ale unui caz de referindu-se la ”retragerea din realitate și crearea unei lumi total imaginare trăite în interior”. Consacrarea termenului a fost realizată de către Leo Kanner, într-un articol scris în 1943 despre ceea ce el numea “tulburări autiste înăscute ale contactului afectiv”, considerând ca simptome principale “autismul extrem, comportamentul obsesiv, stereotipia și ecolalia”. (Evans, 2013)

Manualul de Diagnostic și Clasificare Statistică a Tulburărilor Mentale DSM 5, publicat în 2013 de American Psychiatric Association, definește **tulburările de spectru autist ca partea a grupului de tulburări de neurodezvoltare** care este caracterizată prin deficiente persistente privind:

- comunicarea și interacțiunea socială în diverse contexte-inclusiv deficiente în ce privește reciprocitatea socială, comportamente comunicative nonverbale folosite pentru interacțiunea socială și abilitățile pentru dezvoltarea, menținerea și înțelegerea relațiilor.
- modele restrictive, repetitive de comportament, interese sau activități (DSM 5, 2016).

În ultimul deceniu Tulburarea de spectrul autist a devenit un domeniu de mare interes atât în cercetare cât și în mass media. Acest lucru se datorează creșterii explozive a numărului de cazuri înregistrate în întreaga lume OMS estimând 1 din 60 de copii are TSA. Studiile

epidemiologice efectuate în ultima jumătate de secol sugerează creșterea prevalenței la nivel global (World Health Organization, 2017)

În aprilie 2018, CDC publică un raport conform căruia, **prevalența** într-o cohortă din anul 2014 a fost de **1 din 59 de copii cu vârsta de 8 ani** (16.8 per 1000 de copii) , raportată din 11 centre ADDM din SUA. Prevalența a variat în funcție de sex și rasă/etnicitate astfel: băieții au fost de 4 ori mai probabil să fie identificați cu TSA decât fetele. (Baio, 2018, <https://www.cdc.gov/ncbddd/autism/data.html>)

II.2.2 Simptomatologie

TSA este o tulburare de neurodezvoltare extrem de heterogenă din punct de vedere al tabloului clinic. Simptomele cheie ale afecțiunii sunt reprezentate de **dificultăți în comunicarea și interacțiunea socială și comportamente restrictive, repetitive**. Tabloul clinic este dinamic și se poate schimba o dată cu trecerea timpului ca răspuns la modificarea cerințelor din mediul înconjurător, astfel anumite deficite devin mai profunde o dată cu înaintarea în vârstă-stereotipiile motorii, dificultăți ale atenției comune, interese senzoriale neobișnuite, discontact vizual, absența jocului imitativ ; sau pot deveni mai subtile-dificultăți conversaționale, apariția intereselor circumscrise, rigide, probleme de relaționare socială de tipul prietenii reciproce. (Thapar et al, 2015)

Dificultățile interacțiunii sociale reprezintă domeniul central afectat în tulburările de spectru autist. Aceste dificultăți includ comportamentele non verbale utilizate în reglarea interacțiunii sociale. Apare eșecul în dezvoltarea relațiilor cu grupul de semenii, lipsește împărtășirea spontană cu alte persoane a bucuriei, a intereselor și a realizărilor. Aceste afectări duc la lipsa reciprocității sociale și emoționale. Teoria Minții este deficitară la copiii cu TSA indiferent de vârstă și inteligența acestora. Dezvoltarea Teoriei Minții se bazează pe abilitatea de a imita pentru a înțelege perspectiva celuilalt și astfel abilitatea de a prezice într-o anumită măsură acțiunile altor persoane. Studiile au arătat că deficitul de Teorie a Minții afectează în mod negativ jocul imaginar, empatia, abilitatea de împărtășire, reciprocitatea socio-emoțională și relația cu semenii, fiind o componentă esențială interacțiunii sociale. (Baron-Cohen et al, 1985 ; Baron-Cohen, 2001)

În ceea ce privește dificultățile la nivelul limbajului și comunicării, Cel mai frecvent simptom este întârzierea sau absența dezvoltării limbajului expresiv care poate fi sau nu însoțită de comportamente de compensare. Limbajul poate fi repetitiv, stereotip, ecolalic. Volumul, intonația și cadența vorbirii pot fi anormal de rapide, lente, înalte, șoptite, monotone, etc. Persoanele înalt funcționale prezintă dificultăți în a iniția și a susține conversații- absența abilităților de a face conversație, neacordarea de informații suficiente contextului, absența abilității de a construi pornind de la comentariile interlocutorului. Afectarea jocului imitativ și imaginativ apare la mulți copii cu TSA. (Fuentes et al, 2012)

În tulburările de spectru autist apare un tipar al intereselor și comportamentelor restrâns, repetitiv, aderența crescută și inflexibilă la rutine. Apar manierismele motorii și preocuparea excesivă față de părți ale obiectelor decât întregul acestora. Persoanele cu TSA pot prezenta aderențe inflexibile la rutine sau ritualuri care nu au un caracter funcțional. Poate să apară o rezistență crescută la schimbări minore în rutina personală sau în mediul înconjurător, cu apariția unor tulburări de comportament de intensitate severă. (Fuentes et al, 2012)

II.2.3 Probleme asociate

TSA se poate asocia cu numeroase alte tulburări mentale și de comportament, cât și cu alte probleme de natură neurologică, genetică sau medicală. (Thapar et al, 2015).

Dintre tulburările mentale și de comportament, TSA se poate asocia cu tulburare de anxietate și fobii, tulburări ale dispoziției, tulburare de provocare opozițională, ticuri, tulburare obsesiv compulsivă, comportamente de autovătămare. Dintre tulburările de neurodezvoltare TSA se poate asocia cu: întârziere globală în dezvoltare, ADHD, dizabilitate intelectuală, tulburări de coordonare motorie, tulburări de învățare-dislexie, discalculie, afectare a limbajului și vorbirii.

Alte afecțiuni medicale și neurologice frecvent asociate cu TSA sunt epilepsie, malformații cromozomiale, malformații genetice (Sindromul X Fragil), scleroza tuberoasă, distrofia musculară, neurofibromatoza.

De asemenea, copiii cu tulburări de spectru autist pot asocia tulburări de comportament alimentar-apetit restrictiv, incontinență urinară sau enurezis, constipație și alte tulburări de tranzit intestinal, tulburări de somn, afectarea auzului sau a vederii.

Ghidul NICE citează prevalența TSA în următoarele afecțiuni medicale, după cum urmează (NICE, 2011)

- Dizabilitate intelectuală 8%-27.9%
- Sindromul X Fragil 24%-60%
- Scleroza Tuberoasă 36%-79%
- Encefalopatia neonatală/Encefalopatia epileptică/Spasme infantile 4% 14%
- Paralizie cerebrală 15%
- Sindrom Down 6%-15%
- Distrofie Musculară 3%-37%
- Neurofibromatoză 4%-8%

I.2.4 Tulburări incluse în spectrul autismului

Clasificarea tulburărilor mentale și de comportament ICD 10, publicată de Organizația Mondială a Sănătății în 1992, conține în cadrul Tulburărilor Pervazive de Dezvoltare următoarele trei entități de diagnostic: Autism infantil, Autism atipic, Sindrom Asperger, tulburarea dezintergrativă a copilăriei, tulburarea hiperkinetică asociată cu întârziere mintală și miscări stereotipe. În tulburările de spectru autist a fost inclus și sindromul Rett, care ulterior a fost reîncadrat sub umbrela tulburărilor neurologice.

Autismul infantil este definit ca o tulburare extensivă a dezvoltării definită prin prezența unei dezvoltări anormale și/sau alterate, manifestată înaintea vârstei de 3 ani, și printr-un tip caracteristic de funcționare anormală a interacțiunii sociale, comunicării și comportamentului care este restrictiv și repetitiv. (ICD 10,1998).

Autismul atipic este definit ca o tulburare globală a dezvoltării, diferită de autism în termeni fie de vârstă a debutului, fie de neîndeplinire a tuturor celor 3 seturi de criterii diagnostice. (ICD 10, 1998)

Tulburarea Asperger este definită ca o tulburare nosologică incertă, caracterizată de același tip de anomalii calitative ale interacțiunilor sociale reciproce care fundamentează autismul, împreună cu un repertoriu de interese și activități restrânse și stereotipe. Tulburarea diferă de autism deoarece nu există o întârziere generală în dezvoltarea limbajului sau cognitivă. (ICD 10, 1998) Cele trei entități diagnostice prezente în ICD 10 au fost reunite de către DSM 5 sub denumirea de TSA-Tulburarea din spectrul autismului.

