



Evropská unie
Evropský sociální fond
Operační program Zaměstnanost

Závěrečná zpráva z evaluace projektu *Ověření účinnosti Rané intervence O.T.A.[®] u dětí s pozitivním nálezem v testu M-CHAT*

Martin Nekola a Markéta Nekolová

Září 2022





Obsah

Úvod	3
Hlavní zjištění dopadové evaluace	3
1.1. Dopadová evaluace Rané intervence O.T.A.®	3
1.2. Kontrafaktuální evaluační designy	4
2.2.1. Design 1: před a po srovnání závažnosti symptomatiky PAS u intervenční skupiny.....	4
2.2.2. Design 2: srovnání intervenční a kontrolní skupiny	5
1.3. Výsledky kontrafaktuální dopadové evaluace.....	7
2.2.3. Design 1: před a po srovnání závažnosti symptomatiky PAS u intervenční skupiny.....	8
2.2.4. Design 2: srovnání intervenční a kontrolní skupiny	11
1.4. Výsledky dalších šetření	11
2.2.5. Výsledky vyšetření dětským psychiatrem	11
2.2.6. Výsledky z hlediska prostupnosti školským systémem	12
2.2.7. Subjektivní well-being rodičů	12
1.5. Závěry a doporučení dopadové evaluace (<i>ve spolupráci s Dr. Straussovou</i>)	15
2.2.8. Je úzdrava u PAS možná?	16
2.2.9. Závěry k dílčím studiím	17
2.2.10. Diskuse k limitům studie.....	17
Podmínky a předpoklady celorepublikového rozšíření Rané intervence O.T.A.®	18
Závěr.....	21
Literatura	21



Úvod

Projekt Raná intervence u PAS (dále jen „projekt“) usiluje o ověření účinnosti Rané intervence O.T.A.[®] u malých dětí s pozitivním nálezem poruch autistického spektra.¹ Projekt realizuje Centrum Terapie Autismu, s.r.o. a získal souhlasné stanovisko Etické komise VFN 14. 11. 2019. Potvrzení účinnosti metody by mělo usnadnit dlouhodobé snahy centra o její rozšíření na území celé ČR.

Tato závěrečná evaluační zpráva představuje v kapitole 2 výsledky dopadové evaluace, tj. měření průměrného efektu Rané intervence O.T.A.[®] a identifikace podmínek či kombinace podmínek, za jakých je intervence úspěšná. Vzhledem k tomu, že kontrafaktuální design dopadové evaluace umožňuje zahrnout pouze dvě nejdůležitější podmínky fungování (vliv terapeuta a komorbidita), budou tyto ještě rozpracovány metodou QCA. Stejně tak se chceme hlouběji věnovat vlivu typů komorbidit na účinnost metody. Výsledky těchto analýz budou dostupné do konce roku 2022. Pokud z nich vyplynou další doporučení, bude tato zpráva doplněna, popř. budou součástí připravovaných odborných publikací.

Vedle evaluace dopadů byla v průběhu realizace projektu sledována otázka možného rozšíření Rané intervence O.T.A.[®] do všech regionů ČR, případně jejího systémového ukotvení. Kapitola 3 proto jednak reflektuje dosavadní snahy a úspěchy centra v této oblasti a jednak nabízí aktuální pohled na podmínky a předpoklady úspěšného rozvoje metody po ukončení projektu.

Hlavní zjištění dopadové evaluace

1.1. Dopadová evaluace Rané intervence O.T.A.[®]

Jedním z hlavních cílů celého projektu je zjistit, zda raná intervence O.T.A. „funguje“. V rámci evaluační otázky 3² odhadujeme průměrný efekt Rané intervence O.T.A.[®] na cílovou skupinu 50 rodin s malými dětmi s vysokým rizikem rozvoje PAS. Oblasti dopadu, které nás zajímají, jsou zejména symptomatika PAS, sekundárně potom na další aspekty well-beingu rodiny a průchod vzdělávacím systémem. Původní záměr počítal s provedením experimentální studie (RCT), kdy budou děti (resp. rodiny) rozděleny náhodně do experimentální a kontrolní skupiny. Vzhledem k obavám realizačního týmu ohledně naplnění intervenční skupiny na počátku projektu (především kvůli nízkému zapojení dětských lékařů) byl však nakonec zvolen kvazi-experimentální výzkumný design. Ten umožnil zapojit do intervence všechny způsobilé zájemce o intervenci a vyhnout se tak riziku spojeném s relativně malým počtem dětí, který vykazují skóre M-CHAT-R ≥ 7 , a jejichž rodiče projeví ochotu zapojit se do projektu.

Zároveň však přinesl komplikace a omezení spojená především s rizikem výběrového zkreslení. Abychom tato rizika minimalizovali, navrhl evaluátor dva hlavní evaluační designy. Ty se navzájem doplňují jak co do použitých analytických postupů, tak empirických dat (triangulace). Dohromady tak poskytují v rámci daných omezení úplný a validní závěr o účinnosti hodnocené intervence.

¹ Prostřednictvím testu M-CHAT-R[™] prováděného v 18 měsících dítěte praktickým dětským lékařem.

² EO3: Jaký je průměrný efekt Rané intervence O.T.A. v rodinách s dítětem s vysokým rizikem rozvoje PAS?



1.2. Kontrafaktuální evaluační designy

Návrh evaluačního designu vycházel od počátku z předpokladu, že realizační tým bude u jednotlivých zájemců o intervenci disponovat pouze informací o míře rizika rozvinutí PAS měřeném nástrojem M-CHAT-R v 18 měsících věku dítěte. Jedná se o verifikovaný screeningový test, který se provádí u dětského lékaře. M-CHAT-R však neměří symptomatiku PAS, jejíž závažnost chce metoda O.T.A. snižovat. Tu lze zjistit pouze důkladným diagnostickým vyšetřením. Zlatým standardem v této oblasti je metoda semi-strukturovaného a standardizovaného posouzení autistických symptomů ADOS-2, který byl použit i v rámci tohoto projektu. To znamená, že stav před intervencí by nebyl změřen *stejným nástrojem* jako stav po intervenci (počáteční stav M-CHAT-R, stav po intervenci ADOS-2). Jako nejvhodnějším evaluačním designem se tak jevila randomizovaná kontrolovaná studie (RCT), která by umožnila srovnávat pouze stav po intervenci (Shadish et al., 2002).

Evaluátor proto vygeneroval klíč pro náhodné rozdělení zájemců o intervenci a určená osoba realizačního týmu začala provádět nábor účastníků. Po 2 měsících od startu projektu však vyvstaly obavy realizačního týmu, že se tímto způsobem nepodaří naplnit předpokládaný počet účastníků studie. Bylo tedy nutné upravit evaluační design z experimentálního na kvazi-experimentální, což vyústilo v návrh dvou designů popsaných dále.

2.2.1. Design 1: před a po srovnání závažnosti symptomatiky PAS u intervenční skupiny

První design je založen na jednoduchém srovnání závažnosti symptomatiky PAS před a po intervenci, tj. pouze pro intervenční skupinu (děti s terapií O.T.A., dále IS). Design vychází z předpokladu stability symptomatiky PAS v čase bez intervence, popř. při běžné „komunitní intervenci“. Závažnost symptomatiky je stanovena pomocí diagnostického nástroje ADOS-2.

