



Universiteit Utrecht
Opleiding MSc Logopediewetenschap
Clinical Language, Speech, and Hearing Sciences

Master's Thesis

Evidence-based richtlijn ontwikkelingsstotteren bij kinderen en volwassenen

Kwaliteit van bewijs voor het effect van behandeling van jonge stotterende kinderen

Mark Pertijs
3701387

Supervisie:
Prof. Dr. F.N.K. Wijnen (U.U.)
Dr. Ir. J.J.A. de Beer (C.B.O.)

11 augustus 2013

Inhoudsopgave

1. Inleiding	
1.1 Evidence-based richtlijn ontwikkelingsstotteren	3
1.2 Behandeling van jonge stotterende kinderen	6
1.2.1. Demands and Capacities Model	6
1.2.2. Lidcombe Programma	7
2. Probleemstelling	9
3. Methode	9
3.1. Inclusie- en exclusiecriteria	10
3.2. Literatuurzoekactie	10
3.3. Selectie en beoordeling van de literatuur	11
3.4. De richtlijntekst	13
4. Resultaten	
4.1. Informatie over de selectie van de studies	14
4.2. Overzicht van systematische reviews en meta-analyses	
4.2.1. Nye et al. (2012)	16
4.2.2. Bothe et al. (2006)	21
4.2.3. Herder et al. (2006)	22
4.2.4. Onslow et al. (2012)	22
4.3. Individuele studies naar gewenste en ongewenste effecten	
4.3.1. Bonelli et al. (2000)	24
4.3.2. Onslow et al. (2002)	24
4.3.3. Woods et al. (2002)	24
4.3.4. Jones et al. (2008)	25
5. Conclusie	26
5.1. Samenvatting	27
6. Discussie	29
6.1. Aanbevelingen	29
Referenties	31
Bijlagen	
Bijlage 1: Overzicht van zoekacties voor stotteren	35
Bijlage 2: Methodologische kwaliteit. Nye et al. (2012)	37
Bijlage 3: Beoordeling kwaliteit van bewijs voor Effectgrootte. Nye et al. (2012)	42
Bijlage 4: Risk op bias Randomised Controlled Trials	44
Bijlage 5: Methodologische kwaliteit Bothe et al. (2006)	45
Bijlage 6: Methodologische kwaliteit Herder et al. (2006)	47

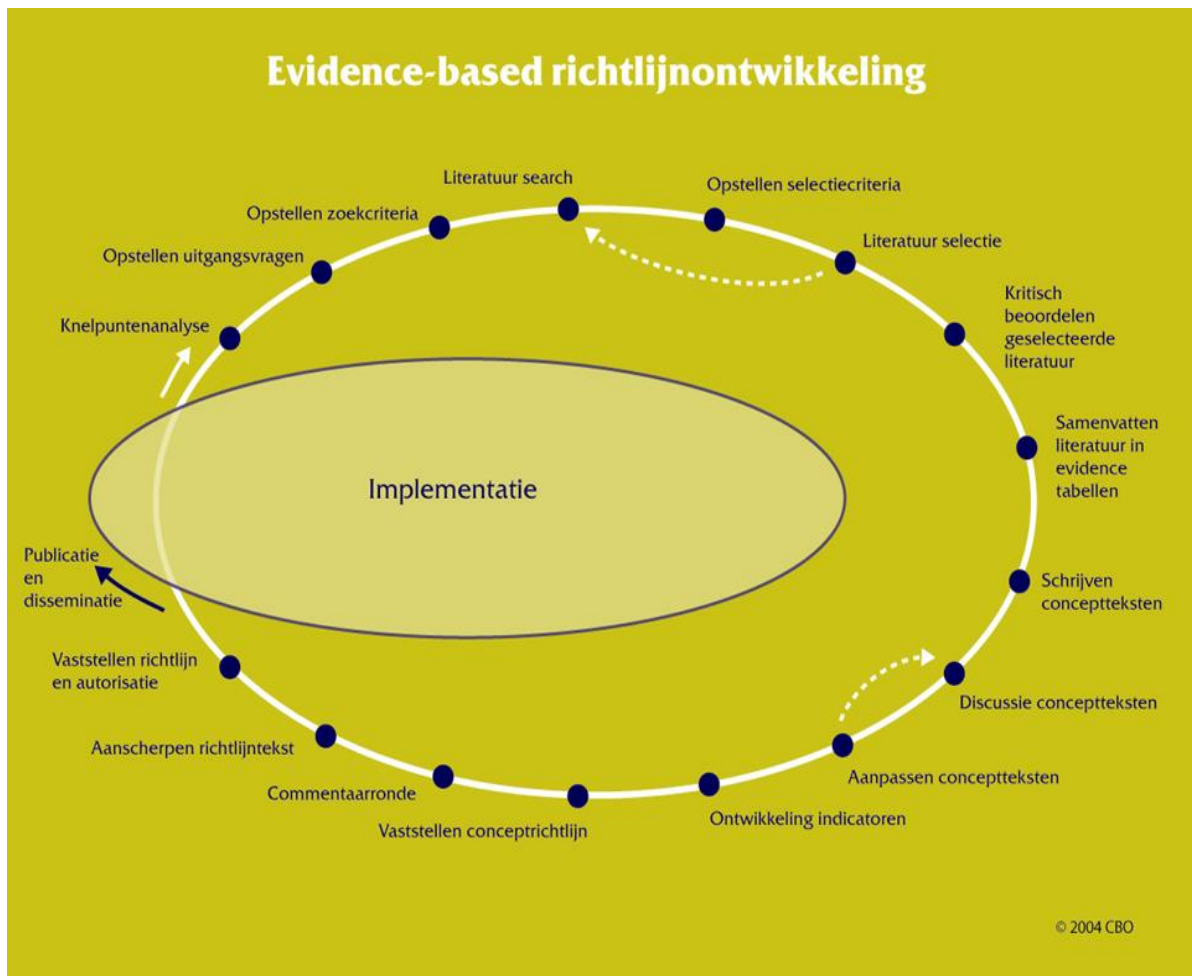
1. Inleiding

1.1. Evidence-based richtlijn ontwikkelingsstotteren bij kinderen en volwassenen

Stotteren wordt beschreven als een stoornis in de vloeiendheid van het spreken. De International Classification of Diseases (ICD) van de World Health Organization (WHO) definieert stotteren als “spraak, gekarakteriseerd door het frequent herhalen of verlengen van klanken, syllaben of woorden, of als “spraak, gekenmerkt door frequent aarzelen of pauzeren” (WHO, 2013). Stotteren begint meestal tussen het tweede en vijfde levensjaar. Deze vorm van stotteren met zijn typische onset in de kinderjaren wordt wel ontwikkelingsstotteren genoemd (Van Borsel, 2000). Stotteren is een multifactorieel communicatieprobleem, dat vaak gepaard gaat met comorbiditeit op het gebied van taal, articulatie, sensomotoriek, cognities, emoties en gedrag, en het is een communicatieprobleem waarvan de problemen zich uiten in de sociaal-communicatieve context. De onderlinge wisselwerking van de verschillende factoren is lastig te bepalen.

Voor de behandeling van stotteren bestaan verschillende mogelijkheden. Voor de logopedist, de logopedist-stottertherapeut, de cliënt en de zorgverzekeraar is lang niet altijd duidelijk welke therapievorm in welke situatie het beste is. Cliënten krijgen daardoor niet altijd de optimale zorg die zij nodig hebben. Sinds september 2012 wordt onder begeleiding van het instituut voor kwaliteitszorg CBO in opdracht van de Nederlandse Vereniging voor Logopedie en Foniatrie (NVLF), de Nederlandse Vereniging voor Stottertherapie (NVST) en de Nederlandse stottervereniging Demosthenes een *Evidence-based richtlijn ontwikkelingsstotteren bij kinderen en volwassenen* ontwikkeld. Het doel van deze richtlijn is te definiëren hoe goede diagnostiek, behandeling en nazorg bij cliënten die stotteren eruit dient te zien, zodat cliënten de optimale zorg krijgen, die zij nodig hebben.

Een evidence-based richtlijn is een document met aanbevelingen ter ondersteuning van de besluitvorming door professionals in de zorg en patiënten, en berustend op de resultaten van wetenschappelijk onderzoek met daarop gebaseerde discussie en aansluitende meningsvorming, gericht op het expliciteren van doeltreffend en doelmatig handelen (EBRO, 2007). Uitgangspunt voor de werkwijze bij het ontwikkelen van de *Evidence-based richtlijn ontwikkelingsstotteren bij kinderen en volwassenen* is de handleiding Evidence-based richtlijnontwikkeling (EBRO, 2007) en de Richtlijn voor Richtlijnen (Regieraad Kwaliteit van Zorg, 2011).



Afbeelding 1: Traject Evidence-based richtlijnontwikkeling (EBRO, 2007)

Om de richtlijn ontwikkelingsstotteren zo goed mogelijk aan te laten sluiten bij de behoefte van de dagelijkse praktijk is een knelpuntenanalyse uitgevoerd (Pertijs, 2012). Medisch-inhoudelijke knelpunten en zorgorganisatorische/procesmatige knelpunten zijn geïnventariseerd met behulp van een knelpuntenenquête. Geraadpleegd zijn logopedisten en logopedist-stottertherapeuten, direct betrokken bij de zorg van personen die stotteren, leden van de patiëntenvereniging Demosthenes en beroepsorganisaties die indirect zijn betrokken bij de diagnostiek en behandeling van personen die stotteren. Dit zijn:

- Artsen Jeugdgezondheidszorg Nederland
- Nederlands Huisartsen Genootschap
- Nederlands Instituut van Psychologen
- Nederlandse Vereniging voor Arbeids- en Bedrijfsgeneeskunde
- Nederlandse Vereniging voor Keel-Neus-Oorheelkunde en Heelkunde van het Hoofd-Halsgebied
- Nederlandse Vereniging voor Kindergeneeskunde
- Landelijke Beroepsgroep Begeleiders in het Onderwijs

Op grond van de knelpuntenanalyse zijn zeven concept uitgangsvragen geformuleerd door de richtlijnadviseurs van het CBO en de richtlijn werkgroep. De werkgroep bestaat uit afgevaardigden van de NVLF, de NVST en van patiëntenvereniging "Demosthenes".

De uitgangsvragen waarover de richtlijn een uitspraak zal doen zijn:

Medisch inhoudelijke vragen

1. Wat zijn de indicaties om kinderen en volwassenen met ontwikkelingsstotteren te behandelen?
2. Wat is de diagnostische waarde van test (I₁, I₂, ...) bij kinderen en volwassenen met ontwikkelingsstotteren?¹
3. Wat zijn de gewenste en ongewenste effecten (O₁, O₂, ...) van een bepaalde behandeling (I₁, I₂, ...) in vergelijking met geen of een andere behandeling (C₁, C₂) bij kinderen en volwassenen met ontwikkelingsstotteren (P)?¹

Verwijzing

4. Op welk moment en onder welke omstandigheden dient een patiënt met ontwikkelingsstotteren naar welke zorgverlener te worden verwezen?

Informatievoorziening

5. Welke informatie over ontwikkelingsstotteren dient voor wie wanneer, in welke vorm, beschikbaar te zijn?

Samenwerking

6. Hoe ziet een adequate samenwerking / afstemming tussen de verschillende bij ontwikkelingsstotteren betrokken zorgverleners² er uit?

Nazorg

7. Hoe dient adequate nazorg³ te worden georganiseerd en uitgevoerd?

¹ De vraagstelling gaat uit van de PICO-elementen ter specificatie van populatie(P), interventie (I), vergelijking (C), en uitkomstmaat(O) (EBRO, 2007 ; Higgins & Green, 2008).

² De zorgverleners die mogelijk betrokken zijn bij ontwikkelingsstotteren zijn: huisartsen, medisch specialisten, logopedisten, logopedist-stottertherapeuten, psychologen, maatschappelijk werkers, leerkrachten en intern begeleiders.

³ Onder nazorg wordt verstaan die zorg die wordt gegeven als de zorgvrager weer bijna genezen is of de zorg na een behandeling (Zorgcontext, 2013)

1.2. Behandeling van jonge stotterende kinderen

De Evidence-based richtlijn ontwikkelingsstotteren bij kinderen en volwassenen beoogt te definiëren hoe goede diagnostiek, behandeling en nazorg bij kinderen en volwassenen met ontwikkelingsstotteren eruit dient te zien. Het onderzoek dat in het kader van dit afstudeertraject werd uitgevoerd doet enkel uitspraken over de gewenste en ongewenste effecten van de behandeling van jonge kinderen met ontwikkelingsstotteren. In dit hoofdstuk over de behandeling van jonge stotterende kinderen wordt nader ingegaan op het belang van vroegtijdige interventie bij kinderen met ontwikkelingsstotteren en op de meest gangbare therapieën voor jonge stotterende kinderen in Nederland

Stotteren ontstaat meestal tussen het 2^e en 5^e levensjaar. Ongeveer 5% van de vijf- en zesjarige kinderen stottert (Bloodstein & Bernstein Ratner, 2008). Een recente cohortstudie heeft bewijs gevonden dat de cumulatieve incidentie op driejarige leeftijd tot 8,6% op kan lopen en mogelijk nog hoger is over een langere periode (Reilly et al., 2009). Tot ongeveer 75% van de kinderen geneest van het stotteren zonder therapie (Bloodstein & Bernstein Ratner, 2008). Persisterend stotteren in de familie, geslacht, duur sinds het begin van het stotteren, fonologische vaardigheden en stotternst behoren tot de belangrijkste voorspellers voor genezing (Guitar, 2013). De kans op spontaan herstel confronteert ouders van het jonge kind dat begint te stotteren en logopedisten met de vraag of het jonge stotterende kind wel of niet behandeld moet worden. Enerzijds verdwijnt het stotteren mogelijk zonder behandeling, wat een reden kan zijn om het natuurlijk verloop van de ontwikkeling van het spreken af te wachten. Anderzijds tonen longitudinale studies aan dat uitstel van behandeling de kans op chronisch stotteren vergroot (Mansson, 2000; Yairi & Ambrose, 2005). Als stotteren op jonge leeftijd niet geneest, met of zonder therapie, dan zal een aantal kinderen blijven stotteren en langdurig problemen ervaren op gebied van participatie in onderwijs, beroep en sociale interactie alsook op gebied van emoties, cognities en communicatie (Onslow & Millard, 2012)

Persisterend stotteren heeft verstrekkende gevolgen voor het kind en zijn ouders. Kinderen ervaren frustratie ten gevolge van het stotteren, maken zich zorgen en gaan minder spreken. Ouders zijn bezorgd, voelen zich schuldig en hebben gebrek aan vertrouwen over de wijze waarop zij hun stotterende kind kunnen ondersteunen (Langevin, Packman, & Onslow, 2010; Millard, Edwards, & Cook, 2009). De mogelijke gevolgen van het stotteren op korte en lange termijn zijn argumenten om te pleiten voor vroegtijdige behandeling van stotteren bij jonge kinderen. Verschillende behandelprocedures zijn ontwikkeld voor het behandelen van jonge stotterende kinderen: Coppola & Yairi, 1982; Costello, 1983; Culp, 1984; Gregory, 1995; Martin, Kuhl & Haroldson, 1972; Onslow, Costa & Rue, 1990; Reed & Godden, 1977; Riley & Riley, 1984; Rustin, Botteril & Kelman, 1996; Ryan & Ryan, 1983; Shine, 1984; Starkweather, Gottwald & Halfond, 1990; St. Louis, Clausell, Thompson & Rife, 1982; Wakaba, 1983 (in Franken et al., 2005).