I.2.5 Etiologie și factori de risc

Etiologia tulburărilor de spectru autist nu este una complet elucidată, însă aceasta este una multifactorială, determinată atât de factori genetici, cât și de factori de mediu.

Implicarea **factorilor genetici** este susținută de studiile pe familii și gemeni mono- și dizigoți care au relevat deja existența unor predispoziții genetice în ce privește etiologia autismului în rândul populației globale. (Dobrescu, 2010) Ereditatea trăsăturilor autiste a fost calculată ca fiind aprox. 50%, conform unor studii genetice realizate minuțios pe mii de subiecți împreună cu rudele lor de gradul I. (Sandin et al, 2014) Sindromul X fragil este una din cauzele genetice cele mai cunoscute ale apariției autismului. 1 din 3600 de indivizi este afectat de aceasta maladie în lumea întreagă iar 50% dintre ei satisfac criteriile de diagnostic pentru autism. Dintr-o altă perspectivă, 5% dintre toate cazurile de autism se estimează că se datorează sindromului X fragil. (McCary et al, 2013) 5-8% dintre formele de TSA se datorează heterogenității de novo a unor fragmente de ADN în anumite locusuri specifice. (Kim Sung Koo, 2015) O serie de studii au aratat ca existența CNV (copy number variants) în cazul genelor NLGN, NRXN, SHANK, SynGAP și DLGAP au un rol crucial în apariția unor defecte la nivelul formării și transmiterii sinaptice. În cazul persoanelor afectate de TSA, mutațiile de novo sunt de 2-4 ori mai multe și sunt corelate cu vârsta tatălui. (Chaste et al, 2012) Arhitectura genetică a tulburării de spectru autist este foarte diversă, atât în ce privește tipul de variație (o singură nucleotidă sau variația numărului de copii) și frecvența (variații des întâlnite sau foarte rare) cât și în ce privește modul de acțiune (dominant, recesiv aditiv) și modul în care apare la un individ (moștenit de la părinți sau variație de novo). Unele studii raportează că autismul este cauzat în proporție de 49% de variante comune moștenite, 3% variante de novo, 3% de variante rare moștenite iar 41% necunoscute) (Gaugler et al, 2014)

Teoriile neuroanatomice implică deficite la nivelul cerebelului, amigdalei și hipocampului, precum și deficite ale substanței albe și cenușii, modificări ale conectivității neuronale sau deficite la nivelul cortexului prefrontal.

Dincolo de predispoziția genetică, o serie de **factori de mediu** acționează ca declanșatori sau creează circumstanțele apariției tulburărilor de spectru autist. Aceștia acționează mai ales în timpul perioadei intrauterine, în timpul formării tubului neural și a definitivării sistemului nervos. De asemenea, factorii ante și perinatali, stresul oxidativ, anomaliile neuroanatomice pot fi implicate în etiologia acestor tulburări.

Studii recente au relevat modificări în dezvoltarea normală a creierului la expunerea în perioada intrauterină la poluanți chimici din mediu, precum metil mercur, plumb, tetracloretilen, tricloroetilen și trihalometan. (Landrigan, 2010) Pesticidele organoclorice sunt și ele pe lista factorilor de risc, numărul de copii afectați crescând o dată cu cantitatea de dicofol și endosulfan aplicate și scăzând o dată cu depărtarea față de locul aplicării (Roberts et al, 2007)

Teoriile neuropsihologice formulate pentru implicarea în tulburările de spectru autist implică deficite ale empatiei și sistematizării, dificultăți în percepția și interpretarea expresiilor faciale, deficite ale teoriei minții, teoria extremului creiere masculin, deficite ale neuronilor în oglindă, teoria lumii intense. (Dobrescu, 2010)

II.2.5 Instrumente de diagnostic în tulburările de spectru autist

Diagnosticul tulburărilor de spectru autist este unul clinic, efectuat de către medicul specialist în psihiatrie copilului și adolescentului pe baza criteriilor de diagnostic ICD sau DSM. Pentru obiectivarea simptomatologiei și pentru monitorizarea evoluției, a fost necesară dezvoltarea instrumentelor de diagnostic.

Instrumentul ADOS este un program semi-structurat, interactiv, creat pentru a evalua funcționarea socială și comunicativă a persoanelor care ar putea avea TSA. Evaluarea implică o varietate de ocazii sociale și „solicitări” create pentru a obține comportamente relevante diagnosticului de autism. Programul de Observație pentru Diagnosticul Autismului (ADOS) este unul dintre puținele instrumente de diagnostic standardizate care implică scorarea unor observații directe asupra interacțiunilor copilului și care țin cont de nivelul de dezvoltare și de vârsta copilului. ADOS este recomandat și considerat ca fiind un instrument standardizat de diagnostic adecvat (Filipek et al., 1999, 2000; National Research Council, 2001; Akshoomoff et al., 2006).

Testul ADI- R (Autism Diagnostic Interview) constă într-un interviu extins realizat pentru a obține informații necesare diagnosticării autismului și pentru a oferi asistență în evaluarea tulburărilor asociate cu TSA. Interviul măsoară cele trei domenii de funcționare – limbaj/ comunicare, interacțiune socială, comportamente și interese restrictive, repetitive și stereotipe. (Rutter et al, 2010)

ABAS-II este un instrument fidel, valid, comprehensiv și bazat pe norme care măsoară abilitățile adaptative ale copiilor și adulților de la naștere până la 89 de ani. Acesta poate fi utilizat pentru a ajuta la diagnosticarea și clasificarea dizabilităților sau ale unor tulburări, pentru identificarea punctelor forte și ale dificultăților persoanei, identificarea nevoilor în ceea ce privește tratamentul sau programele de intervenție și pentru a vedea progresul legat de abilitățile adaptative în contexte de cercetare (Community University Partnership for the Study of Children, Youth, and Families, 2011).

Testul ASRS - Autism Spectrum Rating Scale a fost construit pentru a măsura **comportamentele asociate Tulburărilor de Spectru Autist** apărute în cazul copiilor și tinerilor cu vârste cuprinse între 2 și 18 ani.

Chestionarul de comunicare socială (SCQ) este un instrument de screening care este utilizat pentru a obține informații referitoare la simptomatologia asociată cu tulburările de spectru autist.

II.2.6 Intervenția comportamentală în tulburările de spectru autist

Într-un articol publicat în 1968, Baer et al. descriu ceea ce consideră a fi cele șapte caracteristici ale analizei comportamentale aplicate. Aceasta trebuie să fie aplicată, comportamentală, analitică, tehnologică, conceptuală, eficientă și capabilă să producă rezultate generalizate. Pe măsură ce domeniul analizei comportamentale aplicate a crescut și s-a diversificat în ceea ce privește problemele abordate, au fost sugerate câteva caracteristici adiționale, însă cele șapte propuse de Baer rămân în continuare caracteristicile standard ale ABA (Baer et al, 1987; Cooper et al., 2007).

În primul rând, **analiza comportamentală este aplicată**. Acest lucru se referă la faptul că problema studiată este de importanță socială. Comportamentul, stimulii și/sau organismul studiați sunt aleși deoarece sunt importanți pentru om sau pentru societate, nu pentru importanța lor în ceea ce privește teoria. Exemplul dat de Baer exprimă faptul că un cercetător teoretic va studia mâncatul pentru că are legătură cu metabolismul, iar acest lucru poate explica anumite ipoteze, pe când un cercetător aplicat va studia mâncatul pentru că există oameni care mănâncă prea mult sau prea puțin, și va studia chiar acele persoane (Baer et al., 1968).

În al doilea rând, ABA este **comportamentală**. Baer consideră că pragmatismul și behaviorismul merg adesea mână în mână, considerând că ABA este pragmatică. Aceasta își pune întrebarea cum este posibil să faci o persoană să facă ceva în mod efectiv. Așadar, aceasta studiază ce pot oamenii fi făcuți să facă, nu ce pot fi făcuți să spună. În cadrul ABA, există nevoia unei măsurători precise a comportamentului în ceea ce privește studiul științific al acestuia (Baer et al., 1968).

În al treilea rând, ABA este **analitică**. Analiza comportamentală necesită o demonstrație demnă de încredere a evenimentelor care produc sau nu apariția unui comportament, iar un cercetător a realizat o analiză comportamentală atunci când are control asupra comportamentului studiat. Însă, controlul variabilelor comportamentale la standarde de laborator nu este ușor, și câteodată nici etic. Baer et al. propun 2 modalități prin care analiza comportamentală aplicată poate demonstra suficient control asupra variabilelor încât să fie acceptabil. Cele două modalități sunt „reversal design” și „multiple baseline design”. În cazul „reversal design” este mai întâi măsurat comportamentul ales, după care cercetătorul realizează o intervenție și măsoară din nou comportamentul. Dacă intervenția are efect, aceasta este oprită sau redusă, iar comportamentul este măsurat din nou pentru a vedea dacă schimbarea comportamentală depinde de intervenție. În celălalt tip de design, sunt măsurate mai multe comportamente înainte de intervenție, iar intervenția este aplicată mai întâi unui singur comportament. Dacă are un efect, este apoi aplicată unui alt comportament din cele măsurate și așa mai departe (Baer et al., 1968).