Nábor *intervenční skupiny* (n=50) probíhal tak, že intervenci získaly všechny způsobilé rodiny, které se přihlásily. Způsobilost byla určena na základě věku (18 až 36 měsíců), hodnoty M-CHAT-R ≥ 7 a po vstupním vyšetření také závažnosti symptomatiky PAS. Děti vstupující do intervence musely vykazovat alespoň středně závažné symptomy. Nedošlo tedy k žádné selekci ze strany CTA a byly přijaty všechny děti s poruchou autistického spektra bez ohledu na případné komorbidity.³

Následně byl rodině přidělen terapeut. Na základě požadavku hodnotící komise byl také testován vztah mezi dosaženými výsledky metody O.T.A. a terapeutem, který metodu aplikuje. Za tímto účelem byla IS dále rozdělena na dvě podskupiny: v jedné prováděla terapii autorka metody dr. Straussová (IS_s; n=31), ve druhé ostatní proškolené terapeutky (IS_o; n=19, z toho 10 dětí u terapeutky mimo CTA). Rozdělení do podskupin bylo provedeno nenáhodně na základě kapacit terapeuta a místa bydliště rodiny.

Před započítáním intervence provedl nezávislý certifikovaný odborník (zkušený dětský psychiatr nebo klinická psycholožka) diagnostický test ADOS-2.⁴ Další nezávislý dětský psychiatr posoudil zdravotní stav dítěte spolu s výsledky vyšetření ADOS-2 a stanovil příslušnou diagnózu. Stejná diagnostika poté proběhla po skončení intervence, tj. přibližně po dvou letech od vstupu do projektu.

³ Při pozdější kontrole se ukázalo, že dvě děti v IS nesplňují podmínky PAS podle ADOS-2. Jedno mělo při nástupu potvrzení diagnózy, nicméně výsledek ADOS-2 byl dodaný pozdě (hodnota 9 bodů znamená malý počet příznaků, nicméně jedná se o hraniční výsledek). U druhého dítěte byl vstupní ADOS-2 předán CTA až po několika měsících terapie z důvodu nemoci (táhlý zápal plic, komplikace s termíny a Covid19). U tohoto dítěte byla z etických důvodů zahájena intervence ještě před dodáním testu.

⁴ Byl proveden i jeden kontrolní re-test. Výsledek obou testů se nelišil.



Hrubé skóry ADOS-2 (*raw scores*) nemohou sloužit k porovnání závažnosti PAS mezi jednotlivými moduly a tím pádem ani v čase u stejných jedinců. To se týká i hrubých skóru pro obě sledované oblasti, tj. sociální aspekty (Social Affect, dále také SA) a repetitivní chování a specifické projevy (Repetitive Behaviors, dále také RSP). Proto pro srovnání v čase a pro srovnání modulů ADOS-2 používáme *vážený skór závažnosti* (CSS) (Gotham et al., 2009), resp. jeho novější verzi, která kalibrovala hrubé skóry pro obě zmíněné oblasti (dále CSS SA, resp. CSS RSP) a umožňuje tak lepší posouzení závažnosti a srovnání v čase (Hus et al., 2014). Pro kalibraci Modulu 0 (pro batolata), který není zahrnut ve studii Hus et. al., používáme algoritmus Esler a kol. (Esler et al., 2015). Díky tomu lze vzájemně porovnat Moduly 0 až 4. S CSS pracujeme jako s intervalovou proměnnou, popř. proměnnou ordinální (3 kategorie míry závažnosti). Kalibrační tabulky pro převod hrubých skóru na CSS, resp. klasifikaci rozsahu příznaků jsou uvedeny v Příloze 1.

Limity designu 1a způsoby jejich řešení

Před-po srovnání intervenční skupiny je v metodologické literatuře považován za nejslabší kontrafaktuální design, protože nedokáže vyloučit působení jiných faktorů. Validitu výsledků může snížit celá řada ohrožení (Shadish et al., 2002). Mezi ně patří především historie, zrání, testování, regresní artefakty nebo úmrtnost (srov. Nekola, 2007). Jak však upozorňuje Eckert (2000), vždy je nutné posoudit věrohodnost daného ohrožení pro konkrétní intervenci v jejím situačním kontextu.

V případě prvního designu se jako nejzávažnější ohrožení jeví historie a zrání. V prvním případě se jedná o nekontrolované vlivy působící v průběhu intervence, které mohou ovlivnit případné změny závažnosti PAS. U zrání pak mohou být pozorované změny způsobeny biologickými, psychologickými nebo sociálními procesy, které nesouvisí se samotnou intervencí. V případě této evaluace se tak jako klíčová jeví otázka spolehlivosti měření závažnosti PAS pomocí ADOS-2. Jak ukazuje meta-analýza 40 prospektivních studií, vážený skór závažnosti ADOS-2 vykazuje poměrně vysokou stabilitu v čase (Bieleninik et al., 2017). Jinými slovy, CSS je nezávislý na věku a u dětí dokážeme na základě hodnoty v čase T1 relativně přesně odhadnout budoucí hodnotu v čase T2.⁵ Zároveň děti z intervenční skupiny nepodstupovaly žádnou jinou ověřenou intervenci, která by mohla měnit závažnost jejich onemocnění. *Lze tedy očekávat, že bez intervence by se neměla průměrná závažnost symptomatiky PAS výrazně měnit. Případné statisticky významné rozdíly v čase lze připsat intervenci.* Tento závěr byl také diskutován s vědeckou radou projektu a její členové jej nerozporovali.

2.2.2. Design 2: srovnání intervenční a kontrolní skupiny

Druhý design odhaduje dopad intervence na základě srovnání dvou neekvivalentních skupin: intervenční popsané výše a kontrolní, již tvořily děti bez intervence O.T.A. využívající sociální službu Rané péče a mimo to i další širokou škálu intervencí od seriózních metod po alternativní a nevědecké (dále KS).

Kontrolní skupina (n=50) byla rekrutována z rodin, které se na CTA obrátily s žádostí o intervenci, ale z důvodu stáří dítěte nebyly způsobilé pro zařazení do IS. Pro každé takové dítě byl získán výsledek screeningového vyšetření M-CHAT-R z 18 měsíce věku. Stejně jako u prvního designu je závislou proměnnou závažnost autistických symptomů měřená pomocí CSS ADOS-2. Měření proběhlo u dětí z IS

⁵ Do meta-studie byly zahrnuty nejen kohortové studie, ale také studie srovnávající intervenční a kontrolní skupinu. KS obvykle podstupovala „standardní péči“ oproti specifické intervenci nebo intervenci zaměřené na edukaci rodičů.



po intervenci, u kontrolní skupiny v rozmezí 36 až 65 měsíců věku.⁶ Testování ADOS-2 bylo zaslepené, tj. diagnostik nevěděl, jestli testuje dítě z IS nebo KS.

Podobnost IS a KS lze tedy porovnat na základě tří sledovaných proměnných: věku dítěte, dosaženého skóre M-CHAT-R a pohlaví. Z tohoto pohledu se obě skupiny jeví jako srovnatelné.