1.2.1. Demands and Capacities Model

In Nederland geldt dat sinds het eind van de jaren '80 van de vorige eeuw behandeling van stotteren gebaseerd op het Demands and Capacities Model (DCM) (Starkweather et al., 1990), ook het Verwachtingen en Mogelijkheden-model genoemd (Starkweather et al., 1991), als de

behandelstandaard voor jonge stotterende kinderen. Deze benadering werd de laatste 25 jaar onderwezen aan Nederlandse logopedisten in opleiding.

Franken en Putker (2012) beschrijven in het behandelprotocol dat is ontwikkeld in het kader van het ZonMW project “Cost-effectiveness of the Demands and Capacities Model based treatment compared to the Lidcombe Programme of early stuttering intervention”, de benadering volgens het Demands en Capacities Model als volgt: “ In de benadering volgens het Demands en Capacities Model (DCM, o.a. Starkweather et al., 1990; Starkweather & Franken, 1991; Starkweather & Givens-Ackerman, 1997; Gregory, 2003; Riley & Riley, 1999; Conture, 2001; Kelman & Nicholas, 2008) wordt ervan uitgegaan dat gunstige veranderingen in motorische, linguïstische, sociaal-emotionele en/of cognitieve factoren bij het kind dat stottert en/of veranderingen van de eisen die de omgeving, impliciet dan wel expliciet stelt aan de verbale communicatie van het kind tot een vermindering c.q. herstel van het stotteren zullen leiden. De DCM-behandeling heeft tot doel de verwachtingen (eisen) aan de mondelinge communicatie van de peuter of kleuter die stottert in balans te brengen met de mogelijkheden (capaciteiten) van het kind op motorisch, linguïstisch, sociaal-emotioneel en/of cognitief gebied” (p.4). Hoewel de verschillende geciteerde experts duidelijk eigen accenten leggen in hun manier van werken, is hun benadering op te vatten als een ‘Demands-and-Capacities Model benadering’: stotteren wordt daarbij beschouwd als een uiting van een onbalans tussen de ‘Demands’, de verwachtingen ten aanzien van vloeiend spreken, en de ‘Capacities’, de mogelijkheden of vaardigheden voor vloeiend spreken (Starkweather & Franken, 1991). Afhankelijk van wat nodig blijkt, wordt er in de logopedie(-stottertherapie) gewerkt aan gedragsveranderingen, aan verwerking van gevoelens en aan training van vaardigheden. Als het verlagen van verwachtingen en het vergroten van mogelijkheden niet voldoende blijkt om het stotteren te verhelpen, kan direct aan vloeiender spreken worden gewerkt door modeling van langzamere, minder gespannen spraak. Iedere therapie start met omgevingsbegeleiding gericht op verlaging van de verwachtingen. Die kunnen komen van personen in de communicatieve omgeving van het kind en van het kind zelf. De verwachtingen ten aanzien van vloeiend spreken die van toepassing blijken voor het specifieke kind worden verlaagd door counseling en training van ouders, het kind zelf, broertjes en zusjes, leraren, verzorgers en belangrijke anderen die invloed op het kind hebben. Het doel is structureel (vaker) omstandigheden te creëren waarin het kind met zijn mogelijkheden van dat moment vloeiend kan spreken en om het kind aan te moedigen in die omstandigheden te spreken waardoor vloeiend spreken positief wordt bekrachtigd. Expliciete training van de mogelijkheden voor vloeiend spreken van het kind wordt indien nodig in tweede instantie toegevoegd aan de behandeling (Franken & Putker, 2012).

Klinisch bewijs voor werkzaamheid van behandeling gebaseerd op het Demands and Capacities Model is afkomstig uit subjectieve metingen en uit case studies (Pertijs, 2007) en uit een vergelijkende pilot studie waarin 30 kinderen at random werden toegewezen voor behandeling gebaseerd op het Demands and Capacities Model of behandeling met het Lidcombe Programma (Franken et al., 2005).

1.2.2. Het Lidcombe Programma

In Nederland worden jonge stotterende kinderen sinds het jaar 2000 ook behandeld met het Lidcombe Programma (Onslow et al., 1990). In tegenstelling tot het Demands and Capacities Model

ligt aan het Lidcombe Programma (LP) geen etiologisch model ten grondslag. LP is een operant gedragstherapeutische behandelingsmethode waarbij door middel van verbale, respons contingentie stimulerende het stotteren wordt verminderd. De focus van LP is gericht op het probleemgedrag stotteren en het doel is niet-stotteren. De behandeling met LP wordt uitgevoerd door de ouders. LP bestaat uit twee stadia. Gedurende fase 1 van het programma bezoeken ouders en kind de logopedist één uur per week. De logopedist leert de ouder het stotteren van het kind te controleren met drie verbale respons contingenties voor stottervrije spraak en twee verbale contingenties voor gestotterde spraak. De ouders leren tevens om dagelijks de ernst van het stotteren te meten op een 10-puntsschaal (1 = geen stotteren, 2 = heel licht stotteren, 10 = zeer ernstig stotteren). De logopedist meet bovendien de stotterernst wekelijks in de kliniek. Fase 1 van het programma eindigt wanneer in het dagelijks leven een ernstscore van 1 of 2 op de 10-puntsschaal wordt gemeten gedurende drie weken en bij een ernstscore van 1 of 2 in de kliniek gedurende drie weken. Gemiddelde duur van de behandeling in fase 1 bedraagt 10 sessies bij kinderen die mild stotteren, 12 sessies bij matig stotteren en 14 sessies bij ernstig stotteren (Koushik et al., 2011). De tweede fase van de behandeling is gericht op consolidatie van de bereikte resultaten. In deze fase wordt de behandelingsfrequentie in 7 sessies stapsgewijs afgebouwd gedurende 44 weken. De behandelingsessies duren een half uur.

Voor de werkzaamheid van LP is er klinisch bewijs afkomstig uit gerandomiseerde klinische studies gebaseerd op percentages gestotterde lettergrepen gemeten buiten de klinische situatie: Harris, Onslow, Packman, Harrison, & Menzies, 2002; Jones et al., 2005; Lattermann, Euler, & Neumann, 2008; Lewis, Packman, Onslow, Simpson, & Jones, 2008 (Onslow & Millard, 2012). Het bewijsmateriaal voor de werkzaamheid van LP is afkomstig van studies uit verschillende landen: Australië (Onslow, Andrews, & Lincoln, 1994), Nieuw-Zeeland (Jones et al., 2005.), Duitsland (Lattermann et al., 2008), de Verenigde Staten (Miller & Guitar, 2009), Nederland (Franken, Kielstra-Van der Schalk, & Boelens, 2005), Canada (Lattermann, Shenker, en Thordardottir, 2005) en Iran (Bakhtiar & Packman, 2009) (in Onslow & Millard, 2012).

Ondanks het gepubliceerde bewijs voor werkzaamheid is LP niet onomstreden onder meer omdat het programma a-theoretisch is in die zin dat het niet is gebaseerd op een oorzakelijke theorie of ideeën over beginnend stotteren (Onslow & Millard, 2012). Een wezenlijk element in LP is het corrigeren van het stottermoment. Oorspronkelijk werd deze correctie in gedragstermen omschreven als bestraffing. Bestrafing van het stottermoment leidt volgens Bernstein Ratner (2005) niet tot vergroting van onze kennis over de mechanismen die een stottermoment bij een kind uitlokken of voorkomen (Pertijs, 2007).

Een andere reden waarom LP bij therapeuten omstreden kan zijn is de eenzijdige focus op de uiterlijke gedragingen van het stottergedrag als ernstmaat om te bepalen of een kind behandeling nodig heeft en om de progressie van de behandeling te meten. Verschillende auteurs hebben aangegeven dat stotteren uit meer bestaat dan de uiterlijke kenmerken (Yaruss & Quesal, 2006). Meting van enkel het uiterlijke stottergedrag is een beperkte wijze om de ernst van het stotteren en de met het stotteren samenhangende gedragingen en factoren, zoals bijvoorbeeld vermijdingsgedrag en "intrinsieke factoren", te bepalen (Pertijs, 2007). Volgens Boey (2009) zou een aangetoond ongunstig neveneffect van LP zijn dat kinderen spreken beginnen te vermijden en dat wellicht de relatie tussen de kinderen en hun ouders schade oploopt.

Het ontbreken van een evidence-based richtlijn aanbeveling voor de behandeling van jonge stotterende kinderen maakt dat het voor de logopedist, de logopedist-stottertherapeut, de cliënt en de zorgverzekeraar niet voldoende duidelijk is wat de relatieve effectgrootte is van behandeling met LP versus DCM. Met andere woorden: het is onvoldoende duidelijk wat de effectgrootte van behandeling met DCM is in vergelijking met de effectgrootte van behandeling met LP. Dit geldt tevens voor de beoordeling van de mate van onzekerheid van het effect met behulp van een geavanceerde graderingssystematiek aangezien hier in de wetenschappelijke literatuur weinig aandacht aan wordt besteed. Ook de mate van wetenschappelijk bewijs en de mate van onzekerheid van dit bewijs voor de vermeende mogelijke schadelijke bijwerkingen van behandeling met LP op het kind en de ouders is onvoldoende beschreven. De discussie over deze schadelijke bijwerkingen, zoals toename van vermijdingsgedrag, worden voornamelijk bepaald door persoonlijke meningen van experts.

2. Probleemstelling

In het kader van de *Evidence-based Richtlijn Ontwikkelingsstotteren bij kinderen en volwassenen* leidt bovenbeschreven situatie met betrekking tot het behandelen van jonge stotterende kinderen in Nederland tot de volgende vraagstelling, die uitgaat van de PICO(S)-elementen ter specificatie van populatie, interventie, vergelijking, uitkomstmaat en gewenste studietypes (EBRO, 2007 ; Higgins & Green, 2008):

Wat zijn de gewenste en ongewenste effecten van het ‘Verwachtingen en Mogelijkheden Model’ in vergelijking met het ‘Lidcombe Programma’ op het gebied van stotterernst, vermijden van spreken en situaties, natuurlijkheid van het spreken en kwaliteit van leven bij kinderen met ontwikkelingsstotteren tot zes jaar?

- P *populatie* kinderen tot zes jaar met ontwikkelingsstotteren
- I *interventie* Verwachtingen Mogelijkheden Model
- C *vergelijking* Lidcombe Programma
- O *resultaat* effectiviteit op gebied van stotterernst, vermijden van spreken en situaties, natuurlijkheid van spreken kwaliteit van leven
- S *gewenste studietypes* systematische review, RCT

3. Methode

Om antwoord te geven op de onderzoeksvraag wordt een systematische literatuurstudie uitgevoerd. Davies en Crombie (2009) geven aan dat systematische literatuurstudies dienen te streven naar eenzelfde niveau van strengheid bij het beoordelen van en samenvatten van de gevonden literatuur als toegepast bij het beoordelen van individuele wetenschappelijke studies. Systematische literatuurstudies van hoge kwaliteit dienen er naar te streven alle relevante gepubliceerde en ongepubliceerde gegevens te detecteren, alle relevante studies te includeren, de kwaliteit van elk

onderzoek te beoordelen en op een onbevooroordeelde manier een synthese te maken van de bevindingen van de individuele studies.

3.1. Inclusie- en exclusiecriteria

Gehanteerde inclusiecriteria om de literatuurzoekactie te structureren zijn:

- Publicatie: tussen 1990 en 2012 in Nederlands-, Engels-, Duits- of Franstalige peer-reviewed tijdschriften, met aanvulling van relevante literatuur uit voorgaande jaren.
- Studiedesign: systematische review, randomized controlled trial (RCT). Uitgaande van het principe van de hiërarchie van evidence voor therapeutische vraagstellingen zullen alleen studiedesigns met de hoogste methodologische kwaliteit worden geïnccludeerd (EBRO, 2007). Artikelen die betrekking hebben op casuïstiek, gevalsbeschrijvingen, dierexperimenteel onderzoek, (niet-systematische) reviews, tutorials, editorials, abstracts of meetings worden niet meegenomen.
- Doelgroep: kinderen met ontwikkelingsstoelingen tot 6 jaar.
- Interventies: Het Lidcombe Programma vs. directe en indirecte therapiemethodes en/of technieken die gericht zijn op veranderingen in motorische, linguïstische, sociaal-emotionele en/of cognitieve factoren bij het kind dat stottert en/of de omgeving om tot een vermindering van het stotteren te komen en die als zodanig kunnen worden beschouwd als interventies overeenkomstig het Demands and Capacities Model.
- Resultaten: gerelateerd aan stotterernst, vermijden van spreken en situaties, natuurlijkheid van spreken en kwaliteit van leven. Deze uitkomstmaten zijn door de werkgroep *Evidence-based richtlijn ontwikkelingstotteren bij kinderen en volwassenen* vastgesteld. Alle uitkomstmaten zijn door de werkgroep, vanuit het perspectief van de patiënt, als cruciaal beoordeeld. De op te stellen richtlijnaanbevelingen zullen dan ook specifiek en concreet betrekking hebben op deze uitkomstmaten. Een uitzondering geldt voor de natuurlijkheid van spreken. Deze uitkomstmaat is door de werkgroep als gemiddelde relevant beoordeeld.

3.2. Literatuurzoekactie

Vanwege de gewenste precisie en reproduceerbaarheid van zoekacties werden de literatuurzoekacties in juli 2012 en februari 2013 uitgevoerd in samenwerking met een informatiespecialist van het CBO.

Geraadpleegde databanken:

Medline
PsycINFO
Cinahl
Cochrane Library
Embase

Zoektermen:

Alle relevante combinaties met de termen:

Stotteren; stuttering; stammering; fluency; dysfluency; non-fluent; clutter; disorders; developmental; speech therapy; language therapy; disabilities; intervention; treatment; guideline; systematic review; meta-analyses; RCT; trial; child; infant.

Tijdens de search werd gebruik gemaakt van truncatie en wildcards en werd rekening gehouden met mogelijke verschillende spellingswijzen van één en hetzelfde begrip (bijvoorbeeld: dysfluency / disfluency).

3.3. Selectie en beoordeling van de literatuur

Uit de zoekactie verkregen titels en samenvattingen werden door de auteur van dit rapport in overleg met een senior adviseur van het CBO beoordeeld op potentiële relevantie voor de beantwoording van de onderzoeksvraag. Indien uit de samenvatting bleek dat de studie voldeed aan de inclusiecriteria, of als de samenvatting onduidelijk was, werd de volledige tekst van het artikel beoordeeld op de mate waarin het voldeed aan de inclusiecriteria. Bij verschil van mening tussen de twee beoordelaars over een artikel werd door middel van discussie getracht tot overeenstemming te komen.