Mai mult, analiza comportamentală aplicată este **tehnologică**. În acest caz, „tehnologic” înseamnă că tehnicile care alcătuiesc o anumită aplicație comportamentală sunt complet identificate și descrise. De exemplu, în cazul terapiei pe bază de joc, toate ingredientele necesare acestei terapii trebuie descrise ca un set de contingente între răspunsul copilului, al terapeutului și materialele de joc. Pentru ca o terapie să fie considerată tehnologică, o persoană formată în acest domeniu trebuie să poată replica procedura îndeajuns de bine pentru a obține aceleași rezultate, citind doar descrierea terapiei (Baer et al., 1968).

Analiza comportamentală aplicată este și **conceptuală**, însemnând că nu trebuie să producă doar o listă de intervenții eficiente. Aceste intervenții trebuie să fie bazate pe principii comportamentale, utilizând termeni specifici în descrierea intervențiilor (Baer et al., 1968). Analiza comportamentală aplicată trebuie să fie **eficientă**. În acest sens, dacă aplicarea

intervențiilor comportamentale nu au un efect suficient de mare pentru a avea o valoare practică, atunci aceasta a eșuat (Baer et al., 1968).

Capacitatea de generalizare a analizei comportamentale aplicate se referă la faptul că o schimbare comportamentală se menține de-a lungul timpului chiar și după încheierea intervenției, la faptul că apare în diferitele medii ale persoanei nu doar în cel în care a fost aplicată intervenția sau la faptul că schimbarea apare la diferite tipuri de comportamente asociate (Baer et al., 1968).

Principiile terapiei comportamentale se referă la tehnicile întăririi, stingerii, controlului stimulilor și al generalizării sunt aplicate în patru proceduri de predare, cunoscute sub numele de (1) îndemnare (prompting) (2) estompare (fading), (3) formare (Shaping) și (4) înlănțuire (chaining).

Pivotal Response Treatment este unul dintre cele 10 modele de programe comprehensive pentru copiii cu autism, identificate de National Research Council (Mossman Steiner et al, 2013) și una dintre intervențiile naturaliste cu cea mai mare susținere empirică și științifică. A fost construită în jurul conceptului de arie pivot, care o dată dezvoltată se răsfrânge pozitiv asupra altor direcții de dezvoltare. Ariile pivot identificate sunt următoarele: motivația, alegerea de către copil a activității, recompensarea încercării rezonabile, răspuns la cereri multiple, auto-determinarea și managementul personal. (Koegel et al, 2006)

Early Start Denver Model (ESDM) este o altă intervenție naturalistă susținută științific, cu o curriculă clară de abilități ce trebuie dezvoltate și un set de proceduri de învățare clar, dar în același timp este și foarte flexibilă și pune accent pe dezvoltarea relațiilor interpersonale, motivației sociale și a relației naturale cu mediul înconjurător. (Rogers et al, 2010)

Învățarea incidentală a fost dezvoltată de Risley și Hart în anii 70 (Risley et al, 1978) și apoi inclus în proiectul Walden sub supervizarea lui Gail McGee la Emory University în anii 1990 (McGee et al, 1999). A fost construită ca o terapie care să dezvolte abilitățile de auto-motivare și self-initiation și de aceea inițiativa copilului este foarte importantă în această metodă de intervenție.

II. CONTRIBUȚII PERSONALE

II.1 Scopul și obiectivele cercetării

Cercetarea de față își propune să **determine modul în care terapia comportamentală influențează simptomatologia și dezvoltarea ariilor de funcționare la copiii diagnosticați cu tulburare de spectru autist**. Toți copiii incluși în lot au primit anterior includerii un diagnostic de tulburare de spectru autist, iar terapie a fost coordonată de aceeași persoană pentru toți participanții, în vederea asigurării omogenității metodelor psihoterapeutice aplicate.

Obiectivele specifice ale lucrării sunt următoarele:

- ✦ Caracterizarea lotului din punct de vedere socio-demografic, medical și al antecedentelor personale
- ✦ Analiza influenței situației educaționale și financiare a familiei asupra intensității terapiei
- ✦ Analiza evoluției scorurilor ADOS în urma terapiei comportamentale
- ✦ Analiza evoluției scorurilor ABAS pentru ariile de funcționare în urma terapiei comportamentale
- ✦ Analiza evoluției funcționalității globale (scorul GAC) în urma terapiei comportamentale

II.2 Ipoteze de lucru

1. Nivelul de pregătire al părinților și situația financiară a familiei influențează numărul de ore de terapie de care beneficiază subiectul.
2. Vârsta mai mare a subiectului la intrarea în terapie se va corela cu un număr mai mare de ore de terapie, presupunând că stabilirea unui diagnostic la vârste mai mari ar trebui să atragă după sine o intervenție mai intensivă.
3. O treime din cei incluși în programul de terapie nu vor mai îndeplini criteriile de tulburare de spectru autist (vor ieși din spectru).
4. Scorurile ADOS pentru comunicare, socializare, joc și comportamente stereotipe vor scădea în urma terapiei comportamentale

5. Funcționarea pe ariile comunicare, utilizarea resurselor comunității, funcționalitate preșcolară, viața în familie, sănătate și siguranță, timp liber, autoîngrijire, autodirecționare, motricitate (măsurată prin scorurile ABAS) va crește în urma terapiei comportamentale
6. Progresele cele mai mari se vor înregistra pe ariile funcționalitate preșcolară și abilități motorii.
7. Nivelul general de funcționare al pacienților (măsurat prin scorul GAC) va crește în urma terapiei comportamentale la toți pacienții

II.3 Materiale și metodă

Descrierea lotului

Cercetarea de față și-a propus să analizeze evoluția simptomatologiei specifice tulburării de spectru autist și a ariilor de funcționare în urma unui program de terapie comportamentală prin realizarea unui studiu transversal pe un lot de 120 copii. Toți subiecții incluși prezentau la momentul demarării cercetării un diagnostic de tulburare de spectru autist, diagnostic stabilit de un medic specialist în psihiatria copilului și adolescentului. Toți subiecții incluși reprezintă pacienți care s-au prezentat pentru evaluare psihologică și stabilirea unui plan individualizat de psihoterapie în cadrul cabinetului psihologic individual Psih. Cristina Maria Nedelcu în perioada 2014-2018. În formarea lotului pentru prezenta cercetare s-au avut în vedere următoarele criterii:

Criterii de includere:

- Copilul inclus să fie diagnosticat cu o tulburare de spectru autist (conform criteriilor ICD10) de către un medic specialist în psihiatria copilului și adolescentului
- Părinții/reprezentanții legali ai copilului să își exprime consimțământul liber, voluntar, informat și în scris pentru participarea la cercetare
- Pacienții să urmeze programul de terapie în cadrul cabinetului Psih. Maria Cristina Nedelcu, sub coordonarea aceleiași persoane

- **Criterii de excludere:**
- Refuzul pacientului sau al părintelui/reprezentatului legal de a participa la prezenta cercetare
- Existența unei patologii somatice (tulburare de auz, tulburare vizuală, etc.) care ar fi putut interfera cu rezultatele testelor aplicate
- Urmarea concomitentă a unui program de psihoterapie într-un alt centru, sub coordonarea unei alte persoane

Protocolul și metodologia de desfășurare a prezentei cercetării respectă toate normele impuse de Comisia de Etică a cercetării din cadrul Universității de Medicină și Farmacie „Carol Davila”, București.

Prezenta cercetare a impus obținerea consimțământului informat din partea reprezentatului legal al copilului. Consimțământul a respectat toate normele de etică a cercetării, cuprinzând date referitoare la descrierea în detaliu a scopului și a modului de desfășurare a cercetării, riscurile și beneficiile participării, confidențialitatea datelor, retragerea din studiu, date de contact ale coordonatorului studiului.

Colectarea datelor

Toți subiecții incluși în studiu sunt reprezentați de pacienți ai cabinetului propriu și au urmat terapie în cadrul asociațiilor non profit acreditate ca prestatoare de servicii, sub îndrumarea și coordonarea aceleiași persoane. Părinții copiilor incluși în prezenta cercetare și-au exprimat acordul scris pentru participarea la studiu prin semnarea consimțământului informat. Aparținătorii au fost informați despre fiecare etapă a cercetării, participarea a fost voluntară și retragerea din studiu a fost posibilă în orice moment la dorința aparținătorilor, fără ca acest lucru să aibă consecințe negative asupra serviciilor oferite copiilor. Datele colectate, chestionarele și instrumentele de evaluare au fost păstrate în incinta cabinetului, asigurându-se confidențialitatea acestora.