Tabulka 1: základní charakteristiky souboru (stav k 30. 3. 2022)

Charakteristika	Míra	IS	KS
Počet (n = 100)		50	50
Pohlaví	počet (dívky / chlapci)	13 / 37	11 / 39
	% zastoupení dívek	26 %	22 %
Věk pre-test (měs.)	průměr	27,6	---
	min / max	18 / 38	---
Věk post-test (měs.)	průměr	54,5	48,6
	min / max	36 / 65	37 / 65
M-CHAT-R (v 18 měsících)	průměr	10,9	11,2
	min / max	7 / 18	7 / 17

Zdroj: vlastní výpočty

Limity designu 2 a způsoby jejich řešení

Zvolený design je limitován tím, že jednotky nejsou do skupin přiřazeny náhodně. Vnitřní validitu odhadu tak mimo ohrožení diskutovaná výše ohrožuje především výběrové zkreslení. Přestože základní pozorovatelné charakteristiky (pohlaví a M-CHAT-R) nevykazují významné rozdíly mezi IS a KS (viz tab. 1), samo-výběr mohl způsobit odchylky v nepozorovaných vlastnostech obou skupin. Je tedy nutné pracovat s předpokladem, že skupiny nejsou *plně ekvivalentní*. Případné rozdíly v symptomatice PAS (popř. psychiatrické diagnóze) mezi IS a KS tak nelze jednoduše považovat za čistý dopad intervence (jak by tomu bylo v případě randomizované kontrolované studie).

Druhé omezení vyplývá z faktu, že u KS nemáme k dispozici vyšetření ADOS-2 v 18 měsících. Jinými slovy, proměnná pre-testu (M-CHAT-R) není identická s proměnnou post-testu (ADOS-2) a nelze tedy využít design rozdílu v rozdílech (*difference in differences*). Jako nepříliš vhodný se ukázal také alternativní design využívající tzv. proxy pre-test proměnnou (Shadish et al., 2002, p. 118), tj. v našem případě M-CHAT-R. Korelace mezi M-CHAT-R a druhým měřením ADOS-2 (post-test) byla marginální ($r = 0,011$ pro IS a $0,062$ pro KS) a nezvýšila by významně statistickou sílu daného designu (Cook & Campbell, 1979). Rozdíl mezi IS a KS v post-testu byl proto vyhodnocen jednovýběrovým t-testem vážených skóre. Pro další srovnání jsme pracovali s kategoriemi závažnosti symptomů. Ordinální logistická regrese potom umožnila kontrolovat pro ostatní proměnné pozorované u kontrolní skupiny (tj. M-CHAT-R a pohlaví).

U tohoto designu se opíráme o *poznatky z existujících odborných studií*, které se zabývají přesností odhadů screeningu M-CHAT-R a možností predikovat na jeho základě závažnost autistických symptomů měřenou ADOS-2, popř. samotnou diagnózu PAS. Provedli jsme přehled již existujících populačních studií, které zkoumaly vývoj PAS bez (odborné) intervence na obecné populaci dětí v různých zemích světa.⁷ Zaměřili jsme se na studie kombinující stejné měřicí nástroje, jaké využíváme v projektu, tj. screening M-CHAT-R v raném věku a test ADOS-2, popř. psychiatrická diagnóza v pozdějším věku, kdy

⁶ V původním plánu bylo věkové rozmezí stanoveno na 40–50 měsíců. Nicméně z důvodu epidemie COVID-19 došlo ke zpoždění.

⁷ Vycházíme z předpokladu, že rozvoj PAS není podmíněn zemí původu a lze tedy pracovat s modely z jiných zemí.



je již možné PAS přesněji určit. Konkrétně nás zajímalo, v jaké míře se u dětí s výchozím skóre M-CHAT-R ≥ 7 rozvine PAS v pozdějším věku, abychom mohli posoudit vhodnost srovnání IS s KS.

Na základě tohoto přehledu můžeme konstatovat, že M-CHAT-R vykazuje pro obecnou populaci následující charakteristiky: nízká senzitivita⁸, relativně vysoká specifita⁹ a nízká prediktivní hodnota pozitivního testu (PPV)¹⁰ pro predikci PAS. Není proto sám o sobě doporučován a teprve následný telefonický screening zvyšuje PPV na akceptovatelnou úroveň (Baduel et al., 2017; Chlebowski et al., 2013; Kleinman et al., 2008; Robins, 2008; Stenberg et al., 2014). Ten však bohužel v ČR neprobíhá a musíme tedy pracovat s výsledky M-CHAT-R.

Studie provedené na různých, málo rizikových populacích také vykazují dosti rozdílné hodnoty výše uvedených ukazatelů. Každopádně se zdá, že senzitivita i PPV jsou pro účely evaluace relativně nízké (což je dáno i nízkou prevalencí PAS v populaci). PPV také stoupá s věkem, kdy je M-CHAT-R prováděn (Toh et al., 2018; Topçu et al., 2018). Dostupné studie také dokládají, že kombinace nízké senzitivity a vysoké specifity vede k tomu, že M-CHAT-R dobře odhalí zdravé děti (pouze přibližně 5–10 % falešně pozitivních), ale kvůli nízké senzitivitě neodhalí všechny děti s ASD (40–70 % falešně negativních). Jinými slovy, děti se skóre 3 a více *mají* s vysokou pravděpodobností PAS (vysoká specifita). To ale neznamená, že v případě skóre 2 a méně můžeme ASD vyloučit (nízká senzitivita).

Pro naši studii je dále klíčový poznatek týkající se dětí s M-CHAT-R ≥ 7 .¹¹ Ze studie Robins et al. (2014) vyplývá, že zlomová hodnota vyšší než 3 významně snižuje senzitivitu a mírně zvyšuje specifitu. Navíc skupina pravdivě pozitivních měla průměrný skór M-CHAT-R=7,23 (nicméně standardní odchylka je poměrně velká – 3,24, což naznačuje vysokou variabilitu).

Z výše uvedeného lze usuzovat, že v IS i KS (M-CHAT-R \bar{x} = 10,9, resp. 11,2) budou v naprosté většině převládat pravdivě pozitivní případy, tj. děti s rizikem rozvinutí PAS. *Lze proto očekávat, že bez intervence by naprostá většina dětí vykazovala závažnou symptomatiku PAS nebo autismus. Jinými slovy, pokud bude IS v průměru vykazovat PAS v nižší míře (nebo závažnosti) oproti KS, metodu O.T.A. lze považovat za efektivní (a naopak).* Tento poznatek lze také využít pro posílení validity závěrů srovnání IS před a po intervenci (viz design 1 výše). Tyto závěry byly diskutovány s vědeckou radou projektu a nikdo ze členů je nerozporoval.

1.3. Výsledky kontrafaktuální dopadové evaluace

Tato část prezentuje výsledky empirického měření u obou designů představených v předchozí části.

⁸ Úspěšnost, s níž test zachytí přítomnost sledovaného stavu (nemoci) u daného subjektu (procento správně identifikovaných nemocných jedinců jako nemocných).

⁹ Schopnost testu přesně vybrat případy, u nichž zkoumaný znak (nemoc) nenastává (správné označení zdravých jedinců jako zdravých).

¹⁰ PPV (*positive predictive value*) udává, jakou máme jistotu, že osoba s pozitivním výsledkem testu je skutečně nemocná. Pracuje s celou populací. Analogicky NPV udává jistotu, s jakou je osoba s negativním výsledkem skutečně zdravá.

¹¹ Tato hodnota byla zvolena záměrně, aby do studie vstupovali děti s vysokým rizikem PAS. Za standardní zlomovou hodnotu indikující riziko PAS je považována 3 u všech položek; resp. 2 u tzv. kritických položek.