De uit de zoekactie verkregen titels en samenvattingen werden tevens door een ervaren stottertherapeut-logopedist / logopediewetenschapper werkzaam als hogeschooldocent aan de Hogeschool Utrecht beoordeeld op de mate waarin zij voldeden aan de inclusiecriteria. Deze beoordeling werd onafhankelijk van de beoordeling van de richtlijnadviseur en de auteur van dit onderzoek uitgevoerd. Vervolgens werd bepaald in welke mate er overeenkomst was tussen de selectie van de eerste twee beoordelaars en de derde beoordelaar.

Bij studies waarover geen overeenstemming bestond werd de volledige tekst van het artikel na bestudering door de auteur van dit artikel aan de derde lezer ter beoordeling voorgelegd om tot een definitief besluit te komen.

Data Analyse

Beoordeling van de methodologische kwaliteit van de geselecteerde studies werd uitgevoerd aan de hand van beoordelingsformulieren voor het beoordelen van (para-) medisch-wetenschappelijk onderzoek (EBRO, 2007) (zie bijlage 2). Deze formulieren zijn ontwikkeld door een werkgroep bestaande uit vertegenwoordigers van het Dutch Cochrane Centre, het Kwaliteitsinstituut voor Gezondheidszorg CBO, het Nederlands Huisartsen Genootschap, het institute for Medical Technology Assessment, de Werkgroep Onderzoek Kwaliteit, het College voor Zorgverzekeringen, Zorgonderzoek Nederland (ZonMw) en de Orde van Medisch Specialisten.

De methodologische kwaliteit van de uitvoering van de systematische reviews werd bepaald aan de hand van 8 criteria: vraagstelling; literatuurzoekactie; selectieprocedure van de artikelen; kwaliteitsbeoordeling van de studies; data-extractie; beschrijving van de kenmerken van de oorspronkelijke onderzoeken en statistische pooling (zie bijlage 2). Na beoordeling van de

methodologische kwaliteit werd over gegaan tot het beoordelen van de interne validiteit (ofwel: risk of bias) van de in de reviews opgenomen studies, en tot het bepalen van de kwaliteit van bewijs van het geheel van studies. Voor het beoordelen van de interne validiteit van individuele studies werd gebruik gemaakt van de hiervoor genoemde beoordelingsformulieren

Voor de bepaling van de kwaliteit van bewijs van het geheel van studies wordt de benaderingswijze van de Grading Recommendations Assessment, Development and Evaluation (GRADE) Working Group (GRADE Working Group, 2004; Guyatt et al., 2008) gehanteerd.

De kwaliteit van bewijs is in GRADE als volgt gedefinieerd: de mate waarin erop kan worden vertrouwd dat de schatting van een effect overeenkomt met de werkelijke grootte van een effect. De volgende vijf parameters zijn hierop van invloed: (1) interne validiteit van studies, (2) inconsistentie van de uitkomsten tussen individuele studies, (3) onnauwkeurigheid van de geschatte uitkomst die kan worden berekend door de uitkomsten van de individuele studies te combineren, (4) indirectheid van de populatie, interventie of uitkomstmaten (d.w.z. de in de uitgangsvragen gespecificeerde populatie, interventie of uitkomstmaten komen niet geheel overeen met die in de studies. Er is bijvoorbeeld sprake van indirectheid als de populatie in de uitgangsvraag wordt gespecificeerd als kinderen tussen 2 en 6 jaar en de populatie van de systematische review bestaat uit kinderen tot 12 jaar) en (5) publicatiebias. Initieel wordt aan RCTs hoge kwaliteit van bewijs toegekend. Beoordeling van iedere van de hiervoor genoemde parameters kan ertoe leiden dat de kwaliteit van bewijs wordt afgewaardeerd. Afhankelijk van de mate waarin de uitkomsten vertekend kunnen zijn wordt met de kwaliteit van bewijs met één of twee niveaus afgewaardeerd.

De mate van kwaliteit van bewijs wordt in GRADE als volgt omschreven:

Hoge kwaliteit: Het is onwaarschijnlijk dat verder onderzoek ons vertrouwen in het geschatte effect zal veranderen.

Matige kwaliteit: Het is waarschijnlijk dat verder onderzoek een belangrijke impact zal hebben op ons vertrouwen in het geschatte effect en de schatting kan veranderen.

Lage kwaliteit: Het is zeer waarschijnlijk dat verder onderzoek een belangrijke impact zal hebben op ons vertrouwen in het geschatte effect en de schatting waarschijnlijk zal veranderen.

Zeer lage kwaliteit: We zijn uiterst onzeker over de schatting.

De belangrijkste karakteristieken per studie worden weergegeven in evidence-tabellen (zie tabellen 2, 3 en 4). In GRADE evidence-profielen wordt per uitkomstmaat beschreven in hoeveel studies deze uitkomstmaat werd gerapporteerd, hoeveel patiënten het betrof en, voor welke van de vijf criteria de kwaliteit van bewijs al dan niet werd afgewaardeerd of werd opgewaardeerd. GRADE evidence-profielen bevatten tevens de kwaliteit van bewijs en een samenvatting van de resultaten (bijlage 3). In de wetenschappelijke onderbouwing van de onderzoeksvraag worden de resultaten c.q. de effecten van interventies zo veel mogelijk gekwantificeerd beschreven en wordt de (klinische) relevantie ervan geduïd.

De wetenschappelijke onderbouwing zal worden voorgelegd aan de leden van de richtlijnwerkgroep. Op basis van de expertise van de werkgroepleden en op basis van internationale consensusdocumenten worden nadere overwegingen, zoals de balans van gewenste en ongewenste effecten, kosten van een therapie en waarden en voorkeuren van patiënten en zorgverleners, toegevoegd aan het gevonden bewijs en wordt de uiteindelijke richtlijntekst geschreven. Algehele

kwaliteit van bewijs en deze overwegingen bepalen de sterkte van de aanbeveling. De sterkte van een aanbeveling weerspiegelt de mate van vertrouwen dat zorgverleners hebben in het toepassen van een therapie. In geval van een sterke (positieve) aanbeveling overtreffen de gunstige effecten de ongunstige effecten wanneer de aanbeveling wordt opgevolgd. In geval van een zwakke aanbeveling is er geen evidente voorkeur uit te spreken voor behandeling A versus behandeling B of niet-behandelen.

3.4. De Richtlijntekst

De uiteindelijke richtlijntekst zal aan de hand van deze thesis worden opgebouwd volgens het standaardformat dat het CBO hanteert voor richtlijnteksten (EBRO, 2007):

- Uitgangsvraag;
- Samenvatting van de literatuur;
- Conclusie met vermelding van kwaliteit van bewijs
- Aanbeveling voor de behandeling van stotterende kinderen tot 7 jaar;
- Literatuurlijst (volgens Vancouvermethode)

4. Resultaten

In dit hoofdstuk wordt eerst het resultaat van de literatuursearch besproken. Vervolgens volgt in paragraaf 4.2. een bespreking van de verschillende systematische reviews en meta-analyses. Ongewenste en gewenste effecten op korte of lange termijn van DCM of LP beschreven in studies die niet zijn opgenomen in de reviews komen in paragraaf 4.3. aan bod.

4.1. Informatie over de selectie van de geïncludeerde en geëxcludeerde studies.

Vijf elektronische databases werden op 30 juli 2012 doorzocht op publicaties welke voldeden aan de inclusiecriteria voor de beantwoording van de onderzoeksvraag. Een update van de zoekactie werd uitgevoerd op 12 februari 2013. De elektronische zoekactie leverde een totaal van 652 titels op verdeeld over vijf databases Medline (n=238), PsycINFO (n= 169), Cinahl (n=63), Cochrane Library (n=13), Embase (n= 169). Een overzicht van de zoekactie wordt gegeven in bijlage 1.

De 652 titels en samenvattingen werden door de auteur van dit onderzoek, een senior adviseur van het CBO en de onafhankelijke lezer, op grond van de eerder beschreven inclusiecriteria, beoordeeld op potentiële relevantie voor de beantwoording van de onderzoeksvraag. Uiteindelijk werden 638 titels en samenvattingen *niet* meegenomen in het vervolgtraject aangezien zij niet voldeden aan de inclusiecriteria. Belangrijkste redenen voor verwijdering van de studies waren (1) geen betrekking hebbend op de behandeling van stotterende kinderen tussen 2 en 6 jaar; (2) ander studiedesign dan systematische review of RCT; (3) interventie anders dan LP of DCM; (4) dubbelpublicatie in de verschillende databases.

Van 14 studies werd de volledige tekst opgevraagd en bestudeerd. Evaluatie van de volledige tekst van de studies reduceerde het aantal tot acht studies. Deze acht studies voldeden alle aan de vijf inclusiecriteria: populatie, interventie, studiedesign, resultaat en jaar van publicatie en werden door alle drie de beoordelaars geclassificeerd als meest relevante studies voor de beantwoording van de onderzoeksvraag.

In juni 2013 werd een referentiesearch uitgevoerd om recent gepubliceerde en mogelijk gemiste studies op te sporen. Deze referentiesearch leverde twee nieuwe potentieel relevante studies op. Van beide studies werd de volledige tekst bestudeerd. Na bestudering van de volledige tekst werd één studie toegevoegd aan de negen geïncludeerde studies. Het betrof een op de website van het Journal of Speech Language and Hearing Research gepubliceerde peer-reviewed systematische review met meta-analyse (Nye et al., 2012). Deze systematische review was geaccepteerd voor publicatie in het tijdschrift. De andere studie betrof een meta-analyse gepubliceerd in een handboek (Onslow et al. in Sturmey & Hersen, 2012). Aangezien deze studie niet werd gepubliceerd in een peer-reviewed tijdschrift werd deze meta-analyse niet meegenomen in de analyse van het onderzoek. De meta-analyse wordt in paragraaf 4.2.4. echter wel besproken ter ondersteuning van de resultaten afkomstig uit de analyses van de drie andere systematische reviews.

In totaal voldeden negen studies aan de inclusiecriteria voor nadere analyse van de methodologische kwaliteit, drie systematische reviews, waarvan twee systematische reviews met een meta-analyse en zes studies met een RCT design (tabel 1.) .

Tabel 1.

Studiedesign, onderzoekspopulatie, studieduur en uitkomstmaten van de geïnccludeerde studies.

Auteurs	Studie Design	Behandelgroep	N	Leeftijd	Studie duur	Uitkomstmaat
Bothe, Davidow, Bramlett & Ingham (2006)	Systematic Review	Gedragtherapeutische, cognitieve of gerelateerde interventies bij stotteren	39 studies	Tot 74 jaar		Spraak-gerelateerde en/of sociaal, emotioneel of cognitieve uitkomstmaten
Herder, Howard, Nye & Vanryckegem (2006)	Systematic Review & Meta-analyse	Gedragtherapeutische stottertherapie	12 studies	–		Gestotterde lettergrepen of woorden per minuut. Percentage gestotterde lettergrepen
Nye, Vanryckegem, Schwartz, Herder, Turner & Howard (2012)	Systematic Review & Meta-analyse	Gedragtherapeutische stottertherapie	10 studies	2 -18 jaar		Gestotterde lettergrepen of woorden per minuut. Percentage gestotterde lettergrepen
Harris, Onslow, Packman, Harrison & Menzies (2002)	RCT	LP, Controlegroep	23	2;0 - 4;11	12 weken	Percentage gestotterde lettergrepen
Harrison, Onslow & Menzies (2004)	RCT	LP, LP	38	2;0 – 5;11	4 weken	Percentage gestotterde lettergrepen
Franken, Kielstra & Boelens (2005)	RCT	LP, DCM	23	< 6	≤ 12 weken	Percentage gestotterde lettergrepen
Jones, Onslow, Packman, Williams, Ormond, Schwarz & Gebski (2005)	RCT	LP, Controlegroep	47	3 - 6	9 maanden	Percentage gestotterde lettergrepen
Latterman, Euler & Neumann (2008)	RCT	LP, Controlegroep	45	3;0 – 5;11	16 weken	Percentage gestotterde lettergrepen
Lewis, Packman, Onslow, Simpson, Jones (2008)	RCT	LP, Controlegroep	22	3;0 – 4;6	9 maanden	Percentage gestotterde lettergrepen

4.2. Overzicht van systematische reviews van studies naar effectiviteit van interventies gebaseerd op het Demands and Capacities Model en het Lidcombe Programma bij jonge stotterende kinderen

4.2.1. Nye et al. (2012)

Nye et al. publiceerden in 2012 een systematische review en twee meta-analyses waarin de effectiviteit van gedragsinterventies op het vloeiend spreken van stotterende kinderen, in de leeftijd tussen 2 en 18 jaar, te bevorderen werd geëvalueerd. Van negen studies, met een experimenteel of quasi-experimenteel design, die 327 behandelde proefpersonen representeerden verdeeld over acht verschillende type interventies, werden de data verzameld betreffende de deelnemers, interventies, uitkomstmaten en methodologische kwaliteit. Gerapporteerde uitkomstmaten hadden betrekking op de vloeiendheid van het spreken. Uitvoering van de systematische review kan op grond van het beoordelingsformulier voor het beoordelen van een systematische review van randomised controlled trials (EBRO, 2007) als redelijk goed worden beoordeeld (zie bijlage 2). Kanttekeningen bij de uitvoering en presentatie van de review betreffen het niet afzonderlijk analyseren van de verschillende leeftijdsgroepen, de beschrijving van de karakteristieken van de populatie van de oorspronkelijke studies en het gegeven dat tijdens de literatuurzoekactie niet is gezocht in Embase^a.

De behandelmethodes die in de in de systematische review werden geëvalueerd zijn: Delayed Auditory Feedback (DAF), Gradual Increase in Linguistic Complexity of Utterance (GILCU), Speech Motor Training (SMT), Extended Length of Utterance (ELU), Electromyography Feedback (EMG), Smooth Speech, behandeling gebaseerd op het Demands and Capacities Model (DCM) en Lidcombe Program (LP). Methodologische kwaliteit van de geïnccludeerde studies werd met een gemiddelde score van 17,9 (range 14 -21) op de Downs and Black Checklist (1998) als gunstig beoordeeld^b.

^aUit onderzoek naar het zoeken van trials is gebleken dat met een gecombineerde zoekactie met Medline en Embase 90% van de gepubliceerde artikelen werd geïdentificeerd (EBRO, 2007).