Colectarea datelor s-a făcut pe suport fizic, iar ulterior aceste date au fost introduse în sistem electronic, într-o bază de date.

Instrumente de lucru

Chestionar date sociodemografice și medicale. La evaluarea inițială (T0), înainte de includerea în programul de terapie, părinții copiilor incluși în lotul de studiu au fost rugați să completeze un chestionar compus pentru cercetarea de față. Chestionarul a cuprins informații referitoare la:

- Data și locul nașterii copilului
- Mediul și localitatea de reședință
- Nivelul de educație al părinților
- Situația financiară a familiei
- Vârsta părinților
- Date despre tipul de naștere
- Date despre complicații în timpul sarcinii sau la naștere
- Probleme de sănătate în timpul primului an de viață al copilului
- Diagnostic psihiatric de tulburare de spectru autist

Comorbidități (întârziere mintală, tulburări motorii, tulburări hiperkinetice/deficit de atenție, tulburări de somn, tulburări digestive, altele).

Durata de completare a chestionarului a fost de 10-15 minute și toți părinții copiilor incluși au fost rugați să ofere aceste informații pentru a putea analiza relația dintre datele socio-economice și medicale și severitatea tulburării, precum și influența asupra eficienței terapiei în dezvoltarea ariilor de funcționare.

ADOS. Testul ADOS a fost aplicat de către un psiholog clinician la includerea copilului în studiu și apoi la 2 momente, respectiv la 1 an și la 2 ani după începerea programului de terapie pentru a putea compara severitatea simptomatologiei prin evoluția scorului ADOS.

ABAS II. Testul ABAS II s-a aplicat de către un psiholog clinician la includerea copilului în studiu și apoi de 2 ori, respectiv la 1 an și la 2 ani după momentul începerii terapiei comportamentale, pentru a putea analiza evoluția scorurilor și îmbunătățirea ariilor de funcționare în urma programului de psihoterapie. ABAS-II este un instrument fidel, valid, comprehensiv și bazat pe norme care măsoară abilitățile adaptative ale copiilor și adulților de la naștere până la 89 de ani.

Varibilele incluse în studiu

Nume variabilă	Tip/descriere
1. Gen	Calitativă nominală dihotomială
2. Vârsta	Cantitativă continuă

3. Număr ore terapie	Cantitativă continuă
4. Mediu de proveniență	Calitativă nominală dihotomială
5. Nivel educație mamă	Calitativă nominală
6. Nivel educație tată	Calitativă nominală
7. Vârsta începerii terapiei	Cantitativă continuă
8. Status economic al familiei	Calitativă ordinală
9. Vârsta mamei la nașterea	Cantitativă discretă
10. Vârsta tatălui la nașterea	Cantitativă discretă
11. Poziția copilului în fratrie	Calitativă ordinală
12. Tipul nașterii	Calitativă nominală dihotomială
13. Vârsta gestațională la naștere	Cantitativă discretă
14. Complicații pe perioada	Calitativă nominală dihotomială
15. Complicații la naștere	Calitativă nominală dihotomială
16. ADOS-A2	Frecvența vocalizării direcționate către ceilalți
17. ADOS-A5	Utilizarea stereotipă/idiosincronică de cuvinte
18. ADOS-A6	Utilizarea corpului celorlalți pentru a comunica
19. ADOS-A7	Indicarea cu degetul
20. ADOS-A8	Gesturi
21. ADOS- Total Comunicare	Suma scorurilor din domeniul comunicare
22. ADOS-B1	Contact vizual neobișnuit
23. ADOS-B3	Expresii faciale direcționate spre ceilalți
24. ADOS-B5	Entuziasm împărtășit în interacțiune
25. ADOS-B9	Indicarea
26. ADOS-B10	Inițierea spontană a episoadelor de atenție
27. ADOS-B11	Răspuns la atenția împărtășită
28. ADOS-B12	Calitatea inițierii interacțiunilor sociale
29. ADOS-Total Interacțiune	Suma scorurilor ADOS scalele de interacțiune
30. ADOS-C1	Jocul funcțional cu obiecte
31. ADOS-C2	Imaginație/creativitate
32. ADOS-Total Joc	Cantitativă discretă
33. ADOS-D1	Un interes senzorial neobișnuit manifestat în
34. ADOS-D2	Manierisme ale mâinilor și degetelor și alte
35. ADOS-D4	Interese repetitive sau comportamente
36. ADOS-Total	Cantitativă discretă
37. ABAS-Comunicare	Cantitativă discretă
38. ABAS-Utilizarea resurselor	Cantitativă discretă
39. ABAS-Funcționalitate	Cantitativă discretă
40. ABAS-Viața în familie	Cantitativă discretă
41. ABAS-Sănătate și siguranță	Cantitativă discretă
42. ABAS-Timp liber	Cantitativă discretă
43. ABAS-Autoîngrijire	Cantitativă discretă
44. ABAS-Autodirecționare	Cantitativă discretă

45. ABAS-Social	Cantitativă discretă
46. ABAS-Motricitate	Cantitativă discretă
47. ABAS-Total	Cantitativă discretă

Analiza datelor

Subiecții cu vârstă mai mare de 5 ani la intrarea în studiu au fost excluși de la prelucrarea inferențială. S-a folosit ADOS , subiecții care nu s-au pretat la aplicarea acestui modul au fost excluși.

Variabilele au fost incluse într-o bază de date folosind pachetul Open Access Libra Office și au fost prelucrate cu ajutorul SPSS 16. S-au efectuat calcule de statistică descriptivă: frecvențe absolute, minim, maxim, quartile, măsuri ale tendinței centrale (medie, mediană, mod), măsuri ale dispersiei (deviație standard). S-au folosit teste non-parametrice de statistică inferențială (Mann-Whitney/Kruskal Wallis) pentru a compara valorile diferitelor variabile de tip calitativ ordinal între cele 3 evaluări. Nivelul de semnificație a fost considerat $p < .05$ sau, cu corecția Bonferroni $< .01$. Variabilele calitative nominale au fost reprezentate graphic sub formă de diagrame circulare. Variabilele cantitative discrete au fost reprezentate graphic sub formă de grafice de tip bară sau histogramă.

II.4 Descrierea programului de terapie

Toți copiii incluși în lotul de studiu au beneficiat de **program de terapie comportamentală structurat și coordonat de aceeași persoană.**

Numărul de ore de terapie/zi pentru un copil a variat între **1 și 6 ore pe zi**, iar **vârsta medie de includere în programul de terapie a fost de 3 ani și 6 luni.**

Programul de terapie a avut ca scop creșterea adaptabilității, a autonomiei și a integrării pacienților prin dezvoltarea tuturor ariilor de funcționare.

Programul de terapie a fost unul individualizat și a folosit metode eclecticice, pornind de la **principiile terapiei ABA**, folosind succesiunea antecedent – comportament - consecință. Programul de terapie a urmat principiul folosirii mediului copilului și a oportunităților naturale pentru a genera procese de învățare, crescând astfel eficiența generalizării. De asemenea, au fost integrate **metode specifice PRT** (Pivotal Response Treatment) privind abordarea pe arii

pivor care își răsfrând influența asupra tuturor direcțiilor de dezvoltare. PRT are la bază identificarea motivației copilului și contribuția acestuia în alegerea activităților, astfel încât terapia să devină plăcută și eficientă. Un alt model folosit în formarea programului de terapie a fost **ESDM** (Early Start Denver Model) prin aplicarea principiilor ce vizează accentul pe creșterea motivației sociale și a relațiilor interpersonale. EDSM pune mare accent pe relația pacient-terapeut, cu încurajarea activităților reciproce și sincronizate, dar și pe implicarea masivă a părinților în procesul terapeutic. Au fost de asemenea folosite **principii ale terapiei ocupaționale, terapiei prin joc și TEACCH**.

Astfel, terapia a fost una **structurată**, s-a bazat pe **lucrul individual cu copilul** și pe întărirea comportamentelor pozitive. Într-o primă fază terapie presupune obișnuirea pacientului cu structura, stimularea cognitivă și asimilarea unor noțiuni de bază. Pe măsură ce se creșteau abilitățile cognitive, limbajul începea să se dezvolte și ulterior să fie folosit cu scopul comunicării. Concomitent cu dezvoltarea limbajului și înțelegerea sensului comunicării se lucrează pe abilitățile de socializare ale copilului. Pe măsura ce copilul acumula cunoștințe și abilități, s-a pus accentul pe generalizarea acestor abilități și utilizarea lor în medii și contexte diferite. Creșterea autonomiei copilului se face și prin dezvoltarea abilităților de autoservire și motorii, urmând ulterior aceleași principii ale generalizării în diferite contexte.