2.2.3. Design 1: před a po srovnání závažnosti symptomatiky PAS u intervenční skupiny

Test rozdílu hodnot závažnosti PAS před intervencí a po intervenci byl proveden párovým oboustranným t-testem celkového váženého skóru ADOS-2 a vážených skóre SA i RSP. Test normality pre a post testu byl proveden pomocí S-W testu.¹² Tabulka 2 shrnuje všechny podstatné výsledky.

Tabulka 2: průměr vážených skóre ADOS-2 pro intervenční skupinu (n=50)

	Celkový skór		Sociální aspekty		Repetitivní chování a specifické projevy	
	<i>před</i>	<i>po</i>	<i>před</i>	<i>po</i>	<i>před</i>	<i>po</i>
Průměr	7,8	5,4	8,5	5,8	6,4	5,4
SD	2,0	2,8	1,9	2,7	2,0	2,3
Rozdíl pre-post	2,4		2,7		1,0	
KI (95 %)	1,7 – 3,2		2,0 – 3,4		0,2 – 1,78	
% změna závažnosti	31% pokles		32% pokles		16% pokles	
S-W test (p) ^a	> ,05		> ,05		> ,01	
t test (p) ^b	< ,0001		< ,0001		< ,01	
velikost účinku (d) ^c	,96 (velký)		1,12 (velký)		,37 (malý)	

Zdroj: vlastní výpočty; Pozn: ^a – S-W test normálního rozložení; ^b – párový oboustranný t-test; ^c – Cohenovo D (d) pro párová data (rozdíl průměrů dělený rozdílem SD)

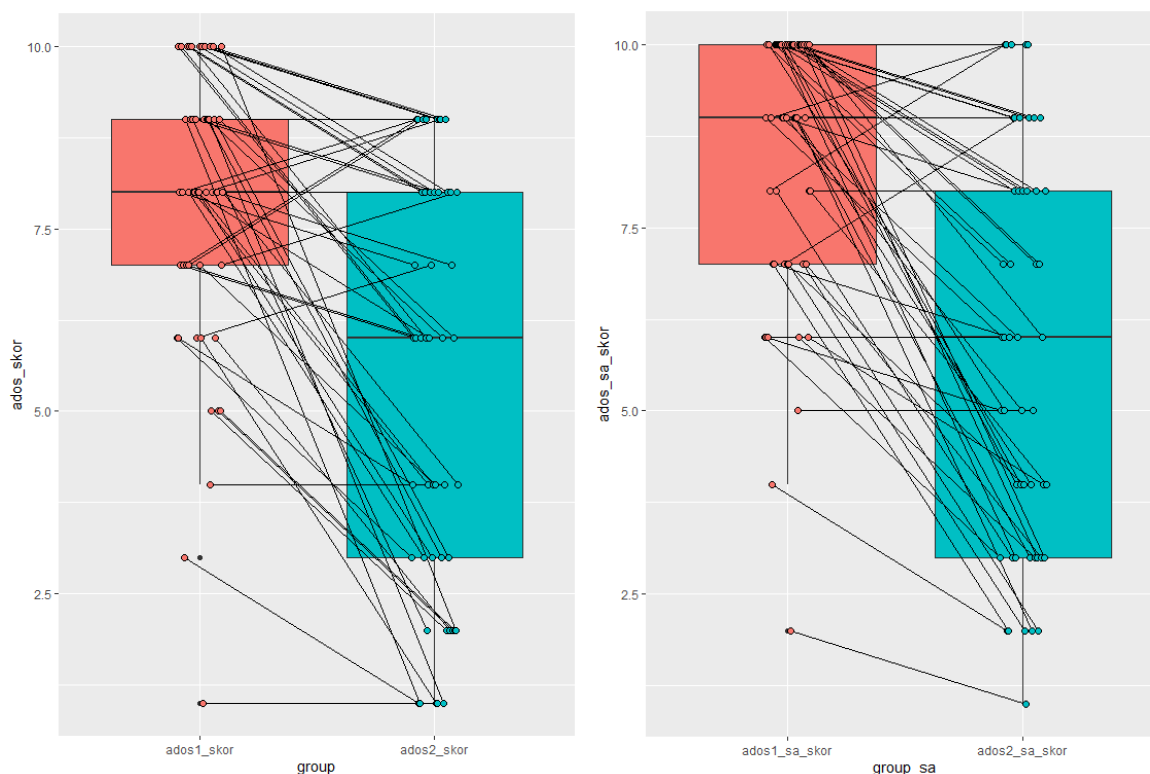
Z hlediska evaluace dopadu je zásadní to, že rozdíly před a po intervenci jsou statisticky významné na hladině významnosti 95 % pro celkový vážený skór a sociální aspekty. Více jak 30% pokles závažnosti symptomů znamená velký účinek. Změna repetitivního chování není statisticky významná.

Graf 1 ilustruje změnu před a po intervenci pro jednotlivé účastníky studie v případě celkového CSS a pro CSS SA. Vyplyvá z něj, že intervence zvýšila rozptyl, a to především směrem k nižším skóre. Jinými slovy, většina účastníků se z hlediska závažnosti symptomatiky zlepšila (část velmi významně), menší část zůstala na stejných hodnotách a pouze minimum účastníků se mírně zhoršilo.

¹² Provedení Shapirova-Wilkovova testu je spíše kontrolní, protože vzhledem k počtu pozorování není nutné trvat na předpokladu normálního rozdělení (Hendl, 2015). Nicméně z testu vyplývá, že hodnoty před a po u RSP nejsou normálně rozloženy. Ani rozdíl není statisticky významný, takže jej dále neinterpretujeme.



Graf 1: srovnání před a po intervenci pro IS – celkový vážený skór (vlevo) a sociální aspekty (vpravo)



Zdroj: vlastní výpočty

Podobný obrázek získáme při analýze kategorií závažnosti symptomatiky PAS, kterou shrnuje tabulka 3. Terminologie vychází ze studie Gotham et al. (2009), kde NS znamená nesplňuje podmínky pro zařazení do spektra (*nonspectrum*), ASD znamená poruchu autistického spektra (*autism spectrum disorder*) a AUT vyjadřuje autismus (*autism*).¹³ Zjištěné rozdíly před a po intervenci jsou statisticky významné ($\chi^2 = 10.5$, $p < .05$).

Tabulka 3: srovnání před a po pro IS podle závažnosti

		post-test						Celkem	
		NS		ASD		AUT			
pre-test	NS	2	100 %	0	0 %	0	0 %	2	100 %
	ASD	3	75 %	1	25 %	0	0 %	4	100 %
	AUT	11	25 %	5	11 %	28	64 %	44	100 %
Celkem		16	32 %	6	12 %	28	56 %	50	100 %

Zdroj: vlastní výpočty; Pozn: NS – nesplňuje podmínky; ASD – porucha autistického spektra; AUT – autismus

V rámci kategorií závažnosti se žádný účastník nezhoršil. Přibližně u dvou třetin dětí (62 %) se závažnost nezměnila. U více jak jedné třetiny dětí (38 %) došlo ke zlepšení o jednu kategorii (tři z ASD do NS a pět z AUT do ASD) nebo dokonce o kategorie dvě. Jedenáct dětí, které do studie vstupovali jako autistické tak po skončení intervence nesplňuje podmínky pro zařazení do spektra.