^bEen gemiddelde totaal score van 14 voor RCT en 11,7 voor quasi-experimentele studies geldt als gemiddeld op de Dows and Black Checklist. De score van 17,9 is consistent met de gemiddelde score van 16,4 voor de methodologische kwaliteit van RCT's en quasi-experimentele studies naar het effect van stottertherapie (Nye & Hahs-Vaughn, 2011)

In de eerste meta-analyse zijn vier studies opgenomen waarin een experimentele groep werd vergeleken met een controle groep. De gecombineerde effectgrootte direct na de interventie bedraagt 1.25 (95% Betrouwbaarheidsinterval: 0.63 – 1.87). Deze waarde kan als een groot effect worden beschouwd. Waarden hoger dan 0.7 worden als een groot effect beschouwd (Higgins & Green, 2008). De effectgrootte van de vier studies varieert van 0.67 tot 1.75 (tabel 2). Kwaliteit van bewijs voor deze effectgrootte wordt op grond van beoordeling met GRADE als laag beoordeeld (bijlage 3.)^c.

Tabel 2.

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

Studie	Statistische gegevens per studie					
	Interventie n	Controle n	Hedges' g	Ondergrens BI	Bovengrens BI	P waarde
Craig et al. (1996)	26	20	1.75	1.05	2.45	.000
Harris et al. (2002)	8	11	0.67	-0.23	1.56	.144
Jones et al. (2005)	27	20	0.94	0.34	1.54	.002
Latterman et al. (2008)	23	22	1.51	0.53	1.77	.000
Totaal Effect			1.25	0.63	1.87	.00

^c Beoordeling met GRADE

Risk of bias: met -1 afgewaardeerd omdat nagenoeg alle studies zijn uitgevoerd door de groep die de programma's hebben ontwikkeld, één studie een redelijk hoog drop-out percentage heeft en geen intention to treat analyse wordt gerapporteerd en één studie niet corrigeert voor variaties in het behandelprotocol voor vier proefpersonen uit de controlearm.

Indirectness: met -1 afgewaardeerd jonge kinderen en adolescenten worden niet afzonderlijk geanalyseerd.

Imprecision: geen aanleiding om hiervoor af te waarden omdat bij een drempelwaarde van > 0.5 voor minimal important difference (de drempelwaarde die door de GRADE working group als gangbaar wordt beschouwd) er met een ondergrens van het 0.63 BI geen sprake is van imprecision.

Inconsistency: geen aanleiding om hiervoor af te waarden op basis van visuele inspectie van de betrouwbaarheidsintervallen

Publication bias: met -1 afgewaardeerd omdat onvoldoende beschreven is waarom de studie van Lewis et al. (2008) uiteindelijk niet verder mee wordt genomen in de analyse.

In een tweede meta-analyse worden vier randomised controlled trials waarin proefpersonen werden toegewezen aan twee verschillende behandelvormen met elkaar vergeleken, zonder vergelijking met een onbehandelde controlegroep (tabel 3). Nye et al. (2012) concluderen op grond van de resultaten van de meta-analyse dat er geen verschil is in effectiviteit tussen de verschillende vormen van de geboden behandelingen. De reviewers constateren geen statistisch significant verschil ($p > .05$) tussen de verschillende therapieën op de uitkomstmaten voor gestotterde lettergrepen of woorden. Het totaal gemiddeld effect varieert van -1.079 tot 0.295. Het 95% betrouwbaarheidsinterval voor alle vier de studies bevat 0.00, wat een aanwijzing kan zijn dat geen van de vergeleken interventies significant van elkaar verschillen wat betreft effectgrootte. Kwaliteit van bewijs voor deze conclusie betreffende het effect van één behandeling ten opzichte van een andere behandeling wordt op grond van beoordeling met GRADE als zeer laag gekwalificeerd ^d(bijlage3).

Tabel 3.

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

Studie	Interventies & uitkomstmaten		Statistiek				
			Hedges' g	Ondergrens BI	Bovengrens BI	TX1 n	TX2 n
Ryan & Ryan (1995)	DAF ^A vs GILCU ^B	SWM	0.295	-0.797	1.387	5	6
Riley & Ingham (2000)	SMT ^C vs ELU ^D	%SS	-1.079	-2.209	0.051	6	6
Harrison et al. (2005)	LP ^E	%SS	-0.143	-1.014	0.729	10	10
Franken et al. (2005)	LP ^F vs DCM ^G	%SS	-0.275	-1.066	0.517	11	12

^ADelayed Auditory Feedback; ^BGradual Increase in Length and Complexity of Utterance; ^CSpeech Motor Training; ^DExtended Length of Utterance; ^EVier Lidcombe Program groepen met en zonder verbale contingenties voor gestotterde spraak en met of zonder Stuttering Severity Ratings; ^FLidcombe Programma, ^GDemands and Capacities Model.

^d Beoordeling met GRADE

Risk of bias: zie publicatie bias

Indirectness: met -1 afgewaardeerd omdat jonge kinderen en adolescenten niet afzonderlijk worden geanalyseerd en nagenoeg alle interventies 1 en interventies 2 van elkaar verschillen .

Imprecision: met -1 afgewaardeerd omdat de ondergrens van het 95% BI duidelijk onder >0.5 ligt

Inconsistency: met -1 afgewaardeerd omdat er een aanzienlijke spreiding is in de uitkomstmaten van de verschillende studies.

Publication bias: met -1 afgewaardeerd omdat er wordt gesproken over vijf geïncludeerde studies maar er worden er slechts vier geanalyseerd zonder dat wordt beschreven welke studie niet wordt meegenomen en waarom niet.

Effectiviteit van interventies gebaseerd op het Demands and Capacities Model en het Lidcombe Programma.

In de systematische review van Nye et al. (2012) worden zes randomised controlled trials naar de effectiviteit van het LP geëvalueerd. Eén van deze studies vergelijkt behandeling met LP met behandeling gebaseerd op DCM (Franken et al., 2005). De zes studies naar effectiviteit van LP komen overeen met de studies geïnccludeerd voor de beantwoording van de onderzoeksvraag van dit rapport (tabel 1). Risk of bias per uitkomstmaat van deze studies werd als matig of laag beoordeeld (zie bijlage 4).

Meta-analyse van de drie studies (Harris et al., 2002; Jones et al., 2005; Latterman et al., 2008)^e waarin behandeling met LP wordt aangeboden (n = 58) en vergeleken met een controle groep (n = 53) leidt tot een gecombineerde significante effectgrootte direct na de interventie van $g = 0.97$ (95% BI: 0.58 – 1.30, $p < .0001$). Deze waarde kan als een groot effect worden beschouwd. Van de drie studies vond alleen Harris et al. (2002) geen significant verschil in het percentage gestotterde lettergrepen tussen de experimentele groep en de controlegroep. De effectgrootte van de drie studies varieert van - 0.23 tot 1.77 (tabel 4). Kwaliteit van bewijs voor de effectgrootte wordt op grond van beoordeling met GRADE als gemiddeld beoordeeld ^f.

Tabel 4.

Effectgrootte, 95% Betrouwbaarheidsinterval en p-waarde voor het percentage gestotterde lettergrepen bij kinderen tussen 2 en 6 jaar van studies met een RCT design naar het effect van het Lidcombe Programma versus controlegroep en nameting direct na interventie (bron: Nye et al., 2012).

Studie	Statistische gegevens per studie					
	Interventie n	Controle n	Hedges' <i>g</i>	Ondergrens BI	Bovengrens BI	<i>P</i> waarde
Harris et al. (2002)	8	11	0.67	-0.23	1.56	.144
Jones et al. (2005)	27	20	0.94	0.34	1.54	.002
Latterman et al. (2008)	23	22	1.51	0.53	1.77	.000
Totaal Effect			0.97	0.58	1.30	.000

^e De experimentele groep van één RCT (Lewis, et al., 2008) werd behandeld met een telehealth variant van LP en follow-up vond plaats 9 maanden na randomisatie. Deze studie is niet meegenomen in deze meta-analyse om de indirectness te beperken en daarmee de kwaliteit van de grootte van het effect zo optimaal mogelijk te houden.

^f Beoordeling met GRADE

Risk of bias: met -1 afgewaardeerd omdat nagenoeg alle studies zijn uitgevoerd door de groep die de programma's hebben ontwikkeld, één studie een redelijk hoog drop-out percentage had en geen intention to treat analyse ^g wordt gerapporteerd en één studie niet corrigeert voor variaties in het behandelprotocol voor vier proefpersonen uit de controlearn.

Indirectness: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen.

Imprecision: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen omdat bij een drempelwaarde van > 0.5 voor minimal important difference (de drempelwaarde die door de GRADE working group als gangbaar wordt beschouwd) er met een ondergrens van het 0.58 BI geen sprake is van imprecision.

Inconsistency: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen op basis van visuele inspectie van de betrouwbaarheidsintervallen.

Publication bias: geen aanleiding om hiervoor af te waarderen

^gHet principe van intention to treat houdt in dat na toewijzing behandelgroepen niet meer wijzigen. Alle deelnemers die aan een groep zijn toegewezen dienen te worden betrokken in de analyse om de kans op vertekeningen van de resultaten te verkleinen, ongeacht of de deelnemers de toegewezen behandeling hebben voltooid,.

Twee randomised controlled trials waarin interventie 1 met interventie 2 werd vergeleken onderzochten als één van de experimentele interventies LP in vergelijking met een andere methode of een LP variant (Franken et al., 2005; Harrison et al., 2004). Voor de beantwoording van de onderzoeksvraag naar het verschil in effect tussen LP en DCM is met name de pilot studie van Franken et al. (2005) van belang. In deze studie werd verschil in percentage gestotterde lettergrepen na 12 weken behandeling bij 11 kinderen behandeld met LP vergeleken met het percentage gestotterde lettergrepen van 12 kinderen behandeld met DCM. Het gemiddelde stotterpercentage na behandeling voor de DCM groep daalde met 4.8 procentpunten en een dalingspercentage van 60.7 (4.8/7.9*100) van 7.9% (S.D. = 7.1) naar 3.1% (S.D. = 2.1) na 12 weken behandeling. Voor de LP groep daalde het percentage 3.5 procentpunten van 7.2% (S.D. = 2.0) naar 3.7% (S.D. = 2.1) en bedroeg het dalingspercentage 48,6% (3.5/7.2*100). Om het verschil in effect tussen beide interventies te bepalen werd een mixed-design ANOVA met één between-subjects factor (Interventie: LP versus DCM) en één within-subjects factor (Tijd: Pre versus Post) uitgevoerd. Er werd een significant effect voor de factor Tijd, $F(1,21) = 15.18$, $p < .01$ gevonden, maar het effect voor Interventie en de Interventie x Tijd interactie bleek niet significant ($p > .10$).

Het in de systematische review (Nye et al., 2012) berekende effect van deze vergelijkende studie bedraagt $g = -0.275$ (95% BI: -1.066 – 0.517). Uitgaande van een drempelwaarde van (-) 0.5 (de drempelwaarde voor klinische relevantie die door de GRADE workinggroup als gangbaar wordt beschouwd) wijst de puntschatting van -0.275 niet op een klinisch relevant verschil tussen de vergeleken interventies wat betreft reductie van het percentage gestotterde lettergrepen. De ondergrens (- 1.066) en bovengrens (0.517) van het 95% betrouwbaarheidsinterval overschrijden beide de drempelwaarde van (-) 0.5 voor klinische relevantie. Dit impliceert dat de stelling dat LP duidelijk effectiever is dan DCM en de stelling dat DCM duidelijk effectiever is dan LP, niet worden bevestigd. De breedte van het 95% betrouwbaarheidsinterval hangt mogelijk samen met het beperkt aantal proefpersonen in deze pilotstudie. Om met een power van 0.8 en een significantieniveau van 0.05 een klinisch relevant verschil van 15% in het aantal kinderen dat is hersteld aan te tonen is in een dergelijke studie naar het verschil in effect tussen LP en DCM een onderzoekspopulatie van 152 kinderen nodig (Stolk, 2012).

Op grond van de systematische review en meta-analyse van Nye et al. (2012) kan worden geconcludeerd dat behandeling van stotterende kinderen tot 6 jaar met LP op korte en middellange termijn (3 tot 9 maanden) effectiever is in het verminderen van het percentage gestotterde lettergrepen dan wanneer het stotteren niet wordt behandeld. Het gevonden effect kan als groot worden beschouwd ($g = 0.97$, 95% BI: 0.58 – 1.30, $p < .0001$). Het bewijs voor dit effect is van matige kwaliteit. Het is waarschijnlijk dat verder onderzoek een belangrijke impact zal hebben op ons vertrouwen in het geschatte effect en de schatting kan veranderen. Over de mate van effectiviteit van andere behandelmethoden in het reduceren van het aantal gestotterde lettergrepen in vergelijking met LP is nog veel onzekerheid gezien het beperkte beschikbare bewijs en de beperkte kwaliteit van dit bewijs.

4.2.2. Bothe et al. (2006)

Bothe et al. publiceerden in 2006 een systematische review van studies, gepubliceerd tussen 1970 en 2005, waarin gedragsinterventies, cognitieve interventies, en gerelateerde interventies voor behandeling van ontwikkelingsstotteren bij kinderen en volwassenen werden geëvalueerd.

Uitvoering van de systematische review werd, ondanks een aantal kanttekeningen, op grond van het beoordelingsformulier voor het beoordelen van een systematische review van randomised controlled trials (EBRO, 2007) als redelijk goed beoordeeld (bijlage 5).

Tabel 5.

Design en uitkomstkenmerken van 9 artikelen betrekking hebbend op jonge stotterende kinderen tot 6 jaar geïncorporeerd in de systematische review van Bothe et al. (2006).

				Stotterpercentage < 5%		Verbetering van sociale, emotionele of cognitieve variabelen	
Interventie	Design	N ¹	Leeftijd	Post	Follow-up 6 maand	Post	Follow-up 6 maand
Behandeling gebaseerd op het Demands and Capacities Model							
Franken et al. (2005)	MGRA	12/15	tot 6 jaar	Ja	– ³	–	–
Taaltraining							
Butcher et al. (2003)	SSCS	3	5 - 6	Nee ²	–		
Respons contingente stimulering							
Franken et al. (2005)	MGRA	11/15	tot 6 jaar	ja	–	–	–
Harrison et al. (1999)	SSCS	1	5	ja	ja	–	–
Jones et al. (2005)	MGRA	27/29	3-6	ja	– ⁴	–	–
Latterman et al. (2005)	SSCS	4	4-5	ja	–	–	–
Martin et al. (1972)	SSCS	2	3-4	ja	ja	–	–
Onslow et al. (1990)	SSCS	4	3-5	ja	–	–	–
Reed & Godden (1977)	SSE	2	3-5	ja	ja	–	–
Wilson et al. (2004)	SSCS	5	3-5	ja	ja	–	–

SSE = single-subject experimental design with features discussed in text; MGRA = multiple groups, random assignment; SSCS = other single-subject and case-study designs. ¹ Daar waar sprake is van drop-out in de steekproefpopulatie worden aantallen als breuk weergegeven.