Pentru toți copiii incluși în studiu și în programul terapeutic **li s-au explicat părinților principiile terapiei și aceștia au fost învățați ce tipuri de metode și exerciții trebuie să aplice pentru a putea sedința abilitățile dobândite în urma ședințelor de terapie**. Este deosebit de important pentru evoluția copilului ca metodele educaționale și terapeutice să nu înceteze a fi aplicate odată cu încheierea ședinței de terapie, ci acestea să fie continuate și dezvoltate în toate activitățile zilnice.

Programul terapeutic a fost unul individualizat și dinamic, adaptându-se în permanență la abilitățile copilului, la stilul și ritmul acestuia de lucru, respectând însă în toate cazurile aceleași principii și aceeași structură.

II.5 Rezultate

Statistica descriptivă – variabile socio-demografice

În lotul format pentru studiul de față 79.44% dintre subiecți au fost de gen masculin, respectiv 20.56% au fost de gen feminin, reprezentând un raport fete:băieți de aproximativ 1:4 (Figura 1).

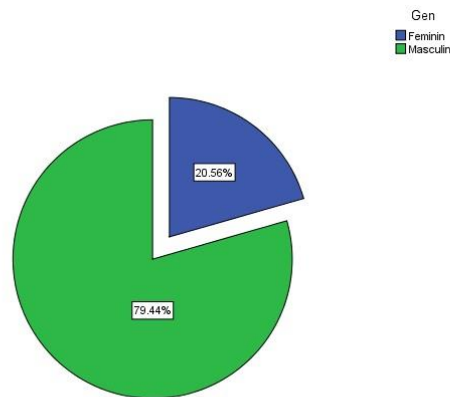


Figura 1. Distribuția procentuală în funcție de genul subiecților

Media vârstelor +/- SD a fost de 3.89 ani de începere a terapiei a fost de 3,89 ani. În Figura 2 este reprezentată histograma vârstei, aceasta având intervalul de 1, intervalul 2.5-3.5 a cuprins un număr de 31 de subiecți, iar cel 3.5-4.5 a cuprins 30 de subiecți, cu alte cuvinte, cei mai mulți dintre subiecți au început terapia înaintea vârstei de 4.5 ani.

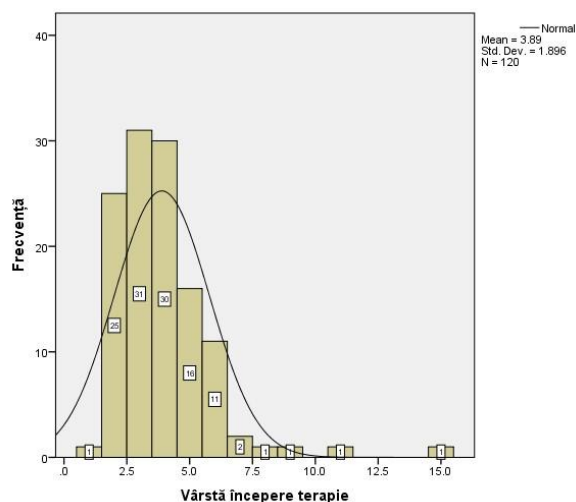


Figura 2. Histograma vârstei subiecților în momentul începerii terapiei

Numărul de ore de terapie de care un subiect a beneficiat/zi a variat între 1 ora și 6 ore, cu o medie \pm SD = 2.40 \pm 1.11 și o mediană de 2 ore, după cum se poate observa în figura 3. Astfel, subiecții din lotul prezentei cercetări au beneficiat, în medie, de 2,4 ore de terapie pe zi. Este important de menționat că, în afara orelor de terapie structurată în cadrul centrului/cabinetului, toți părinții copiilor incluși în cercetare au fost instruiți cu privire la metodele educaționale, principiile de terapie și exercițiile de continuat în mediul familial. Considerăm că eficiența terapiei depinde de continuarea aplicării principiilor comportamentale în mediul familial și ulterioara generalizare a abilităților dobândite. Cei mai mulți subiecți (41) aflați în intervalul cuprins între 2 și 2.5, astfel au beneficiat de un număr de ore de terapie cuprins între 2 și 2.5/zi. Nu a existat o relație liniară între aceste două variabile, respectiv nu s-a pus în evidență un număr mai mare de ore de terapie pe măsură ce subiectul a început terapia tardiv.

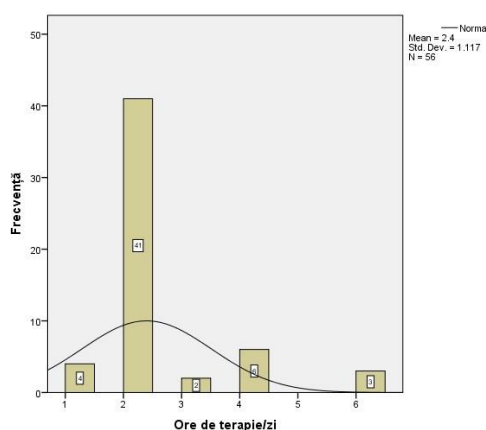


Figura 3. Histograma numărului de ore de terapie efectuate pe zi

27.47% dintre subiecții incluși în studiu au provenit din București în timp ce aproximativ de 3 ori mai mulți subiecți, respectiv 72.53%, locuiau în teritoriu. **Vârsta medie** \pm SD la care subiecții din București au început terapia a fost de 3.55 \pm 1.31 iar mediana de 3. Vârsta medie \pm SD la care subiecții din teritoriu au început terapia a fost de 4.08 \pm 2.13 iar mediana de 4. Un test Mann-Whitney a arătat că nu a existat o diferență semnificativă statistic între medianele celor două grupuri ($U = 1441$, $p = .26$). Subiecții din București au beneficiat, în medie \pm SD de 3.07 \pm 3.24 (mediana = 2) ore de terapie pe zi, în timp ce subiecții din teritoriu au beneficiat în medie \pm SD de 2.31 \pm .95 ore de terapie pe zi, mediana = 2.

Aproape $\frac{3}{4}$ dintre mamele copiilor incluși în cercetare au avut un nivel ridicat de educație academică. Acest lucru poate confirma faptul că un nivel crescut de educație se corelează cu o informare ridicată în legătură cu patologia psihiatrică a copilului, dar și cu o situație socio-economică care permite o evaluare completă psihiatrică și psihologică, urmată de includerea într-un program de psihoterapie. Ca și în cazul mamelor, majoritatea taților copiilor incluși în studiu sunt persoane cu un nivel ridicat de educație, fapt ce implică un nivel bun de informare și o disponibilitate financiară de a asigura evaluarea și terapia copilului.

Mai mult de $\frac{3}{4}$ dintre familiile incluse în studiu au avut o situație financiară medie sau peste medie, conform figurii 4. Evaluarea, terapia și îngrijirea unui copil diagnosticat cu tulburare de spectru autist presupune eforturi financiare, umane și de timp ridicate. Excluzând costul terapiei, eforturile implică resurse de timp, deplasări frecvente, obținerea de materiale educaționale speciale, etc. În practica clinică am întâlnit numeroase cazuri de familii în care unul dintre părinți era nevoit sau alegea să renunțe la locul de muncă pentru a se putea ocupa de îngrijirea copilului cu tulburare de spectru autist, pentru a asigura deplasările la terapie și supravegherea permanentă. Astfel, este necesar ca celălalt părinte sau restul familiei să ofere suport financiar pentru asigurarea îngrijirii copilului, caz care implică venituri peste medie.