¹³ Terminologie se mírně liší pro Modul 0: malý až nulový počet příznaků, mírné až střední příznaky a střední až vážné příznaky. V textu se pro jednoduchost držíme výše uvedených zkratk.



Účinky intervence podle terapeuta a přidružených komorbidit

Velmi důležitou otázkou spojenou s intervencí je to, zda se účinnost metody O.T.A. liší podle terapeuta. V tomto kontextu nás především zajímá, zda existují rozdíly v závažnosti symptomatiky dětí rodičů, které provází terapií tvůrkyně metody Dr. Straussová (IS_S), a rodičů provázených ostatními terapeutkami, které byly v metodě proškoleny (IS_O), bez ohledu na to, zda působí v rámci CTA nebo jiných organizací.

Rozdělení do podskupin bylo provedeno nenáhodně na základě kapacit terapeuta a místa bydliště rodiny. Nicméně i tak se podařilo sestavit poměrně podobné skupiny. Rozdíl v M-CHAT-R nebyl mezi oběma podskupinami před začátkem intervence statisticky významný ($IS_S = 10,9$; $IS_O = 10,8$), mírně se lišily ve věku prvního testu ADOS-2 ($IS_S = 29$; $IS_O = 26$; $p < ,05$).

Tabulka 4: srovnání vážených skóre ADOS-2 u IS podle terapeuta

Ukazatel	Pre-test		Post-test	
	IS_S (n = 31)	IS_O (n = 19)	IS_S (n = 31)	IS_O (n = 19)
Průměr	7,7	8,0	5,5	5,3
SD	1,9	2,2	2,9	2,7
Rozdíl mezi terapeuty	-0,3		0,2	
t test (p)	0,635		0,816	

Zdroj: vlastní výpočty

Tabulka 4 shrnuje rozdíly mezi oběma podskupinami z hlediska závažnosti symptomatiky měřené pomocí vážených skóre ADOS-2. Je zřejmé, že podskupiny se statisticky významně nelišily ani před intervencí, ani po intervenci. Jinými slovy, intervence dosahuje v průměru *stejných výsledků* u tvůrkyně metody O.T.A. i v případě proškolených terapeutů.

Podobně jsme se zaměřili na otázku, do jaké míry ovlivňuje výsledek intervence komorbidita. Ex-post jsme rozdělili soubor na podskupinu bez zjištěných komorbidit (IS_{BK}) a s přidruženou komorbiditou (IS_{SK}). Rozdíl mezi oběma podskupinami před začátkem intervence nebyl statisticky významný jak z hlediska věku ($IS_{SK} = 29,1$; $IS_{BK} = 26,9$), tak M-CHAT-R ($IS_{SK} = 10,6$; $IS_{BK} = 11$).

Tabulka 5: srovnání vážených skóre ADOS-2 u IS podle komorbidity

	Pre-test		Post-test	
	IS_{SK} (n = 17)	IS_{BK} (n = 33)	IS_{SK} (n = 17)	IS_{BK} (n = 33)
Průměr	8,3	7,6	6,4	4,9
SD	2,2	1,9	2,7	2,7
Rozdíl $IS_K - IS_O$	0,7		1,56	
t test (p) ^a	0,132		0,031	

Zdroj: vlastní výpočty; Pozn: ^a – očekávali jsme, že komorbidita bude zhoršovat výsledek testu ADOS-2, proto byl použit jednostranný t test. Při použití dvoustranného t testu jsou hodnoty p dvojnásobné.

Z hlediska závažnosti symptomatiky PAS se zdá být intervence účinnější u dětí bez diagnostikované komorbidity. Nicméně rozdíl není zásadní a pohybuje se na hranici statistické významnosti. V případě SA a RSP dokonce vychází jako nevýznamný na hladině významnosti 95 %. To však může být dáno také tím, že použitá operacionalizace přítomnosti komorbidity nerozlišuje její druh a závažnost. Tato hypotéza bude předmětem dalších analýz.

Uvedené výsledky potvrzuje i souhrnný regresní model (ordinální regrese), kde kontrolujeme pro M-CHAT-R, terapeuta, komorbiditu a věk dítěte při post-testu ADOS-2.



2.2.4. Design 2: srovnání intervenční a kontrolní skupiny

Test rozdílu hodnot závažnosti PAS mezi IS a KS (post-test) byl proveden oboustranným jednovýběrovým t-testem celkového váženého skóru ADOS-2 a vážených skóre SA i RSP (všechny proměnné mají normální rozdělení). Tabulka 6 shrnuje výsledky testů.

Tabulka 6: výsledky post-testu ADOS-2 (průměr kalibrovaných skóre)

ADOS-2 post-test	Celkový skór	Sociální aspekty	Repetitivní chování a specifické projevy
IS	5,4	5,8	5,4
KS	6,5	7,4	5,8
Rozdíl (KS – IS)	1,1	1,6	0,4
t test (p) ^a	0,03	0,003	0,32
velikost efektu (d) ^b	,44 (malý)	,61 (střední)	0,2 (malý)

Zdroj: vlastní výpočty; Pozn: ^a – jednovýběrový oboustranný t-test; ^b – Cohenovo D (d)

Ve srovnání s KS měla intervence malý efekt na celkový skór a repetitivní chování a střední efekt na sociální aspekty. Z tohoto jednoduchého srovnání nelze činit jednoznačné závěry o efektu intervence, protože skupiny nejsou srovnatelné (viz výše). Nicméně plausibilní interpretace je, že test potvrzuje větší účinnost metody na SA oproti RSP.

Dále jsme pro posouzení efektu využili ordinální logistickou regresi. V modelu je závislá proměnná závažnost symptomatiky PAS ve třech úrovních (NS, ASD, AUT), nezávislá členství ve skupině (IS nebo KS) a kontrolní M-CHAT-R.

Tabulka 7: ordinální regresní model

Proměnná	Regresní koeficienty	SD	p	Poměr šancí (OR)
skupinaKS	1,270139	0,449978	0,005	3,6
M-CHAT-R	0,059208	0,083422	0,478	1,1
NS ASD	-0,26383	0,951585	0,782	---
ASD AUT	0,48724	0,94865	0,608	---

Zdroj: vlastní výpočty

Podobně jako v předchozím případě je regresní model limitován nestejností obou skupin a výsledky je tedy nutné interpretovat s jistou dávkou opatrnosti. Nicméně nasvědčují tomu, že intervence má na IS statisticky významný efekt. Šance na zlepšení o jednu či obě kategorie závažnosti je pro děti z IS 3,6krát větší, než pro děti z KS.

1.4. Výsledky dalších šetření

Mimo výše uvedené hlavní evaluační designy probíhala řada dílčích šetření, jejichž výsledky shrnuje tato kapitola.