² nee = gemeten maar stotterfrequentie < 5% niet bereik. ³ - = niet gemeten. ⁴ Posttreatment meting werd na 9 maanden verricht, de meeste kinderen zaten toen nog in fase 2, de stabilisatiefase van het LP (Jones et al. 2005). Gemiddelde aantal behandelingen voor kinderen met het LP bedraagt 10 sessies bij mild stotteren bij aanvang van behandeling, 12 sessies bij matig stotteren en 14 sessie bij ernstig stotteren (Koushik et al, 2011). Het is onduidelijk voor welke kinderen de post treatment meting 6 maanden na beëindiging van fase 1 is verricht.

In totaal werden 39 studies geïncorporeerd, negen van deze studies onderzochten het effect van behandeling van ontwikkelingsstotteren bij kinderen tot 6 jaar. Acht van deze studies onderzochten

als experimentele interventie behandeling met respons contingentie stimulering, waarvan vijf studies met LP, één studie onderzocht behandeling door middel van taaltraining (Butcher et al. 2003) en één vergeleek behandeling met LP met DCM (Franken et al., 2005). Twee studies hanteerden een multiple groups, random assignment (Franken et al., 2005; Jones et al., 2005), effectiviteit van deze twee studies werd besproken in de meta-analyses van Nye et al., 2012. Eén studie hanteerde een single-subject experimental design met de kenmerken in de tekst bediscussieerd (Reed & Godden, 1977), de overige studies waren single-subject cases en case studie designs (tabel 5).

Bothe et al. (2006) concluderen, op grond van de in de review geïnccludeerde studies, dat voor het effectief en efficiënt behandelen van jonge kinderen die stotteren het sterkste bewijs wordt gevonden voor interventies met respons-contingente stimulatie. Sociale en emotionele uitkomstmaten ontbreken in de geïnccludeerde studies maar de reviewers geven aan dat deze wel worden beschreven in andere publicaties, evenals follow-up na meer dan 6 maanden. Gezien het beperkt aantal geïnccludeerde studies met een vergelijkende opzet, de geringe omvang van onderzoekspopulaties per studie en de heterogeniteit van de verschillende studies is de kwaliteit voor het bewijs van deze conclusie laag te noemen.

4.2.3. Herder et al. (2006)

In 2006 publiceerden Herder et al. verschillende meta-analyses van RCTs waarin een vorm van gedragstherapie bij stotteren werd vergeleken met een controlegroep of met een andere gedragstherapie. De uitvoering van deze systematische review werd als matig beoordeeld, onder meer vanwege het ontbreken van de beoordeling van de methodologische kwaliteit van de verschillende studies (bijlage 6). Sommige studies hebben betrekking op adolescenten en volwassenen, andere op kinderen. In vier studies werden verschillende vormen van gedragstherapie bij jonge kinderen die stotteren vergeleken (Harris et al., 2002; Harrison et al., 2004; Franken et al., 2005; Jones et al., 2005). Deze studies werden door dezelfde onderzoeksgroep in de systematische review en meta-analyse (Nye, et al., 2012) op vergelijkbare wijze geëvalueerd. De review van Nye et al. (2012) werd in paragraaf 4.2.1. van dit rapport besproken.

4.2.4. Onslow et al. (2012)

Onslow et al. (2012) publiceerden in het Handbook of Evidence-based Practice in Clinical Psychology (Sturmey & Hersen, 2012) een meta-analyse naar het behandel-effect van LP. Deze meta-analyse voldeed niet aan de inclusiecriteria voor de beantwoording van de onderzoeksvraag van dit rapport aangezien de meta-analyse niet werd gepubliceerd in een peer-reviewed tijdschrift. In deze meta-analyse werden de data van vier randomised controlled studies (Harris et al., 2002; Jones et al., 2005; Latterman et al., 2008; Lewis et al., 2008) gecombineerd. Consistentie van de behandel-effecten werd geëvalueerd met een test voor heterogeniteit. Bewijs voor heterogeniteit werd voor de uitgevoerde analyses niet aangetoond. Het gemiddeld verschil in percentage gestotterde lettergrepen (%SS) tussen de twee behandelgroepen en de kans om minder dan 1.0%SS^h na behandeling met LP te bereiken werden berekend met behulp van een lineair regressiemodel, waarbij werd gecorrigeerd voor baseline verschillen en behandelgroep.

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

Voor alle trials werd het %SS per proefpersoon geschat op het gemiddelde van de spraaksamples verzameld buiten de kliniek tijdens de laatste follow-up. In totaal waren follow-up data van 134 proefpersonen beschikbaar. Vergeleken met de controlegroep lag het percentage gestotterde lettergrepen van de LP-groep tijdens de follow-up gemiddeld 2,9% lager dan het percentage van de controlegroep (95% BI = 1.9 – 3.8, $p < 0.001$). De kans op een percentage gestotterde lettergrepen kleiner of gelijk aan 1 tijdens follow-up was voor de behandelgroep zeven keer hoger dan voor de niet behandelgroep (OR = 7.5, 95% BI = 2.7 – 20.9, $p < 0.001$).

Resultaten van deze meta-analyses ondersteunen de conclusie gebaseerd op de meta-analyses van Nye et al. (2012) dat behandeling van jonge stotterende kinderen met het LP op korte en middellange termijn (3 tot 9 maanden) effectief is in het reduceren van het percentage gestotterde lettergrepen.

Tabel 6.

Gemiddeld percentage gestotterde lettergrepen voor Lidcombe Programma en controlegroep in vier gerandomiseerde studies naar het effect van het Lidcombe Programma.

	Harris et al. (2002)		Jones et al. (2005)		Latterman et al. (2008)		Lewis et al. (2008)	
	n= 23		n= 47		n= 45		n= 22	
Follow-up	3 maanden		9 maanden		4 maanden		9 maanden	
	Pre	Post	Pre	Post	Pre	Post	Pre	Post
Lidcombe	8.6% (5.2%)	3.6% (2.8%)	6.4% (4.3%)	1.5% (1.4%)	9.5% (4.8%)	2.6% (1.8%)	6.7% (4.3%)	1.5% (1.4%)
Controle	8.3% (2.5%)	6.2% (3.6%)	6.8% (4.9%)	3.9% (3.5%)	8.9% (5.9%)	6.4 % (4.0%)	6.8% (4.9%)	3.9% (3.5%)

Standaarddeviaties worden tussen haken weergegeven. Pre = Prerandomisatie; Post = Postrandomisatie. (bron: Onslow et al., in Sturmey & Hersen; 2012)

4.3. Individuele studies naar gewenste en ongewenste effecten op korte en lange termijn van interventies gebaseerd op het Demands and Capacities Model en het Lidcombe Programma bij jonge stotterende kinderen

De resultaten van de studies in deze paragraaf werden niet geëvalueerd in de systematische reviews van 4.2. Zij beschrijven informatie over gewenste en ongewenste effecten die aanvullend zijn op de resultaten afkomstig uit de RCTs en meta-analyses. In deze studies wordt onderzocht of er veranderingen in de spraak, taal, het gedrag van het kind of de kwaliteit van de ouder-kind relatie optreden na interventie vergeleken met de situatie voor aanvang van de behandeling. Veranderingen op deze aspecten kunnen een aanwijzing zijn voor negatieve bijwerkingen op gebied van psychisch welbevinden van het kind en voor het vermijden van het spreken. In één studie wordt de reductie van het percentage gestotterde lettergrepen gedurende lange termijn onderzocht.

4.3.1. Bonelli et al. (2000)

In een retrospectieve studie naar het mechanisme dat ten grondslag ligt aan het effect van LP transcribeerden en analyseerden Bonelli et al. (2000) achttien conversaties van negen moeder-kind paren. Audio-opnames werden verzameld voor behandeling met LP en één week of één maand nadat de stabilisatiefase (fase 2) was begonnen. Uitkomstmaten van het onderzoek zijn percentage onvloeiend gesproken lettergrepen (%SD), articulatiesnelheid (AR), de tijd tussen de beurtwisseling van de sprekers (ISL), gemiddelde zinslengte (MLU), Zinsontwikkelings Score (DSS) en aantal verschillende woorden (NDW), vragen om te verhelderen (RQCL) en informatie vragen (RQIN).

In de resultaten worden geen consistente trends op de verschillende uitkomstmaten gerapporteerd. Zinsontwikkelings Score, MLU en NDW blijft voor een aantal kinderen (respectievelijk 5/9, 6/9 en 5/9) gedurende de therapieperiode achter bij de ontwikkeling die gezien de leeftijd van het kind in relatie tot de duur van interventie werd verwacht. De ontwikkeling blijft echter binnen de grenzen van de normale variatie voor zinsontwikkeling, MLU en NDW gedurende deze leeftijdsperiode. De auteurs concluderen dat prospectief onderzoek nodig is om de waargenomen veranderingen te bevestigen en verklaren.

4.3.2. Onslow et al. (2002)

In een andere retrospectieve studie naar het onderliggend mechanisme van LP vergeleken Onslow et al. (2002) veranderingen van de articulatiesnelheid, klinkerduur, intervocaal interval en voice onset time voor en na behandeling met LP. Akoestische analyses om verschil in duur en variabiliteit van de verschillende akoestische segmenten te bepalen werden uitgevoerd. Geluidsopnames waren afkomstig van acht jongens in de leeftijd tussen 2;7 en 4;11 jaar. Het gemiddelde verschil en de variatie tussen de voor- en nameting bleken voor géén van de vier akoestische maten significant.

4.3.3. Woods et al. (2002)

Woods et al. (2002) onderzochten de mogelijke schadelijke effecten van LP zoals angst, agressie, vermijding en depressie en effect op de kwaliteit van de ouder-kind relatie bij 8 kinderen (7 jongens – 1 meisje; leeftijd gemiddeld 45,5 maanden; range 35 -63 maanden). De Child Behaviour Checklist (CBCL) (Achenbach, 1988, 1991) en de Attachment Q-Set (AQS) (Waters 1985) werden één week

voor behandeling met LP, gedurende de behandeling en 1 maand na fase 1 door de ouders ingevuld. Resultaten op de CBCL laten een positieve trend zien (tabel 7).

De gemiddelde score voor behandeling op de AQS was 0,53 (SD = 0.15) en de score na behandeling 0,51 (SD = 0.15). Dit verschil is niet significant ($Z = -0.42$, $p = 0.67$). De resultaten van deze studie bieden geen ondersteuning voor de suggestie dat behandeling met LP een negatieve psychische impact op het jonge stotterende kind en de ouder-kind relatie heeft. Kwaliteit van het bewijs van de gerapporteerde effecten zijn zeer laag (zie bijlage 4).

Tabel 7

Gemiddelde en standaarddeviatie *T*-waarden CBCL voorafgaand, tijdens en na behandeling met het Lidcombe Programma (Woods et al. 2002).

CBCL-schaal	Pre-interventie	Tijdens interventie	Post-interventie	Z-score	<i>p</i> -waarde*
Totaal score	44.8 (SD = 5.6)	42.0 (SD = 5.9)	40.8 (SD = 7.5)	- 2.03	0.042
Internaliserend gedrag	43.5 (SD = 5.4)	41.8 (SD = 5.0)	37 (SD = 8.9)	-1.99	0.047
Externaliserend gedrag	45.5 (SD = 6.8)	41.8 (SD = 8.1)	40.3 (SD = 9.6)	-2.21	0.027**

**p*-waarde is bepaald door de scores voor en na de behandeling te vergelijken.

** wanneer de scores van één deelnemer, waarvan het verschil in ruwe score voor en na behandeling met 44 punten daalde (respectievelijk van 45 naar 21 punten) worden verwijderd is *Z* niet significant ($Z = -1.75$, $p=0.08$)

4.3.4. Jones et al. (2008)

Het langetermijneffect van LP op de vermindering van het percentage gestotterde lettergrepen werd onderzocht door Jones et al. (2008). De onderzoekspopulatie bestond uit 20 kinderen die deel hadden genomen aan de randomised controlled trail van Jones et al. (2005). Gemiddelde duur na randomisatie voor de 2005 RCT was 5 jaar. De resultaten duiden op een mogelijk positief lange termijn effect van de behandeling met LP, het stotterpercentage van 80% van de kinderen was tijdens de follow-up lager dan 1.1%SS^h. Reductie van het percentage gestotterde lettergrepen voor de hele groep in vergelijking met randomisatie was significant (gemiddeld verschil 5.5%SS, $p < 0.0001$). Grootte van het effect is echter uiterst onzeker aangezien er geen bruikbare follow-up data van de controlegroep beschikbaar zijn.

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

5. Conclusie

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

In alle drie de systematische reviews die werden geïncludeerd voor de beantwoording van de onderzoeksvraag werd één en dezelfde studie (Franken et al., 2005) besproken waarin het effect van het Verwachtingen en Mogelijkheden Model direct werd vergeleken met het Lidcombe Programma. In deze studie daalt het gemiddelde stotterpercentage van de Verwachtingen en Mogelijkheden Model- groep met 60.7 % van 7.9% (S.D.= 7.1) naar 3.1% (S.D. = 2.1) en het gemiddeld stotterpercentage voor de LP groep met 48.6% van 7.2% (S.D. = 2.0) naar 3.7% (S.D. = 2.1). Het in de systematische review van Nye et al. (2012) berekende effect van deze vergelijkende studie bedraagt $g = -0.275$ (95% BI: -1.066 – 0.517). Uitgaande van een drempelwaarde van (-) 0.5 (de drempelwaarde voor klinische relevantie die door de GRADE workinggroup als gangbaar wordt beschouwd) wijst de puntschatting van -0.275 niet op een klinisch relevant verschil in reductie van het percentage gestotterde lettergrepen na behandeling met het Lidcombe Programma in vergelijking met behandeling gebaseerd op het Demands and Capacities Model. De ondergrens (-1.066) en bovengrens (0.517) van het 95% betrouwbaarheidsinterval overschrijden beide de drempelwaarde van (-) 0.5 voor klinische relevantie. Dit impliceert de mogelijkheid dat LP duidelijk effectiever is dan DCM, maar ook nog de mogelijkheid dat DCM duidelijk effectiever is dan LP.

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

In de systematische review met meta-analyse van Nye et al.(2012) worden drie RCTs besproken waarin behandeling met het Lidcombe Programma wordt vergeleken met een controlegroep. Beoordeling van de systematische review en meta-analyse leidt tot de conclusie dat behandeling van stotterende kinderen tot 6 jaar met het Lidcombe Programma op korte en middellange termijn (3 tot 9 maanden) effectiever is in het verminderen van het percentage gestotterde lettergrepen dan wanneer het stotteren niet wordt behandeld. Het gevonden effect kan als groot worden beschouwd ($g = 0.97$, 95% BI: 0.58 – 1.30, $p < .0001$). Het bewijs voor dit effect is van matige kwaliteit. Dit impliceert dat er enige onzekerheid is over de grootte van het effect. Het effect zou ook 0.58 kunnen zijn. Dat behandeling met LP effectiever is dan niet behandelen wordt ondersteund door de meta-analyse van Onslow et al. (2012). In deze meta-analyse was het gemiddeld percentage gestotterde lettergrepen in de Lidcombe Programma- groep na behandeling 2,9% lager dan het percentage van de controlegroep (95% BI = 1.9 – 3.8, $p < 0.001$). De kans op een stotterpercentage dat kleiner is dan of gelijk aan 1, na 3 tot 9 maanden follow-up, was voor de behandelgroep zeven keer hoger dan voor de niet behandelgroep (OR = 7.5, 95% BI = 2.7 – 20.9, $p < 0.001$).