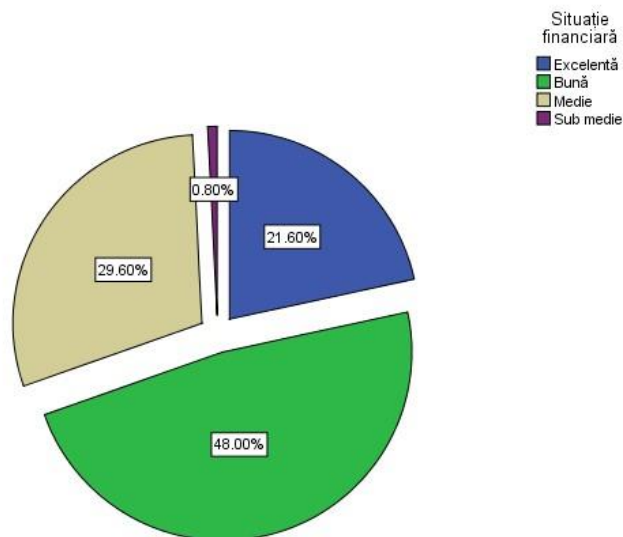


Figura 4. Distribuția procentuală a subiecților în funcție de situația financiară a familiei

Un test Kruskal-Wallis a arătat că **nu a existat o diferență semnificativă statistic între numărul de ore de terapie efectuate pe zi în funcție de situația financiară a familiei.**

Testul Kruskal-Wallis pentru comparația între numărul de ore de terapie efectuate pe zi de un subiect în funcție de situația financiară a familiei acestuia

	Ore terapie/zi
Chi-Square	1.464
Df	2
Asymp. Sig.	.481

a. Kruskal Wallis Test

b. Grouping Variable: Situatiefinanciara

Statistică descriptivă și inferențială – testele ADOS și ABAS

Testul ADOS

Datele de statistică descriptivă pentru **scorul total obținut cu ajutorul ADOS la domeniul comunicare** și testele Mann-Whitney au fost realizate și au arătat o **diferență semnificativă statistic a acestui scor între prima evaluare și evaluările ulterioare dar fără o diferență semnificativă statistic între ultimele 2 evaluări.** Astfel, chiar dacă există arii care se dezvoltă mai greu și copiii cu tulburare de spectru autist au dificultăți în asimilarea limbajului non-verbal și continuă să utilizeze corpul părinților sau al altor persoane pentru a comunica, per total abilitățile de comunicare se îmbunătățesc semnificativ în urma terapiei comportamentale. Acești copii învață să își comunice verbal intențiile și să folosească limbajul expresiv în scopul comunicării cu persoanele din jur, dar în același timp devin conștienți de propriul corp și pot începe să indice cu degetul către obiectul dorit.

Calcululele de statistică descriptivă pentru **scorurile totale ale domeniului socializare** evaluat prin testul ADOS. Teste Mann-Whitney ulterioare au arătat că au existat **diferențe semnificative ale acestor scoruri obținute la evaluările 2 și 3 față de prima evaluare dar**

și la ultima evaluare față de prima evaluare. Scorul total ADOS pe aria socializării se îmbunătățește semnificativ statistic în urma terapiei comoportamentale.

Teste Mann-Whitney ulterioare au arătat că a existat o **diferență semnificativă statistic între aceste scoruri însumate socializare + comunicare obținute la evaluările 2 și 3 față de prima evaluare** dar nu a existat o diferență semnificativă între evaluarea 3 și evaluarea a 2-a. Astfel, la însumarea scorurilor pentru ariile comunicare și socializare, care se află în strânsă legătură, se observă că evaluarea de după începerea terapiei comportamentale relevă o diferență semnificativă statistic față de scorul de dinaintea includerii în programul psihoterapeutic. Așadar, terapie comportamentală se corelează cu îmbunătățirea abilităților de comunicare și socializare. Cu toate acestea, nu s-a înregistrat o diferență între cele două evaluări de după momentul începerii terapiei. O posibilă explicație poate fi că, la începutul terapiei, copilul asimilează regulile de bază de comunicare și socializare, îmbunătățindu-și astfel scorurile pe aceste domenii, dar pe măsură ce noțiunile devin mai complexe, durata de asimilare a acestora va fi din ce în ce mai mare.

Pentru valorile totale ale **ADOS domeniul joc**, un test Mann-Whitney a arătat că a existat o diferență semnificativă statistic între valorile obținute la a doua evaluare față de prima evaluare ($U = 4191.00$, $p = .00$).

S-a calculat scorul total pentru domeniul ADOS D - *Comportamente stereotipe și interese restrânse* și s-a utilizat un test Mann-Whitney care a arătat că **a existat o diferență semnificativă statistic între scorul obținut la cea de-a doua evaluare față de prima evaluare.**

În *Figura 5* a fost sintetizată evoluția medianelor scorurilor totale pe fiecare din domeniile de interes evaluate cu ADOS la fiecare din evaluări.

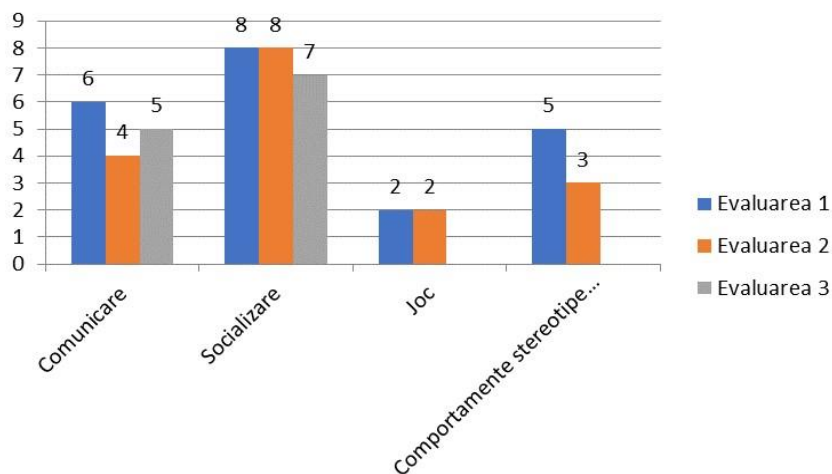


Figura 5. Evoluția pe arii de interes evaluate cu ADOS

La finalul studiului, pe baza instrumentului ADOS, **18.97% dintre subiecți au ieșit din spectru, nemaîndeplinind criteriile pentru TSA** (Figura 6). Deși simptomatologia tulburării de spectru s-a ameliorat pentru toți pacienții în urma includerii acestora într-un program de terapie comportamentală și funcționarea totală și pe arii s-a îmbunătățit, numai 1 din 5 copii a ieșit din spectrul autist. Acest fapt demonstrează faptul că, deși terapia comportamentală ajută la creșterea adaptabilității, a funcționării și a integrării copilului cu autism, ieșirea din spectrul autist este dificil de realizat, deoarece acestor copii le rămân deficite de interacțiune socială, de contact vizual, de inițiere a comunicării. Aducerea acestor abilități la nivelul unui copil tipic necesită o profundă înțelegere a teoriei minții și implică terapie comportamentală pe termen lung și chiar și în aceste condiții sunt cazuri în care nu se poate realiza.

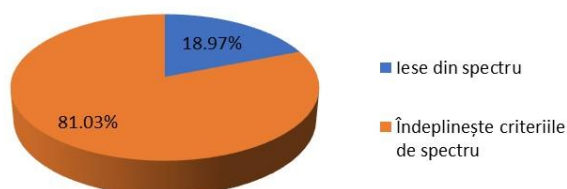


Figura 5. Distribuția procentuală a subiecților în funcție de îndeplinirea sau nu a criteriilor de TSA la finalul studiului

Testul ABAS

Toate scorurile ABAS specifice ariilor de funcționare au fost analizate separat și s-au constatat diferențe semnificativ statistice între cele 3 momente de evaluare. Astfel, putem concluziona că prin programul de terapie comportamentală **s-a îmbunătățit adaptabilitatea și funcționarea copiilor pe toate cele 10 arii studiate**: comunicare, utilizarea resurselor comunității, funcționalitate preșcolară, viața în familie, sănătate și siguranță, timp liber, autoîngrijire, autodirecționare, social și motricitate.

Figura 6 reprezintă o sinteză a evoluției valorilor mediane pentru fiecare din domeniile de interes măsurate cu ajutorul ABAS la fiecare din cele 3 evaluări.