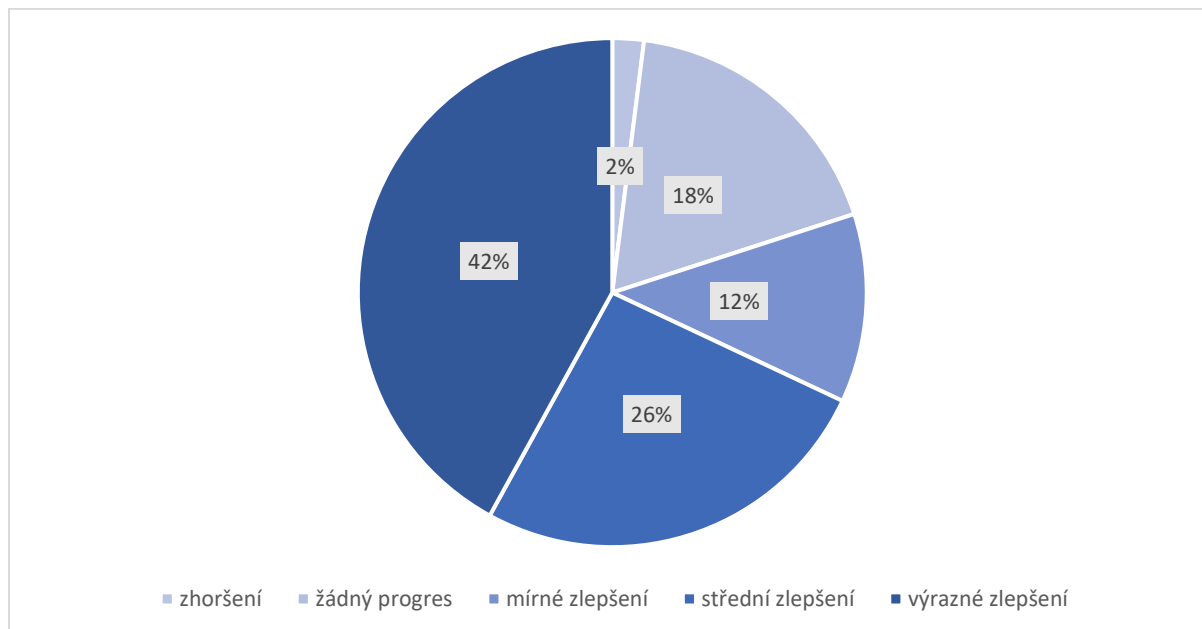
2.2.5. Výsledky vyšetření dětským psychiatrem

Hodnocení účinnosti metody zahrnovalo jak objektivizaci příznaků metodou ADOS-2, tak vyšetření při vstupu, dlouhodobé sledování, standardní léčbu a závěrečné vyšetření dalším nezávislým dětským psychiatrem. Většinu dětí vyšetřil profesor dětské psychiatrie 1. lékařské kliniky UK, 6 dětí bylo vyšetřeno jiným dětským psychiatrem z důvodu bydliště na Moravě. Pro možnost kvantifikace byly



výsledky vyšetření operacionalizovány do 5 kategorií: 0 – zhoršení stavu; 1 - žádný progres; 2 – mírné zlepšení; 3 – zlepšení; 4 – výrazné zlepšení. Vyhodnoceno bylo 48 dětí z těch, které podstoupily závěrečný test ADOS-2.

Graf 2: změna stavu IS podle psychiatrického vyšetření



Zdroj: vlastní zpracování výsledků poskytnutých spolupracujícími dětskými psychiatry

Závěrečné výsledky prokázaly zhoršení stavu pouze u jednoho dětského pacienta, u 9 dětí se stav nezměnil. Naopak 39 dětí zaznamenalo zlepšení, z toho 6 mírné, 13 střední a 21 výrazné. V průběhu intervence byly u některých dětí diferencovány další specifické poruchy z oblasti neurovývojových poruch, nejčastěji vývojová dysfázie, ADHD, také poruchy intelektu, které byly v indikovaných případech léčeny farmakologicky. Předběžné výsledky vyšetření dětským psychiatrem byly prezentovány na závěrečné konferenci, finální výsledky budou publikovány v samostatné studii.

2.2.6. Výsledky z hlediska prostupnosti školským systémem

Na základě informací od rodičů z IS je možné konstatovat, že téměř polovina dětí z Rané intervence O.T.A.[®] (22 dětí z 50) navštěvuje běžnou mateřskou školu bez asistenta. Pouze 9 dětí z 50 navštěvuje speciální mateřskou školu pro děti s autismem.

2.2.7. Subjektivní well-being rodičů

Osobnost rodičů byla sledována v průběhu intervence standardními nástroji (viz předchozí evaluační zprávy). Výsledky těchto šetření jsou shrnuty v metodice a byly prezentovány na závěrečné konferenci.¹⁴ V rámci dopadové evaluace jsme se zaměřili na jednoduché vyhodnocení duševní pohody a reflexi emočních stavů, které rodiče prožívali před a po intervenci. Toto hodnocení bylo provedeno zpětně pomocí stručného elektronického dotazníku (38 položek – viz příloha 2). Šetření proběhlo v červenci 2022, kdy bylo obesláno 49 matek dětí z IS (jedna matka byla vyřazena, protože nebylo možné zajistit úplnou anonymitu). Celkem odpovědělo 28 matek (n = 28), tj. návratnost dotazníku byla pro tento typ šetření relativně vysoká (57 %).

¹⁴ Jsou také dostupné na vyžádání: Vágnerová, M. a Janošová, P. 2022. Osobnost rodičů a děti s PAS. Nepublikováno.



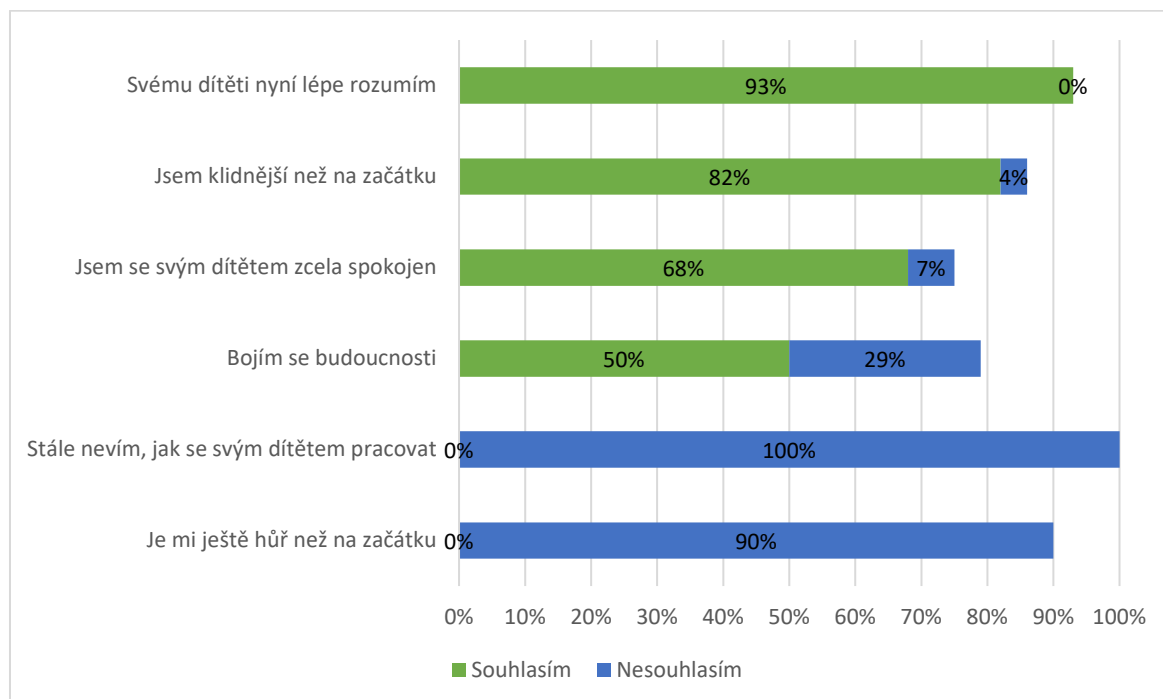
Aktuální subjektivní well-being (tj. již s několikaměsíčním odstupem po intervenci) jsme sledovali pomocí Indexu emoční pohody (WHO-5, verze 1998). Respondentky odpovídaly na otázku, jak se cítily v posledních dvou týdnech v pěti různých oblastech. Škála pro odpovědi je 5 - celou dobu; 4 - většinu doby; 3 - více než polovinu doby; 2 - méně než polovinu doby; 1 - občas; 0 - nikdy.