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

Natuurlijkheid van het spreken bij kinderen na behandeling met het Lidcombe Programma werd indirect onderzocht door Bonelli et al. (2000) en Onslow et al. (2002). Bonelli et al. (2002) constateerde geen verandering op gebied van spreektempo van ouder en kind, beurtgedrag of pragmatiek. Op een drietal taalaspecten ontwikkelde een aantal kinderen uit het onderzoek zich gedurende de therapieperiode minder snel dan verwacht, maar de ontwikkeling bleef binnen de grenzen van het normale. Onslow et al. (2002) vonden geen bewijs van consistente of systematische verandering in articulatiesnelheid, klinkerduur, intervocaal interval of voice onset time bij 8 stotterende jongens (leeftijd 2;7 – 4;11 jaar) na behandeling met het Lidcombe Programma in vergelijking met de meting voor aanvang van de behandeling.

5.1. Samenvatting

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

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

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

Conclusie

Kwaliteit van bewijs: Matig	Behandeling van stotterende kinderen tot 6 jaar* met het Lidcombe Programma is op korte en middellange termijn (3 tot 9 maanden) effectiever in het verminderen van het percentage gestotterde lettergrepen dan wanneer het stotteren niet wordt behandeld. Nye et al. (2012)
Kwaliteit van bewijs: Laag	Het aantal studies naar het effect van behandeling gebaseerd op het Verwachtingen en Mogelijkheden Model is beperkt en de kwaliteit voor bewijs van het effect van het Verwachtingen en Mogelijkheden Model is laag. Er werd geen klinisch relevant verschil in reductie van het stotterpercentage na behandeling aangetoond tussen de Verwachtingen en Mogelijkheden Model- groep en de Lidcombe Programma-groep. Er bestaat echter grote onzekerheid over deze conclusie gezien de wijdte van het 95% betrouwbaarheidsinterval in de studie van Franken et al (2005).
Kwaliteit van bewijs: Zeer laag	Aanwijzingen voor mogelijke schadelijke effecten van het Lidcombe Programma zoals angst, agressie, vermijding en depressie en effect op de kwaliteit van de moeder en kind relatie, werden niet gevonden. Woods et al. (2002)

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

6. Discussie

Om een antwoord te geven op de onderzoeksvraag wat de gewenste en ongewenste effecten van het 'Verwachtingen en Mogelijkheden Model/Demands and Capacities Model (DCM)' in vergelijking met het 'Lidcombe Programma (LP)' op gebied van stotterernst, vermijden van spreken en situaties, natuurlijkheid van het spreken en kwaliteit van leven bij kinderen met ontwikkelingsstotteren tot zes jaar zijn, werd een systematische literatuurzoekactie uitgevoerd. Hierbij werd gezocht in de databanken van Medline, PsycINFO, Cinahl, Cochrane Library en Embase naar publicaties van systematische reviews en randomized controlled trials (RCTs). Studies die voldeden aan de vooraf opgestelde inclusiecriteria werden beoordeeld op methodologische kwaliteit en risk of bias. De beoordeling van de kwaliteit van bewijs van het geheel van studies werd uitgevoerd volgens de benaderingswijze van de GRADE Working Group. Uiteindelijk werden drie systematische reviews beoordeeld waarin zes RCTs werden besproken, die betrekking hebben op behandeling van stotterende kinderen met LP of DCM. Van deze zes RCTs vergeleek slechts één experimentele studie het effect van LP met DCM (Franken et al., 2005). In deze studie werd geen klinisch relevant verschil aangetoond tussen effectiviteit van LP versus DCM op gebied van reductie van het stotterpercentage voor en na behandeling. Kwaliteit van het gevonden bewijs werd als laag beoordeeld. De onnauwkeurigheid van het resultaat (de breedte van het 95% betrouwbaarheidsinterval spreidt zich uit tussen -1.066 en 0.517 ($g = -0.275$)) maakt het zeer aannemelijk dat verder onderzoek een belangrijke impact zal hebben op het vertrouwen in het geschatte effect en dat de schatting waarschijnlijk zal veranderen.

Het beperkt aantal gevonden studies naar het relatief effect van LP in vergelijking met DCM, rechtvaardigt de vraag of beoordeling van studies met een andere studieopzet dan (systematische reviews van) RCTs invloed heeft op de geschatte effectgrootte en op de mate van onzekerheid van de geschatte effectgrootte. Aanvullende literatuur zou kunnen worden gevonden door in de geraadpleegde databases te zoeken naar niet vergelijkend onderzoek, observationele studies en case reports. Tevens zouden databases kunnen worden geraadpleegd die niet in peer-reviewed tijdschriften gepubliceerde studies opnemen en er zou kunnen worden gezocht naar literatuur die niet is opgenomen in databases, zoals niet-systematische reviews, tutorials, editorials en abstracts van meetings publicaties. Het is echter onwaarschijnlijk dat een aanvullende literatuurzoekactie in de databases naar publicaties van niet vergelijkend onderzoek invloed zal hebben op de gevonden effectgrootte en op de mate van onzekerheid over de gevonden effectgrootte. Aangezien de algemene methodologische kwaliteit van deze studies bij voorbaat lager is dan de methodologische kwaliteit van (systematische reviews van) RCTs. Hierdoor is het onwaarschijnlijk dat resultaten van dergelijke studies de mate van zekerheid waarmee een uitspraak over een effectgrootte kan worden gedaan zullen vergroten. Om dezelfde reden is het onwaarschijnlijk dat literatuurzoekacties in andere databases of zoekacties naar literatuur niet opgenomen in databases publicaties op zullen leveren, die invloed hebben op de geschatte effectgrootte en de kwaliteit van het gevonden bewijs.

6.1 Aanbevelingen

De kwaliteit van het bewijs van de geschatte relatieve effectgrootte van LP in vergelijking met DCM werd als laag beoordeeld. Dit impliceert dat het vertrouwen dat de nu gevonden relatieve

effectgrootte niet zal veranderen gering is. Debet aan deze onzekerheid is de onnauwkeurigheid van het resultaat. Deze onnauwkeurigheid hangt samen met de kleine onderzoekspopulatie van de studie van Franken et al. (2005). Studies met een kleine onderzoekspopulatie hebben een verhoogd risico op wijde 95% betrouwbaarheidsintervallen en daarmee onnauwkeurige resultaten. Om een meer definitieve uitspraak te kunnen doen over de geschatte relatieve effectgrootte van behandeling met DCM in vergelijking met LP is een RCT met een voldoende onderzoekspopulatie noodzakelijk. Om met een power van 0.8 en een significantieniveau van 0.05 een klinisch relevant verschil van 15% in het aantal kinderen, dat is hersteld, aan te tonen is, in een dergelijke studie naar het verschil in effect tussen LP en DCM, een onderzoekspopulatie van 152 kinderen nodig (Stolk, 2012). Een RCT van deze omvang naar het effect van LP versus DCM is reeds uitgevoerd. De resultaten van deze studie zijn echter nog niet gepubliceerd.

Door de werkgroep *Evidence-based richtlijn ontwikkelingsstotteren bij kinderen en volwassenen* zijn als relevante uitkomstmaten voor de richtlijnaanbeveling vastgesteld: stotterenst; vermijden van spreken en situaties; natuurlijkheid van spreken en kwaliteit van leven. De relatieve effectgrootte, zoals in hoofdstuk 5 in de conclusie beschreven, van de behandeling van jonge stotterende kinderen met LP in vergelijking met DCM is gebaseerd op één uitkomstmaat: het percentage gestotterde lettergrepen. Nagenoeg in alle beoordeelde RCTs was dit de enige gehanteerde uitgangsmaat. Om een completer beeld te vormen van de effectiviteit van LP en DCM verdient het aanbeveling dat onderzoekers naar effectiviteit van stottertherapie in de toekomst meerdere uitkomstmaten hanteren. Behalve het percentage gestotterde lettergrepen verdient het aanbeveling het vermijden van spreken en situaties, de natuurlijkheid van spreken en de kwaliteit van leven, te hanteren als uitkomstmaten van de studie.

Tevens wordt onderzoek naar het langetermijneffect van behandeling met LP versus DCM aanbevolen. Recidiveren van stotterklachten is een veelvuldig gerapporteerd fenomeen (Bloodstein & Bernstein Ratner, 2008). Vanuit het perspectief van de persoon die stottert, zijn effecten van behandeling op lange termijn dan ook van wezenlijker belang dan effecten direct na behandeling. Het langetermijneffect van LP op vermindering van het percentage gestotterde lettergrepen duidt op een mogelijk positief lange termijn effect vijf jaar na randomisatie (Jones et al., 2008). De effectgrootte is echter uiterst onzeker omdat er geen bruikbare follow-up data van de controlegroep beschikbaar zijn. Over het langetermijneffect van behandeling gebaseerd op DCM werden geen studies gevonden. Vergelijking van de langetermijneffecten van een behandelgroep met een onbehandelde controlegroep is de meest ideale onderzoeksopzet om met de grootst mogelijke mate van zekerheid de effectgrootte te kunnen bepalen. Echter het langdurig onthouden van behandeling aan personen die stotteren, is vanuit ethisch oogpunt niet wenselijk. Een RCT naar het langetermijneffect van behandeling met DCM in vergelijking met LP heeft niet als nadeel dat aan een aantal personen die stotteren behandeling wordt ontzegd. Een dergelijke studieopzet biedt mogelijkheden om het te kort aan informatie over het langetermijneffect van LP en DCM te verminderen.

Referenties

- American Speech-Language-Hearing Association. (1994). *Guidelines for Practice in Stuttering Treatment*. ASHA, 37 (Suppl. 14) 26-35, Rockville, MD.
- Beer, J.J.A., de & Pertijs, M.A.J. (in press). *Wat zijn de gewenste en ongewenste effecten van stottertherapieën bij adolescenten en volwassenen met ontwikkelingsstotteren*. Utrecht. CBO.
- Bernstein Ratner, N. (2005). Evidence-based practice in stuttering: Some questions to consider, *Journal of Fluency Disorders*, 30, 163-188.
- Bloodstein, O. & Bernstein Ratner, N. (2008). *A handbook on stuttering* (6th ed.). New York: Delmar.
- Boey, R. (2009). *Spreken over stotteren*. Antwerpen. Standaard Uitgeverij.
- Bonelli, P., Dixon, M., Bernstein Ratner, N. & Onslow, M. (2000). Child and parent speech and language following the Lidcombe programme of early stuttering intervention. *Clinical Linguistics & phonetics*, 14, 427-446.
- Bothe, A.K., Davidow, J.H., Bramlett, R.E. & Ingham, R.J. (2006). Stuttering treatment research 1970-2005: I. Systematic review incorporating trial quality assessment of behavioural, cognitive and related approaches. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 15, 321-341
- College of Audiologists and Speech and Language Pathologists of Ontario. (2005). *Preferred Practice Guideline for Stuttering*. Ontario.
- Davies, H.T.O. & Crombie, I.K. (2009). What is a systematic review? Retrieved February 15, 2013, from www.evidence-based-medicine.co.uk/ebmfiles/WhatisSystreview.pdf
- EBRO (2007). *Evidence-based Richtlijnontwikkeling. Handleiding voor werkgroepleden* (update: november 2007). Utrecht. CBO.
- Couture, E.G. (2001). *Stuttering. Its nature, diagnosis and treatment*. Boston: Allyn & Bacon.
- Franken, M.C.J., Kielstra- Van der Schalk, C.J. & Boelens, H. (2005). Experimental treatment of early stuttering: A preliminary study. *Journal of Fluency Disorders*, 30, 189-199.
- Franken, M.C. & Van Borsel, J. (2006). De behandeling van jonge stotterende kinderen. *Handboek Stem- Spraak- Taalpathologie*. Houten. Bohn Stafleu, van Loghum.
- Franken, M.C. J. & Putker, D. (2012). Restart-DCM Werkwijze. Behandelprotocol ontwikkeld in het kader van het ZonMW project Cost-effectiveness of the Demands and Capacities Model based treatment compared to the Lidcombe programme of early stuttering intervention: Randomised trial. Geraadpleegd op 2 januari 2013 <http://www.nedverstottertherapie.nl>
- GRADE Working Group (2004). Grading quality of evidence and strength of recommendations. *British Medical Journal*, 328, geraadpleegd op 22 januari 2008 <http://resources.bmj.com/bmj/subscribers>
- Gregory, H.H. (2003). *Stuttering Therapy. Rationale and Procedures*. Boston. Pearson.

Guitar, B. (2013). *Stuttering. An Integrated Approach to Its Nature and Treatment*. Baltimore. Lippincott Williams & Wilkins.

Guyatt, G.H., Oxman, A.D., Gunn, E.V., Kunz, R., Falck-Ytter, Y. & Schünemann, H.J. (2008). GRADE: what is “quality of evidence” and why is it important to clinicians? *British Medical Journal*, 336, 995-998.

Harris, V., Onslow, M., Packman, A., Harrison, E., & Menzies, R. (2002). An experimental investigation of the impact of the Lidcombe Program on early stuttering. *Journal of Fluency Disorders*, 27, 203-214.

Harrison, E., Onslow, M., & Menzies, R. (2004). Dismantling the Lidcombe Program of early stuttering intervention: Verbal contingencies for stuttering and clinical measurement. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 39, 257-267.

Herder, C., Howard, C., Nye, C., & Vanryckeghem, M. (2006). Effectiveness of Behavioral Stuttering Treatment: A Systematic Review and Meta-Analysis. *Contemporary Issues in Communication Science and Disorders*, 33, 61-73.

Higgins, J.P.T. & Green, S. (2008). *Cochrane Handbook for Systematic Reviews of Interventions* Version 5.1.0. The Cochrane Collaboration, 2011. Available from www.cochrane-handbook.org/ [15 maart2013]

Jones, M., Onslow, M., Packman, A., Williams, S., Ormond, T., Schwarz, I., & Gebiski, V. (2005). Randomised controlled trial of the Lidcombe programme of early stuttering intervention. *BMJ*, doi:10.1136/bmj.38520.451840.E0 (published 11 August 2005)

Jones, M., Onslow, M., Packman, A., O’Brain, S., Hearne A., Williams, S., Ormond, T. & Schwarz, I. (2008). Extended follow-up of a randomized controlled trial of the Lidcombe Program of Early Stuttering Intervention. . *International Journal of Language and Communication Disorders*, 43, 649-661.

Kelman, E. & Nicholas, A. (2008). *Practical Intervention for Early Childhood Stammering: Palin PCI Approach*. Milton Keynes: Speechmark Publishing Ltd.

Koushik, S., Hewat, S., Shenker, R.C., Jones, M. & Onslow, M. (2011). North-American Lidcombe Program file audit; Replication and meta-analysis. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 13(4), 301-307.