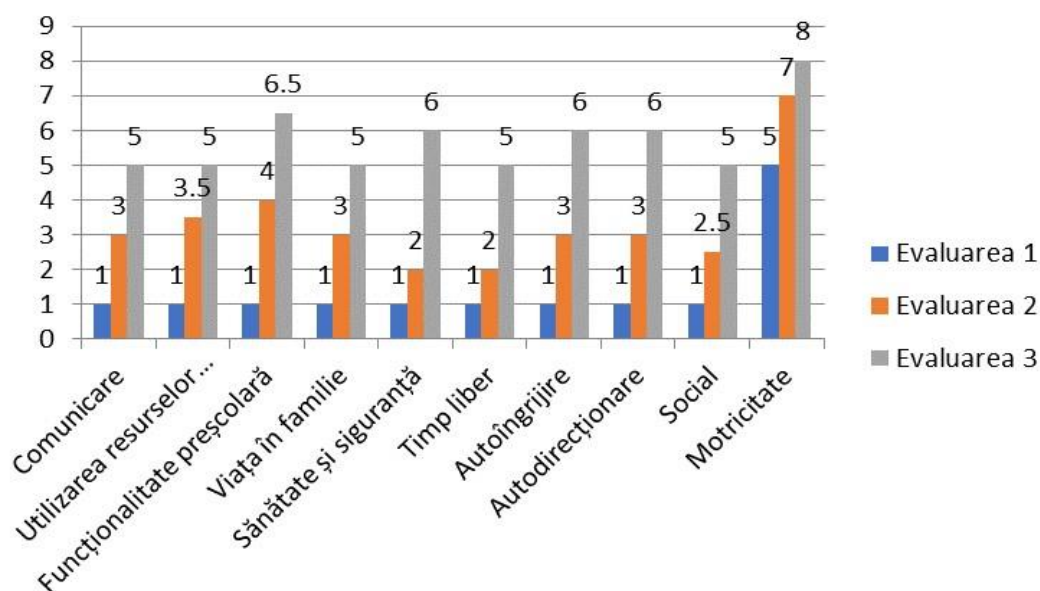


Figura 6. Evoluția pe domenii de interes folosind instrumentul ABAS

Pentru fiecare dintre cele 3 evaluări s-au calculat scorurile GAC compozite, astfel, la prima evaluare acest scor s-a situat între 40 și 78, cu o mediană de 45; la a doua evaluare între 40 și 87, cu o mediană de 57 iar la a treia evaluare între 47 și 114 cu o mediană de 68 (Figura 7). Teste Mann-Whitney au arătat că a existat diferențe semnificative statistic între cele 3 evaluări. Scorul GAC reprezintă expresia nivelului global de funcționare a copilului, iar acesta se îmbunătățește semnificativ după includerea în programul de terapie comportamentală.

Date de statistică descriptivă pentru valorile ABAS-GAC compozit la fiecare din cele 3 evaluări

	Evaluarea 1	Evaluarea 2	Evaluarea 3
Minim	40	40	47
Maxim	78	87	114
Mod	40	57	52
Mediana	45	57	68
Quartila 1	40	51	59.5
Quartila 2	48	62.5	82

Teste Mann-Whitney U pentru comparația între grupuri pentru scorurile ABAS domeniul ABAS-GAC scor compozit

Comparație între grupuri	U	P
1 / 2	1388.50	.00
1 / 3	333.50	.00
2 / 3	2783.50	.00

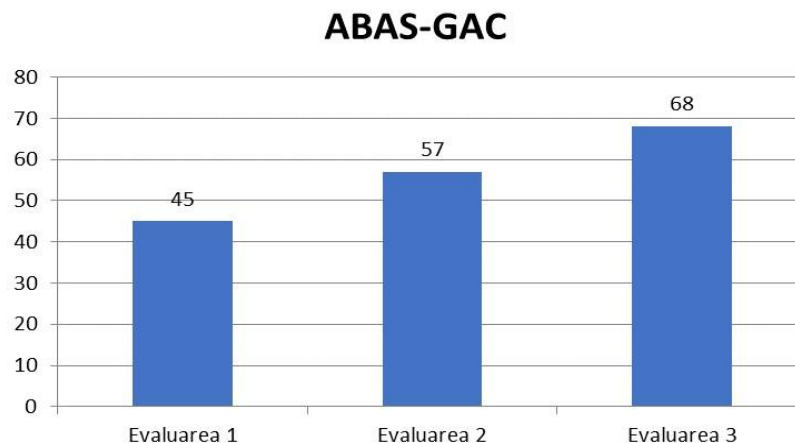


Figura 4. Evoluția scorului ABAS-GAC între cele 3 evaluări

II.6 Concluzii și discuții

În studiul de față **79.44 % au fost de gen masculin**. Deși literatura de specialitate arată o mare variabilitate a prevalenței TSA, care poate fi justificată de modalitatea de diagnostic, experiența celor implicați în stabilirea diagnosticului, beneficiile specifice fiecărui stat acordate pentru familiile cu un copil diagnosticat cu TSA, de etnicitatea copilului, studiile sunt concordante asupra faptului că TSA este mai frecvent diagnosticat la subiecții de sex masculin, 1/59 prevalență totală, 1/38 băieți și 1/151 fete conform unui review al literaturii (Augustyn M, 2018).

Subiecții incluși în studiu au început terapia, cel mai frecvent, înainte de vârsta de 4.5 ani. În prezent neuroplasticitatea nu se mai crede a fi limitată la anumite ferestre de vârstă, existând beneficii nesperate ale terapiei începute chiar și la vârste mai mari. Susținem ideea conform căreia experiența modelează circuite cerebrale existente sau stabilește noi conexiuni interneuronale (Dobrescu, 2016).

Numărul optim de ore de terapie recomandate pe săptămână este de 25 de ore, timp de 12 luni pe an (Weissman L et al, 2018). În studiul de față, **subiecții au beneficiat cel mai frecvent de un număr de ore cuprins între 2-2.5/zi**, ceea ce se încadrează sub limita recomandată. Cu toate acestea subiecții au realizat progrese semnificative pe diverse arii de

dezvoltare. În țara noastră, accesul la terapie începe să devină posibil și în orașele mici, rămânând în schimb dificultatea acoperirii costurilor pe care această terapie le presupune. Ne putem gândi ca acesta este motivul și pentru absența unei corelații pozitive între vârsta subiectului și numărul de ore de terapie efectuate pe zi deși, la nivel teoretic, stabilirea unui diagnostic la vârste mai mari ar trebui să atragă după sine o intervenție mai incisivă.

72.53% dintre subiecți au provenit din teritoriu (fie mediul rural, fie urban). Faptul că studiul de față a arătat că **nu a existat o diferență semnificativă statistic între vârsta la începerea terapiei a celor din București și vârsta celor din teritoriu poate fi un indicator al accesibilității serviciilor.**

74.62% dintre subiecți au avut mame cu studii superioare, 23.85% - cu studii medii, 1.54% - studii gimnaziale și nicio mamă nu a fost neșcolarizată. **66.14% dintre subiecți au avut tați cu studii superioare**, 30.71% - cu studii medii, 3.15% - studii gimnaziale și niciun tată neșcolarizat. **Nivelul de pregătire al părinților nu a influențat vârsta de începere a terapiei.**

Scorurile pentru variabilele ADOS-A2 – Frecvența vocalizării direcționate către ceilalți, ADOS A5 – stereotipă/idiosincratică de cuvinte sau expresii, A7 – Indicarea cu degetul s-au îmbunătățit semnificativ între cele 3 momente ale evaluării. S-a calculat **scorul total pentru domeniul comunicare** însumând scorurile obținute pentru fiecare item evaluat și s-a observat o **ameliorare semnificativă a acestora la evaluările 2 și 3 față de evaluarea inițială**. Nu s-a observat o ameliorare la evaluarea 3 față de evaluarea 2.

Scorurile totale obținute la domeniul Socializare au fost semnificativ ameliorate la evaluările 2 și 3 față de prima evaluare dar și la evaluarea 3 față de evaluarea 2. **Scorurile totale însumate pentru domeniile Socializare și Comunicare obținute la evaluările 2 și 3 au fost semnificativ statistic ameliorate față de prima evaluare** dar nu s-a obținut o diferență semnificativă la evaluarea 3 față de evaluarea 2.

Scorurile totale obținute pentru domeniul Joc au fost semnificativ ameliorate la a doua evaluare față de prima.

Scorul ADOS total pentru domeniul care evaluează **prezența comportamentului stereotip și a intereselor particulare a fost semnificativ ameliorat** la cea de-a doua evaluare față de prima evaluare.

La finalul studiului, pe baza instrumentului ADOS, **18.97% dintre subiecți au ieșit din spectru, nemaîndeplinind criteriile pentru TSA.**

Toate scorurile ABAS specifice ariilor de funcționare au fost analizate separat și s-au constatat diferențe semnificativ statistice între cele 3 momente de evaluare. Astfel, putem concluziona că prin programul de terapie comportamentală **s-a îmbunătățit adaptabilitatea și funcționarea copiilor pe toate cele 10 arii studiate**: comunicare, utilizarea resurselor comunității, funcționalitate preșcolară, viața în familie, sănătate și siguranță, timp liber, autoîngrijire, autodirecționare, social și motricitate.

Scorurile GAC calculate pe baza formularului ABAS reprezintă nivelul global de funcționare al subiectului. În studiul de față a existat o **îmbunătățire semnificativă scorului GAC între evaluări.**

II.7 Limitările studiului

Dimensiunea lotului. Mărimea eșantionului nu este una foarte mare, fapt ce poate scădea puterea statistică și poate face dificilă generalizarea rezultatelor pentru toți copiii diagnosticați cu tulburare de spectru autist. Cu toate acestea, considerăm că prezentul studiu poate reprezenta un punct de plecare pentru cercetări ulterioare, având în vedere că este singurul studiu din România cu rezultate publicate în literatura de specialitate, care analizează evoluția copiilor cu tulburare de spectru autist sub terapie comportamentală structurată, omogenă.