Hrubý skór dosahuje hodnot od 0 do 25, přičemž 0 je nejhorší a 25 nejlepší možná kvalita života. Skór nižší než 13 bodů znamená nízkou emoční pohodu respondentky a je indikací pro testování deprese podle ICD-10.

Celkový průměr hrubého skóru byl 16, nižší než kritickou hodnotu (13 bodů včetně) zaznamenalo 8 respondentek (29 %). Tento podíl žen ohrožených depresí je srovnatelný s výsledky ženské populace v EU (Eurofound, 2017) a v daném kontextu jej lze interpretovat jako relativně nízký.

Retrospektivně jsme zkoumali emoční stavy, které u matek vyvolala informace, že jejich dítě může trpět PAS. Celkem pochopitelně byl převládající emocí v prvních dvou týdnech silný smutek následovaný pocitem zoufalství a zmatku. Část matek také pociťovala beznaděj a naštvanost na někoho/něco. Sdělení podezření na poruchu naopak prakticky vůbec nenechalo matky v klidu nebo lhostejnosti. Z hlediska evaluace well-beingu bylo klíčové zjištění, jaké změny se v životě matek od té doby udály z hlediska prožívání celé situace a ve vztahu k dítěti s PAS. Respondentky posuzovaly celkem 12 změn v různých aspektech jejich života pomocí míry souhlasu či nesouhlasu s daným výrokem. Výsledky shrnují grafy 3 a 4.

Graf 3: změny od sdělení podezření na PAS

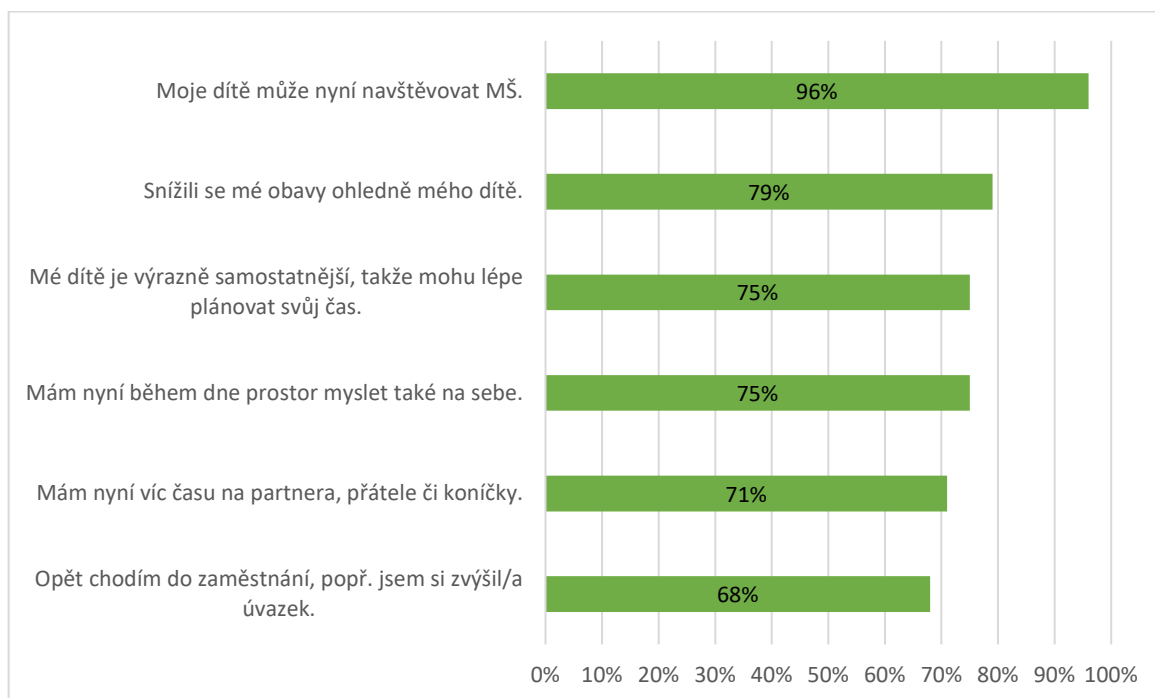


Zdroj: vlastní výpočty; zbytek do 100 % tvoří odpovědi „ani nesouhlasím, ani souhlasím“.

Naprostá většina matek hodnotí změny oproti době před intervencí pozitivně. Získaly větší jistotu pro interakci s dítětem s PAS, cítí se lépe a přistupují k situaci s větším klidem. To jistě souvisí i s tím, že nyní více rozumí svému dítěti a jsou s ním celkově spokojenější. Zároveň si uvědomují, že budoucnost je relativně nejistá a polovina respondentek se jí bojí.



Graf 4: změny v různých aspektech života matek z IS



Zdroj: vlastní výpočty

Intervence pozitivně ovlivnila celou řadu aspektů života. Naprostá většina dětí může navštěvovat mateřskou školu, což pro matky představuje velkou úlevu a menší obavy. Spolu s větší samostatností dítěte to znamená, že většina respondentek může lépe plánovat čas a využívat jej pro vlastní realizaci včetně trávení času s partnerem či přáteli. Dvě třetiny matek potom opět začalo chodit do zaměstnání nebo si dokonce navýšilo úvazek.

Klíčovou otázkou dopadové evaluace samozřejmě zůstává, nakolik byly tyto pozitivní změny well-beingu způsobené intervencí. Dostupná data neumožňují odhadnout efekt intervence a vyslovit tak jednoznačný závěr o jejím kauzálním působení. Nicméně podle všech respondentek ovlivnila tyto změny Raná intervence O.T.A. významně (71 %) nebo alespoň částečně (29 %). Tomu nasvědčují i komentáře, kde mohly respondenty odpověď na tuto otázku podrobněji rozvést. Až na jeden byly všechny pozitivní, vybrané potom uvádíme v tabulce 8.

Tabulka 8: komentáře k otázce vlivu Rané intervence O.T.A.® na změny v životě matek

Děkuji Vám mnohokrát!!!!
Děkuji p. Straussově a celému týmu CTA za pomoc v začátcích a paní logopedce doted!!! ❤️
Naučila nás pracovat s dítětem a snažit se ho pochopit vcítit se do něj.
Lituji, že jsme stejnou metodu od raného věku nepoužívali i u staršího syna.
Raná intervence OTA nám zachránila život.
Pro nás je potřeba jinou cestou, a metodou. Moc nechtěl se otvírat, tak asi něco jemu nesedí. Nebo nelíbí. Tak musíme tolerovat jeho vnímání.