Langevin, M., Packman, A., & Onslow, M. (2010). Parent perceptions of the impact of stuttering on their preschoolers and themselves. *Journal of Communication Disorders*, 43, 407-423.

Latterman, C., Euler, H.A., & Neumann, K. (2008). A randomized control trial to investigate the impact of the Lidcombe Program on early stuttering in German-speaking pre-schoolers. *Journal of Fluency Disorders*, 33, 52-65.

Lewis, C., Packman, A., Onslow, M., Simpson, J.M. & Jones, M. (2008). A Phase II Trial of Telehealth Delivery of the Lidcombe Program of Early Stuttering Intervention. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 17, 139-149.

- Lincoln, M., Onslow, M. & Reed, V. (1997). Social validity of the treatment outcomes of an early intervention program for stuttering. *American Journal of Speech- Language Pathology*, 6, 77-84.
- Mansson, H. (2000). Childhood stuttering: Incidence and development. *Journal of Fluency Disorders*, 25, 47-57.
- Millard, S.K., Edwards, S., & Cook, F.M. (2008). Parent-child interaction therapy; Adding to the evidence. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 11, 61-76.
- Nye, C. & Hahs-Vaughn, D. (2011). Assessing methodological quality of randomized and quasi-experimental trials: A summary of stuttering treatment research. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 13, 49-60.
- Nye, C., Vanryckegem, M., Schwartz, J.B., Herder, C., Turner III, H.M. & Howard, C. (2012). Behavioral Stuttering Interventions for Children and Adolescents: A systematic Review and Meta-Analysis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*. Published online December 28, 2012. doi: 10.1044/1092-4388(2012/12-0036). Geraadpleegd op 10 juni 2013, <http://jslhr.asha.org>.
- Onslow, M., Costa, L., & Rue, S. (1990). Direct early intervention with stuttering: Some preliminary data. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 55, 405 – 416.
- Onslow, M., Stocker, S., Packman, A. & McLeod, S. (2002). Speech timing in children after the Lidcombe Program of early stuttering intervention. *Clinical Linguistics & phonetics*, 16, 21-33.
- Onslow, M. & Millard, S. (2012). Palin Parent Child Interaction and the Lidcombe Program: Clarifying some issues. *Journal of Fluency Disorders*, 37, 1-8.
- Oxman, A.D. & Guyatt, G.H. (1988). Guidelines for reading literature reviews. *Canadian Medical Association Journal*, 138, 697-703.
- Oxman, A.D. & Guyatt, G.H. (1991). Validation of an index of the quality of review articles. *Journal of Clinical Epidemiology*, 44, 1271-1278.
- Oxman, A.D. & Guyatt, G.H., Singer, J., Goldsmith, C.H., Hutchinson, B.G., Milner, R. A., & Streiner, D.L. (1991). Agreement among reviewers of review articles. *Journal of Clinical Epidemiology*, 44, 91-98.
- Pertjjs, M.A.J. (2007). Het Lidcombe Programma in Nederland. *Logopedie en Foniatrie*, 2, 42-50
- Pertjjs, M.A.J. (2012). *Knelpunteninventarisatie Richtlijn Ontwikkelingsstotteren bij Kinderen en Volwassenen*. Utrecht. CBO.
- Regieraad Kwaliteit van Zorg. (2011). *Richtlijn voor Richtlijnen* (herziene versie, 2011). Den Haag.
- Reilly, S., Onslow, M., Packman, A., Wake, M., Bavin, E., Prior, M., et al. (2009). Predicting stuttering onset by age 3 years: A prospective, community cohort study. *Pediatrics*, 123, 270 – 277.
- Royal College of Speech & Language Therapists. (2005). *Clinical Guidelines*. Oxon, Speechmark Publishing Ltd.

Starkweather, C.W. & Franken, M.C. (1991). Preventie van stotteren en vroegtijdige interventie bij zeer jonge stotteraars. In: Preventie en vroege interventie bij spraak-, taal-, en gehoorstoornissen. H.F.M. Peters en C.W. Starkweather (red.), (p.93-135). Amsterdam/Lisse: Swets en Zeitlinger.

Starkweather, C.W., Ridener Gottwald, S. & Halfond, M.M. (1990). *Stuttering Prevention. A clinical method*. Englewood Cliffs: Prentice Hall.

Starkweather, C.W., Ridener Gottwald, S. & Halfond, M.M. (1991). *Als een kind begint te stotteren. Interventie bij jonge stotterende kinderen*. Assen: Dekker & v.d. Vegt.

Starkweather, C.W., & Givens-Ackerman, J. (1997). *Stuttering*. Austin, TX: Pro-ed.

Stolk, E.A. (2012). Cost-effectiveness of the Demands and Capacities Model based treatment compared to the Lidcombe programme of early stuttering intervention: Randomised trial. Geraadpleegd op 25 januari 2013: <http://www.zonmw.nl/nl/projecten/project-detail/cost-effectiveness-of-the-demands-and-capacities-model-based-treatment-compared-to-the-lidcombe-prog/producten/>

Sturmeijer, P. & Hersen, M. (2012). *Handbook of evidence-based practice in clinical psychology I. Child and adolescent disorders*, (p. 185 -207). Hoboken, New Jersey: Wiley.

Van Borsel, J. (2000). Verworven stotteren. *Handboek Stem- Spraak- Taalpathologie*. Houten. Bohn Stafleu, van Loghum.

WHO (2013) *The ICD-10 Classification of Mental and Behavioral Disorders, Diagnostic criteria for research*. Geneva: World Health Organisation. Geraadpleegd op 10 april 2013, <http://www.who.int/classifications/icd/en/GRNBOOK.pdf>

Woods, S., Shearsby, J., Onslow, M. & Burnham, D. (2002). Psychological impact of the Lidcombe Program of early stuttering intervention. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 37, 31-40.

Yairi, E., & Ambrose, N.G. (2005). *Early childhood stuttering; For clinicians, by clinicians*. Austin, Texas: Pro-Ed.

Yaruss, J. & Quesal, R. (2006). Overall Assessment of the Speaker's Experience of Stuttering (OASES); Documenting multiple outcomes in stuttering treatment. *Journal of Fluency Disorders*, 31, 90-115.

Zorgcontext (2013). Zorgcontext Vakbibliotheek Verpleging en Verzorging. Houten. Bohn Stafleu, van Loghum. Geraadpleegd op 11 april 2013, <http://www2.bsl.nl/zorgcontext>.

Bijlage 1. Overzicht van Zoekacties voor Stotteren

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

Zoekactie van 20120730

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

Search Strategy:

- 1 "stotteren richtlijnen".ti. (0)
- 2 exp "rehabilitation of speech and language disorders"/ (7997)
- 3 guideline/ or practice guideline/ (22758)
- 4 (speech adj therap*).ti. (549)
- 5 Speech Therapy/ (4799)
- 6 Language Therapy/ (1105)
- 7 4 or 5 or 6 (5602)
- 8 guidelin*.ti. (42983)
- 9 3 or 8 (56465)
- 10 7 and 9 (22)
- 11 10 (22)
- 12 limit 11 to yr="1995 -Current" (14)
- 13 2 and 9 (22)
- 14 13 (22)
- 15 limit 14 to yr="1995 -Current" (13)
- 16 exp Stuttering/ (2891)
- 17 stutter*.tw. (3251)
- 18 stammer*.tw. (265)
- 19 fluency disorders.mp. (41)
- 20 dysfluen*.tw. (213)
- 21 non-fluen*.tw. (285)
- 22 (language adj3 ther*).tw. (1201)

- 23 (speech adj therap*).tw. (1926)
- 24 2 or 5 or 6 or 16 or 17 or 18 or 19 or 20 or 21 or 22 or 23 (13404)
- 25 9 and 24 (39)
- 26 25 not 10 (17)
- 27 26 (17)
- 28 limit 27 to yr="1995 -Current" (14)
- 29 from 15 keep 1-13 (13)
- 30 from 28 keep 1-14 (14)
- 31 (dutch or english or french or german).la. (18765055)
- 32 24 and 31 (12119)
- 33 32 (12119)
- 34 limit 33 to yr="1995 -Current" (6136)
- 35 "med091027 CBO filter sysrev & meta Medline START".ti. (0)
- 36 meta analysis.pt. (35060)
- 37 (meta-anal\$ or metaanal\$).af. (62641)
- 38 (quantitativ\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (3692)
- 39 (systematic\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (43338)
- 40 (methodologic\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (5233)
- 41 medline.tw. and review.pt. (33113)
- 42 (pooled adj3 analy*).tw. (6029)
- 43 or/36-42 (117710)
- 44 "med091027 CBO filter sysrev & meta Medline EINDE".ti. (0)
- 45 34 and 43 (142)
- 46 (language adj thera*).tw. (975)
- 47 (speech adj therap*).tw. (1926)
- 48 4 or 5 or 6 or 16 or 17 or 18 or 19 or 20 or 21 or 46 or 47 (10784)
- 49 31 and 48 (9846)
- 50 49 (9846)
- 51 limit 50 to yr="1995 -Current" (4941)
- 52 43 and 51 (115)

.....
 Zoekactie van 20130212

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

Search Strategy:

-
- 1 "ontwikkelings stotteren opbouw zoekactie".ti. (0)
 - 2 (speech adj therap*).ti. (561)
 - 3 Speech Therapy/ (4871)
 - 4 Language Therapy/ (1134)
 - 5 exp Stuttering/ (2918)
 - 6 stutter*.tw. (3282)
 - 7 stammer*.tw. (267)
 - 8 fluency disorders.mp. (41)
 - 9 dysfluen*.tw. (214)
 - 10 non-fluen*.tw. (290)
 - 11 (language adj3 thera*).tw. (1257)
 - 12 (speech adj therap*).tw. (1985)
 - 13 or/2-12 (11147)

14 "P voor stotteren".ti. (0)
15 guidelin*.ti. (44111)
16 guideline/ or practice guideline/ (23179)
17 (dutch or english or french or german).la. (18999648)
18 13 and (15 or 16) and 17 (38)
19 limit 18 to yr="1995 -Current" (28)
20 "med091027 CBO filter sysrev & meta Medline START".ti. (0)
21 meta analysis.pt. (36967)
22 (meta-anal\$ or metaanal\$).af. (66218)
23 (quantitativ\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (3867)
24 (systematic\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (47091)
25 (methodologic\$ adj10 (review\$ or overview\$)).tw. (5405)
26 medline.tw. and review.pt. (34357)
27 (pooled adj3 analy*).tw. (6385)
28 or/21-27 (124498)
29 "med091027 CBO filter sysrev & meta Medline EINDE".ti. (0)
30 13 and 17 and 28 (151)
31 limit 30 to yr="1995 -Current" (143)
32 developmental.ti. (40859)
33 developmental.tw. (166702)
34 Developmental Disabilities/ (13319)
35 speech disorders/ or stuttering/ (12206)
36 35 and (33 or 34) (660)
37 ((stutter* or fluency* or stammer* or clutter*) adj3 developmental).tw. (159)
38 (dysfluen* adj3 developmental).tw. (6)
39 (child* adj2 stutter*).tw. (435)
40 (d?sfluen* adj3 developmental).tw. (13)
41 (early adj stutter*).tw. (47)
42 or/36-41 (1091)
43 13 and (33 or 34) (604)
44 42 or 43 (1408)
45 (child??? or childhood or infant* or p?ediatr* or perinat* or neonat* or newborn* or infan* or boy? or girl? or kid? or schoolage* or juvenil* or adolescen* or toddler?).tw. (1558274)
46 exp Child/ (1456397)
47 exp infant/ (886722)
48 "Adolescent"/ (1501278)
49 45 or 46 or 47 or 48 (3084391)
50 "filter child cbo medline".tw. (0)
51 44 and 49 (1287)
52 51 and 17 (1192)
53 limit 52 to yr="1980 -Current" (1050)
54 "P voor ontwikkelingsstotteren bij kinderen".ti. (0)
55 language therapy/ or speech therapy/ (5562)
56 (th or rh).fs. (1471365)
57 (intervent* or therap*).ti. (593790)
58 treat*.ti. (960849)
59 or/55-58 (2561520)
60 53 and 59 (442)
61 "med101005 Cochrane Highly Sensitive Search Strategy for Randomized Trials in Medline START".ti. (0)

62 randomized controlled trial.pt. (339011)
63 controlled clinical trial.pt. (85097)
64 (randomized or randomised).ab. (306310)
65 placebo.ab. (140242)
66 drug therapy.fs. (1573096)
67 randomly.ab. (187872)
68 trial.ab. (264547)
69 groups.ab. (1216413)
70 or/62-69 (3045624)
71 70 not (exp animals/ not humans/) (2604016)
72 "med101005 Cochrane Highly Sensitive Search Strategy for Randomized Trials in Medline EINDE".ti. (0)
73 60 and 71 (99)
74 from 19 keep 1-28 (28)
75 from 31 keep 1-140 (140)
76 from 60 keep 1-3 (3)
77 from 73 keep 1-96 (96)
78 "bothe\$.fc_auts. and "2006".fc_pubyr. and "321".fc_pg. (1)
79 exp *Stuttering/ (2646)
80 stutter*.ti. (2694)
81 79 or 78 or 7 or 8 or 9 or 10 (3204)
82 2 or 3 or 4 or exp Stuttering/th or 11 or 12 (7942)
83 81 and 82 and 17 (914)
84 83 and (15 or 16) (3)
85 (81 or 82) and 17 (9301)
86 85 (9301)
87 limit 86 to yr="1995 -Current" (4839)
88 87 and (15 or 16) (26)
89 87 and 28 (134)
90 5 or 6 or 7 or 8 or 9 or 10 (4286)
91 89 and 90 (21) med 20130212 stotteren systrev na 1995
92 87 and 71 and 90 (387)
93 "med091027 CBO filter rct Medline START".ti. (0)
94 randomized-controlled-trial.pt. (339011)
95 controlled-clinical-trial.pt. (85097)
96 randomized controlled trial/ (339011)
97 randomi?ed controlled trial?.tw. (64762)
98 random-allocation.af. (77042)
99 double-blind-method.af. (117486)
100 single-blind-method.af. (16981)
101 (random adj8 (selection? or sample?)).tw. (30915)
102 random\$.tw. (625670)
103 or/94-102 (846073)
104 "med091027 CBO filter rct Medline EINDE".ti. (0)
105 controlled clinical trial/ or randomized controlled trial/ (419357)
106 from 91 keep 1-21 (21)
107 Clinical Trials as Topic/ (162088)
108 103 or 105 or 107 (958898)
109 87 and 90 and 108 (101) med 20130212 stotteren rct na 1995

Bijlage 2 Methodologische kwaliteit Systematische Review

Naam beoordelaar: Mark Pertijs

Datum: 28-6-2013

Titel: Behavioral Stuttering Interventions for Children and Adolescents:
A systematic Review and Meta-Analysis

Auteurs: Chad Nye, Martine Vanryckegem, Jamie B. Schwartz, Carl Herder,
Herbert M. Turner III, Courtney Howard

Bron: Journal of Speech, Language, and Hearing Research

Vraagstelling:

Doel van deze systematische review is het evalueren van de effectiviteit van gedragstherapeutische interventies ontwikkeld voor de behandeling van stotteren bij kinderen.