Heterogenitatea lotului. În lot au fost incluși copii cu scoruri ADOS diferite și cu severitate a simptomatologiei diferită. În mod ideal, ar trebui formate mai multe loturi, în funcție de scorul ADOS inițial și ulterior analizată comparativ evoluția acestor loturi.

Evaluarea cu ajutorul instrumentului ADOS 1. La momentul demarării studiului, testul Gold Standard pentru evaluarea copiilor cu tulburare de spectru autist era reprezentat de instrumentul ADOS. În noiembrie 2018 a fost lansat în România ADOS 2, iar o eventuală

evaluare cu acest instrument ar putea conduce la rezultate diferite. Este de recomandat ca viitoarele cercetări în domeniu să utilizeze cele mai recente instrumente de evaluare și diagnostic.

Lipsa comorbidităților. Deși în ipotezele formulate la momentul demarării cercetării ne-am propus să analizăm influența comorbidității ADHD sau a întârzierii mintale asupra eficienței terapiei, în lotul format nu am avut suficienți pacienți care să prezinte aceste comorbidități astfel încât să putem aplica teste statistice.

Resursa umană. Aplicarea terapiei și evaluările periodice sunt supuse unui grad de subiectivism. În cazul tulburărilor de spectru autist nu există metode paraclinice perfect obiective care să ajute la evaluare, toate chestionarele și scalele fiind aplicate de către psihologi instruiți pe baza afirmațiilor părinților și a observațiilor clinice. Inevitabil, o astfel de metodă de evaluare nu poate avea un grad perfect de obiectivitate.

III. BIBLIOGRAFIE SELECTIVĂ

1. Akshoomoff, N., Corsello, C., Schmidt, H., 2006, The Role of Autism Diagnostic Observation Schedule in the Assessment of Autism Spectrum Disorders in School and Community Settings. *Calif School Psychol.*, 11, 7-19.
2. Augustyn M. 2018, Autism spectrum disorder: Terminology, epidemiology, and pathogenesis, Uptodate.
3. B. O'Connor, Anne & Healy, Olive. (2010). Long-term post-intensive behavioral intervention outcomes for five children with Autism Spectrum Disorder. *Research in Autism Spectrum Disorders - RES AUTISM SPECTR DISORD.* 4. 594-604.
10.1016/j.rasd.2009.12.002.
4. Baer, D. M., Wolf., M. M., Risley, T. R., 1968, Some current dimensions of applied behavior analysis. *Journal of Applied Behavior Analysis*, 1 (1), 91-97.
5. Baio J, Wiggins L et al. 2018, Prevalence of Autism Spectrum Disorder Among Children Aged 8 Years — Autism and Developmental Disabilities Monitoring Network, 11 Sites, United States, 2014. *MMWR Surveill Summ*;67(No. SS-6):1–23).
6. Baron-Cohen S, Leslie AM, Frith U, 1985, Does the autistic child have a "theory of mind"?, *Cognition*, 21(1):37-46.
7. Baron-Cohen S, Theory of mind in normal development and autism, *Prisme*, 2001, 34, 174-183.
8. CDC Data and Statistics, 2014, <https://www.cdc.gov/ncbddd/autism/data.html>
9. Community-University Partnership for the Study of Children, Youth, and Families, 2011, *Review of the Adaptive Behaviour Assessment System. Second Edition (ABAS II)*. Edmonton, Alberta, Canada.
10. Cooper, J. O., Heron, T. E., Heward, W. L., 2007, *Applied behavior analysis* (2nd ed.). Upper Saddle River, NJ: Pearson.
11. Dobrescu I, 2010, Manual de Psihiatrie a copilului și Adolescentului, vol. 1, Editura Infomedica, București
12. Dobrescu I, 2016, Manual de Psihiatrie a copilului și adolescentului, vol 1, Ediția II revizuită și adăugită, Editura Total Publishing, București,
13. DSM 5, ediție limba română, 2016, Editura Medicală Calisto, ISBN 978-606-804314-2

14. Evans B, 2013, How autism became autism: The radical transformation of a central concept of child development in Britain, *History of the human sciences*, 26(3), 3-31
15. Filipek PA, Accardo PJ, Baranek GT, Cook EH Jr, Dawson G, Gordon B, Gravel JS, Johnson CP, Kallen RJ, Levy SE, Minshew NJ, Ozonoff S, Prizant BM, Rapin I, Rogers SJ, Stone WL, Teplin S, Tuchman RF, Volkmar FR, 1999, The screening and diagnosis of autistic spectrum disorders, *J Autism Dev Disord*, 29(6):439-84
16. Fuentes J, Bakare M, Munir K, Aguayo P, Gaddour N, Öner Ö, Mercadante M., 2012, Autism spectrum disorders. In Rey JM (ed), *IACAPAP e-Textbook of Child and Adolescent Mental Health*. Geneva: International Association for Child and Adolescent Psychiatry and Allied Professions
17. Gaugler T, Klei I, Sanders SJ, Bodea CA, Goldberg AP, Lee AB, Mahajan M, Manaa D, Pawitan Y, Rechert J, Ripke S, Sandin S, Sklar P, Svantesson O, Reichenberg A, Hultman CM, Devlin B, Roeder K, Buxbaum JD, 2014, Most genetic risk for autism resides with common variation, *Nat Genet*, 46 (8):881-885, doi: 10.1038/ng3039
18. ICD 10, ediție limba română, 1998, Ed ALL Educational, ISBN 973-9392-73-3
19. Kim Sung K, 2015, *Recent update of autism spectrum disorders*, *Korean J Pediatr*, 58 (1): 8-14
20. Koegel Lynn, Robert Koegel, 2006, *Pivotal Response Treatments for Autism. Communication, Social & Academic Development*, Paul H. Brookes Publishing Co., , p. 4 21. Landrigan Phillip J, 2010, What causes autism? Exploring the environmental contribution, *Current Opinion in Pediatrics*, 22 (2):219-225
22. McCary L. M., Roberts J. E., 2013, Early identification of autism in fragile X syndrome: a review, *J Intellect Disabil Res*, 57(9): 803-814, doi: 10.1111/j.1365-2788.2012.01609.x
23. McGee, G. G., Morrier, M. J. & Daly, T., 1999, An incidental teaching approach to early intervention for toddlers with autism. *JASH* , 24(3), 133-146.
24. Mossman Steiner Amanda, Grace W. Gengoux, Ami Klin, Katarzyna Chawarska, 2013, Pivotal Response Treatment for infants at-risk for autism spectrum disorders: a pilot study, *J Autism Dev Disord*,; 43(1): 91-102
25. National research Council, Comitee on Educational Interventions for children with autism, 2001, *Educating children with autism*, National Academies Press, Washington 26.

NICE, 2011, *Autism: Recognition, Referral and Diagnosis of Children and Young People on the Autism Spectrum*, London: Royal College of Obstetricians and Gynaecologists,

RCOG Press

27. Risley, B. M. & Risley, T. R. ,1978, Promoting productive language through incidental teaching. *Education and Urban Society* , 10, 407-429.

28. Roberts Eric M., Paul B. English, Judith K. Grether, Gayle C. Windham, Lucia Somberg, Craig Wolff, 2007, Maternal Residence Near Agricultural Pesticide Applications and Autism Spectrum Disorders among Children in the California Central Valley, *Environ*

Health Perspect,115:1482-1489

29. Rogers Sally J, Geraldine Dawson, 2010, *Early Start Denver Model for young children with autism. Promoting language, learning & angagement*, The Guilford Press, New York,p. 15

30. Rutter M., Anthony Bailey, Catherine Lord, D- SCQ- The Social Communication Questionnaire, adaptat în România de Cătălina Sîrbu, Dragoş Iliescu, Daniel David, 2011, Bucureşti, pag 1- 11

31. Sandin Sven, Paul Lichtenstein, Ralf Kuja-Halkola, Henrik Larsson, Christina M. Hultman, Abraham Reichenberg, 2014, The familial risk of autism, *JAMA*, 311 (17):1770-1777, doi: 10.1001/jama2014.4144

32. Tharpar A, Pine DS, Leckman JF, Scott S, Snowling MJ, Taylor E, 2015, *Rutter's Child and Adolescent Psychiatry*, 6th Edition, Ed. Wiley-Blackwell, ISBN 978-1-118-381960

33. Weissman L, Bridgemohan C, 2018, *Autism spectrum disorder in children and adolescents: Behavioral and educational interventions*, Uptodate