Beoordeling van de validiteit:

Korte beschrijving van de patiëntencategorie: Stotterende kinderen , leeftijd van 2 tot 18 jaar.

Korte beschrijving van de onderzochte interventie(s): Gedragstherapeutische interventies:
Delayed Auditory Feedback, Gradual Increase in Linguistic Complexity of Utterance, Electromyography Feedback, Intensive Smooth Speech, Smooth Speech Home Training, Speech Motor Training, Extended Length of Utterance, Lidcombe Program, Demands and Capacities Model.

Korte beschrijving van de controlebehandeling(en): Geen behandeling door behandeling uit te stellen of vergelijking van interventie 1 met interventie 2.

METHODEN

1. Is de vraagstelling adequaat geformuleerd?

Ja

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

2. Is de zoekactie adequaat uitgevoerd?

Ja, met als kanttekening dat er niet is gezocht in EMBASE, de Europese tegenhanger van Medline. (Medline en Embase samen zou 90% van de gepubliceerde artikelen op leveren (EBRO,2007))

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

3. Is de selectieprocedure van artikelen adequaat uitgevoerd?

Ja. Selectie van artikelen werd onafhankelijk uitgevoerd door twee getrainde studenten spraak- en taalpathologie. In- en exclusiecriteria sluiten aan bij de onderzoeksvraag en zijn expliciet beschreven. Selectie vanaf de initiële database tot de inclusie in de review is duidelijk beschreven.

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

4. Is de kwaliteitsbeoordeling adequaat uitgevoerd?

Ja, onafhankelijk van elkaar uitgevoerd door twee reviewers met Downs and Black (1998) checklist (Nye & Hahs-Vaughn, 2011). De totaal score van de Methodological Quality Rating per studie worden vermeld. Deelscores per studie van de Downs and Black checklist worden niet vermeld.

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

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

Ja. Codering van geïncludeerde studies werd onafhankelijk uitgevoerd door twee getrainde studenten spraak- en taalpathologie en geverifieerd door de eerste auteur van het artikel.

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

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

Ja. Beschreven zijn voor het onderzoek relevante onderwerpen: studiedesign, populatiekenmerken, interventie en controlebehandelingen en het type uitkomstmaten. Kanttekeningen: Bij populatiekarakteristieken ontbreekt de vermelding van aanwezigheid of afwezigheid van persisterend stotteren in de familie.

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

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

Ja.

Nee. Er is sprake van klinische heterogeniteit wat betreft de leeftijd van de onderzoekspopulatie, interventies en in beperkte mate wat betreft de uitkomstmaat (gestotterde woorden per minuut, gesproken woorden per minuut. percentage gestotterde syllaben en spreektempo in syllaben per minuut). Om statistische heterogeniteit te verdisconteren is het random effects model toegepast. De overweging om met een I²-test van Higgins et al. heterogeniteit te onderzoeken wordt in het artikel niet genoemd. Jonge kinderen en adolescenten worden niet afzonderlijk geanalyseerd.

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden.

8. Is statistische pooling op een correcte manier uitgevoerd?

Ja. Auteurs geven aan dat door het beperkt aantal beschikbare studies de resultaten beperkt moeten worden tot een enkele meta-analyse en dat sensitiviteit, publicatie bias en moderator

analyse om behandel­effect nader te verklaren niet mogelijk is. Post-hoc doen de auteurs wel uitspraken over sub­groepen. Deze post-hoc sub­groepen­analyses hebben minder zeggings­kracht dan wanneer er vooraf een analyse­plan had kunnen worden op­gesteld.

[] Nee

[] Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

Conclusie: Redelijk goed uitgevoerde systematische review gezien de huidige state-of-the-art met betrekking tot de evaluatie van de effectiviteit van gedragstherapeutische interventies bij stotteren van kinderen.

Indeling van methodologische kwaliteit van systematische reviews:

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

Score van 6: redelijk goed

Score van ≤ 5 : matig

Bijlage 3 Kwaliteit van Bewijs voor Effectgrootte

GRADE Evidence Profiel

Author(s): Mark Pertijs

Date: 2013-07-03

Question: Wat is het effect van gedragstherapeutische interventies op de vloeiendheid van het spreken bij stotterende kinderen en stotterende adolescenten?

Bibliography: Nye, C., Vanryckegem, M., Schwartz, J.B., Herder, C., Turner III, H.M. & Howard, C. (2012). Behavioral Stuttering Interventions for Children and Adolescents: A systematic Review and Meta-Analysis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*. Published online December 28, 2012. doi: 10.1044/1092-4388(2012/12-0036)

Quality assessment							No of patients		Effect		Quality	Importance
No of studies	Design	Risk of bias	Inconsistency	Indirectness	Imprecision	Other considerations	Treatment	Control	Relative (95% CI)	Absolute		
Stuttered syllables												
4	randomised trials	serious ¹	no serious inconsistency ²	serious ³	no serious imprecision ⁴	None	84	73	1.25 (0.63 to 1.87)	not pooled	⊕⊕○○ LOW	CRITICAL
Stuttered syllables / words stuttered												
4	randomised trials treatment 1 versus treatment 2	serious ⁵	serious ⁶	serious ³	serious ⁷	None	Total 66	-	-	not pooled	⊕○○○ VERY LOW	CRITICAL

¹ Nagenoeg alle studies zijn uitgevoerd door de groep die de programma's hebben ontwikkeld. Eén studie heeft een redelijk hoog drop-out percentage maar er wordt geen intention to treat analyse gerapporteerd en één studie corrigeert niet voor variaties in het behandelprotocol voor vier proefpersonen uit de controlearm. Er wordt onvoldoende beschreven waarom de studie van Lewis et al. (2008) niet verder mee wordt genomen in de analyse.

² De conclusie is gebaseerd op visuele inspectie van de betrouwbaarheidsintervallen. Aangezien deze voor alle studies overlap vertonen wordt geen serieuze statistische heterogeniteit geconstateerd, Idealiter hadden de onderzoekers een I Square uitgevoerd.

³ met -1 afgewaardeerd omdat jonge kinderen en adolescenten niet afzonderlijk worden geanalyseerd.

⁴ Bij een drempelwaarde van > 0.5 voor minimal important difference (de drempelwaarde die door de GRADE working group als gangbaar wordt beschouwd) is er met een ondergrens van het 0.63 BI geen sprake van imprecision.

⁵ Er wordt gesproken over vijf geïncludeerde studies maar er worden er slechts vier geanalyseerd zonder dat wordt beschreven welke studie niet wordt meegenomen en waarom niet (publicatie bias).

⁶ Er is een aanzienlijke spreiding in de uitkomsten van de verschillende studies.

⁷ Ondergrens van het 95% BI ligt duidelijk onder >0.5. er is duidelijk sprake van imprecision.

Author(s): Mark Pertijs

Date: 2013-07-03

Question: Wat zijn de gewenste en ongewenste effecten van het 'Verwachtingen en Mogelijkheden Model' in vergelijking met het 'Lidcombe Programma' op gebied van stotterernst, vermijden van spreken en situaties, natuurlijkheid van het spreken en kwaliteit van leven bij kinderen met ontwikkelingsstotteren tot zeven jaar?

Bibliography: Nye, C., Vanryckegem, M., Schwartz, J.B., Herder, C., Turner III, H.M. & Howard, C. (2012). Behavioral Stuttering Interventions for Children and Adolescents: A systematic Review and Meta-Analysis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*. Published online December 28, 2012. doi: 10.1044/1092-4388(2012)12-0036

Quality assessment							No of patients		Effect		Quality	Importance
No of studies	Design	Risk of bias	Inconsistency	Indirectness	Imprecision	Other considerations	LP	Control	Relative (95% CI)	Absolute		
Stuttered syllables												
3	randomised trials	Serious ¹	no serious inconsistency ²	no serious indirectness ³	no serious imprecision ⁴	None	58	53	0.97 (0.58 to 1.30)	not pooled	⊕⊕⊕○ MODERATE	CRITICAL

¹ Alle studies zijn uitgevoerd door de groep die het programma heeft ontwikkeld. Eén studie heeft een redelijk hoog drop-out percentage, er worden geen intention to treat analyse gerapporteerd en één studie corrigeert niet voor variaties in het behandelprotocol voor vier proefpersonen uit de controlearm.

² De conclusie is gebaseerd op visuele inspectie van de betrouwbaarheidsintervallen. Aangezien deze voor alle studies overlap vertonen wordt geen serieuze heterogeniteit geconstateerd. Idealiter hadden de onderzoekers een I Square uitgevoerd.

³ Geen reden om af te waarden op indirectness: de populatie komt w.b. leeftijd overeen met de populatie in de uitgangsvraag, kinderen zijn gediagnosticeerd als stotterende kinderen op basis van %SS en andere geaccepteerde diagnostische criteria en de experimentele interventie komt overeen met de interventie van de onderzoeksvraag.

⁴ Bij een drempelwaarde van > 0.5 voor minimal important difference (de drempelwaarde die door de GRADE working group als gangbaar wordt beschouwd) is er met een ondergrens van het 0.58 BI geen sprake van imprecision. Minimale grootte voor de onderzoekspopulatie bij een Power van 0.8, een significantieniveau van 0.05 en een minimum important difference van 1% SS posttreatment zijn 110 proefpersonen nodig verdeeld over de experimentele groep en de controle groep. De grootte van de steekproefpopulatie is geen reden om af te waarden voor imprecision.

Bijlage 4. Risk of Bias Randomised Controlled Trials

Studie (1 ^{ste} auteur, jaar van publicatie, aantal proefpersonen)	Randomisation adequate?	Allocation concealed?	Groups similar at baseline?	Patient blinded?	Care provider blinded?	Outcome assessor blinded?	Co interventions avoided or similar?	Compliance acceptable?	Drop-out rate described and acceptable?	Timing outcome assessment similar?	Intention-to-treat analysis?	No selective reporting of outcome?	Risk of bias per studie per uitkomstmaat
Harris 2002 (N=23)	+	+	+	n.v.t.	n.v.t.	+	?	+	-(21% ³)	+	-	+	% SS: matig
Harrison 2004 (N= 38) ¹	+	?	-	n.v.t.	n.v.t.	+	?	+	+	+	-	+	% SS: matig
Franken 2005 (N= 23) ¹	+	?	+/-	n.v.t.	n.v.t.	+	?	+	-(23% ³)	+	-	+	% SS: matig
Jones 2005 (N= 47)	+	+	+	n.v.t.	n.v.t.	+	-	+	+	+	-	+	% SS: laag
Latterman 2008 (N= 45)	+	+/-	+	n.v.t.	n.v.t.	+	?	+	-	+	n.v.t	+	% SS: matig
Lewis 2008 (N= 22) ²	+	?	+	n.v.t.	n.v.t.	+	?	+	+	+	+/-	+	% SS: laag
Woods 2002 (N= 8)	-	-	n.v.t.	n.v.t.	n.v.t.	?	?	+	+	+	n.v.t	?	probleemgedrag: hoog kwaliteit moeder-kind relatie: hoog

¹ RCT waarbij interventie 1 met interventie 2 wordt vergeleken, niet meegenomen in bepaling effect LP in vergelijking met geen behandeling vanwege ontbreken controle groep.

² Interventie waarbij varianties op LP wordt geëvalueerd. Niet meegenomen in bepaling in effect om afwaarden op indirectness te beperken en gezien de reeds beschikbare populatie in de 3 andere studies.

³ Drop-out rate of 20% is acceptabel.

Bijlage 5*. Methodologische kwaliteit Systematische Review

Naam beoordelaar: Hans de Beer Datum: 11-02-2013
Titel: Stuttering Treatment Research 1970-2005 (I +II)
Auteurs: Bothe et al
Bron: Am J of Speech-language Pathology 15 (2006)

Vraagstelling:

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

Beoordeling van de validiteit:

METHODEN

1. Is de vraagstelling adequaat geformuleerd?

Ja

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

2. Is de zoekactie adequaat uitgevoerd?

Ja (Wel met de kanttekening dat niet is gezocht in Cinahl, en dat sommige trefwoorden ontbreken zoals *stammering* of *dysfluency*)

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

3. Is de selectieprocedure van artikelen adequaat uitgevoerd?

Ja

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

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

4. Is de kwaliteitsbeoordeling adequaat uitgevoerd?

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

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

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

Ja

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

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

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

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

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

Ja

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

8. Is statistische pooling op een correcte manier uitgevoerd?

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

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

Conclusie: Redelijk goede systematische review

Indeling van methodologische kwaliteit van systematische reviews:

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

Score van 6: redelijk goed

Score van ≤ 5 : matig

*Beoordeling uitgevoerd door Hans de Beer voor de beantwoording van uitgangsvraag 3 van de evidence-based richtlijn ontwikkelingsstotteren bij kinderen en volwassenen: Wat zijn de gewenste en ongewenste effecten van stottertherapieën bij adolescenten en volwassenen met ontwikkelingsstotteren? (De Beer & Pertijs, 2013).

Bijlage 6*. Methodologische kwaliteit Systematische Review

Naam beoordelaar: Hans de Beer Datum: 19-03-2013
Titel: Effectiveness of Behavioral Stuttering Treatment: A Systematic Review and Meta-Analysis
Auteurs: Herder et al.
Bron: CONTEMPORARY ISSUES IN COMMUNICATION SCIENCE AND DISORDERS • Volume 33 • 61–73 • Spring 2006

Vraagstelling:

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

Beoordeling van de validiteit:

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

Korte beschrijving van de onderzochte interventie(s):

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

Korte beschrijving van de controlebehandeling(en):

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

METHODEN

1. Is de vraagstelling adequaat geformuleerd?

Ja

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

2. Is de zoekactie adequaat uitgevoerd?

Ja

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

3. Is de selectieprocedure van artikelen adequaat uitgevoerd?

Ja

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

4. Is de kwaliteitsbeoordeling adequaat uitgevoerd?

Ja

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

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

Ja

Nee

Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

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

- Ja
- Nee
- Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

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

- Ja
- Nee
- Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

8. Is statistische pooling op een correcte manier uitgevoerd?

- Ja / niet van toepassing
- Nee
- Te weinig informatie in het artikel om dit te beantwoorden

Conclusie: Matig uitgevoerde systematische review

Indeling van methodologische kwaliteit van systematische reviews:

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

Score van 6: redelijk goed

Score van ≤ 5 : matig

*Beoordeling uitgevoerd door Hans de Beer voor de beantwoording van uitgangsvraag 3 van de evidence-based richtlijn ontwikkelingsstotteren bij kinderen en volwassenen: Wat zijn de gewenste en ongewenste effecten van stottertherapieën bij adolescenten en volwassenen met ontwikkelingsstotteren? (De Beer & Pertijs, 2013).