Zdroj: vlastní šetření



1.5. Závěry a doporučení dopadové evaluace (ve spolupráci s Dr. Straussovou)

Evaluační studie zjišťovala účinnost Rané intervence O.T.A.[®] na závažnost symptomatiky PAS. Výsledky dvou kvazi-experimentálních srovnání naznačují střední až velkou velikost účinku metody na celkovou závažnost PAS, resp. její sociální aspekty. Efekt na repetitivní chování je malý nebo neprůkazný. Na základě těchto výsledků lze považovat ranou intervenci O.T.A. za účinnou, a to i v porovnání s běžnou sociální službou rané péče nebo jiných v ČR dostupných neintenzivních terapií. Přestože každý jednotlivý evaluační design a další podpůrné metody této studie mají svá významná omezení vyplývající z povahy intervence, při jejich kombinaci se celkový závěr o účinnosti metody se jeví jako validní a plausibilní. *Metoda O.T.A. představuje zásadní pokrok v intervencích u batolat s PAS a doporučujeme její zařazení mezi nabízené terapeutické metody. Protože primárně působí na sociální aspekty, doporučujeme její doplnění o program nácviků hry a pracovního chování v průběhu druhého roku intervence. Ruku v ruce s tím doporučujeme další ověřování potenciálu metody rigorózními postupy na důkazech založené léčby (především RCT) a dlouhodobé sledování intervenční skupiny.*

Podle očekávání se také neprokázalo, že by se měnila účinnost metody v závislosti na osobě terapeuta. Metoda O.T.A. má tedy potenciál pro rozšíření do dalších zařízení poskytujících péči o děti s PAS a je možná její aplikace vyškolenými terapeuty. V této souvislosti je nutné upozornit na zajištění kvalitního proškolení zkušeným lektorem (v této chvíli jím je pouze Dr. Straussová). Realizační tým již zaznamenal pokusy o aplikaci metody pouze na základě informací dostupných na webových stránkách realizátora a považuje takové jednání za nezodpovědné a poškozující jak rodiny, tak metodu samotnou.

Naopak se potvrdilo, že výsledky Rané intervence O.T.A.[®] u dětí jsou závislé nejen na charakteristikách dítěte, ale i na charakteristikách primárních pečovatелů. Přestože tak byly změny symptomatiky logicky měřeny pouze u dětí, je vhodné sledovat rodinu jako celek. V každém případě práce v rodinách ukázala, že děti s „čistým“ PAS reagovaly na intervenci lépe a rychleji, pokud byla vedena správně. Dále je také nutné zdůraznit, že profit intervence byl viditelný u *všech dětí*, především v oblasti sociálního zapojení a reciprocity. Zásadně pozitivní byla změna reakce dětí z intervenční skupiny na hlas rodiče. To považuje autorka za hlavní přínos intervence obecně a tento efekt byl ve studii sledován téměř u všech dětí v intervenci bez ohledu na komorbidity. U dítěte, které reaguje na hlas rodiče, může rodič praktikovat výchovu obdobnou jako u zdravých dětí. Pokyny potom dítě, na rozdíl od běžných dětí s PAS, slyší a respektuje.

Výsledky dětí byly přítomností komorbidit pravděpodobně negativně ovlivněny, nicméně heterogenita PAS je obrovská a přítomnost komorbidit u této poruchy poměrně častá. Proto je důležitým úkolem vědy hledat odpovědi nejen na PAS bez komorbidit, ale i na kombinace, ve kterých se porucha vyskytuje. Účinnou intervencí potřebují děti s PAS, ale také děti s komorbiditami. Raná intervence O.T.A. neumí zvrátit trajektorii vývoje u dítěte s komorbidní poruchou intelektu, umí takové dítě pouze „probrat“ k sociálním interakcím (dítě se chlubí, využívá oční kontakt, reaguje na jméno i na hlas rodiče pozitivně) a dále u něj využívá behaviorálních nácviků klíčových sociálně komunikačních dovedností včetně imitace. Výhodou metody ovšem je, že postupy operativního podmiňování nevyužívá dříve, než je u konkrétního dítěte jisté, že se klíčové dovednosti neobjeví spontánně samy v návaznosti na optimalizaci interakcí rodič – dítě. Tomuto tématu se věnuje podrobněji metodika, která je také výstupem projektu.

Celkové výsledky studie O.T.A. částečně ovlivnila také pandemie Covidu-19, kdy mnoho intervenčních rodin vůbec neopouštělo svůj domov (ani na nákup či k lékaři), mnoho dětí nemohlo nastoupit do mateřských škol, ač by to intervence vyžadovala, a tak zbrzdění vývoje směrem ke sdílení s vrstevníky u některých zapříčinilo částečný návrat k projevům PAS. Nebyla totiž splněna podmínka postupné



zátěže dítěte s respektováním aktuální vývojové úrovně v rámci zóny proximálního vývoje. Konečné výsledky byly touto okolností částečně negativně ovlivněny, ale podle názoru autorky metody nezakreslily efekt intervence příliš výrazně.

Přestože součástí dopadové evaluace nebyla evaluace ekonomické, jednoduché porovnání nákladů a přínosů vychází jednoznačně ve prospěch metody. Ta je založená na omezeném počtu setkání s terapeutem (max. 20 hod. čistého času v průběhu dvou let), jedním pětidenním terapeutickým pobytem celé rodiny a případně také 4 hodinami nácviku kooperace ve hře ve dvojicích. Časové a finanční náklady jsou tak oproti ostatním metodám velmi nízké a terapie vychází jako pravděpodobně nejefektivnější model práce s batolaty (a to i s ohledem na zařazení dětí s komorbiditami). To je vysoce relevantní pro případný upscaling metody.

Pro srovnání: jeden terapeut může poskytnout intervenci 50 rodinám za rok, tj. až 100 rodin za 2 roky. V porovnání s běžnou komunitní péčí (v případě ČR se jedná o ranou péči) jde o dvojnásobek za rok a až čtyřnásobek za 2 roky. Zatímco v případě metody O.T.A. se frekvence po 5 měsících výrazně snižuje nebo zcela ustává, poradce rané péče poskytuje službu v průběhu 1 roku i 2 let přibližně 25 rodinám a efekt této služby je podle výsledků 3,6x nižší. Metoda je tak jednak méně náročná na celkovou terapeutickou kapacitu, jednak finančně dostupnější i pro nízkopříjmové rodiny, které jiný typ terapie podstoupit nemohou.

2.2.8. Je úzdava u PAS možná?

Výsledky dětí, které v ADOS-2 nespĺnily kritéria pro PAS, je možné brát jako velmi nadějnou zprávu, nicméně je třeba ji posuzovat střídmě a s rozvahou. U těchto dětí mohou nadále přetrvávat residua poruchy. Vyléčení z autismu zatím z lékařského hlediska zřejmě možné není, protože dokud nezná věda etiologii nemoci, nemůže mluvit ani o léčení, ani o možnosti vyléčení. Takový výsledek by nicméně měl signalizovat možnost intaktního nebo téměř intaktního fungování jedince v budoucím životě. Již od dob Lovaase (1987) se věda zabývá možností „úzdavy“ z autismu (Helt et al., 2008; překlad Hrdlička, 2020) a čím dál tím častěji (v závislosti na stále nových vědeckých důkazech) tuto možnost připouští.¹⁵ Intaktní fungování dětí mezi vrstevníky a v životě možné je, na to již přinesla věda dostatek důkazů. Jak ale tento efekt ve skutečnosti v oblasti genotypu funguje, zda a jak se prokazatelně mění nebo zůstává neměnný, jasné není. Věda umí hodnotit zatím pouze fenotyp, u kterého hledá přítomnost známek poruchy. V oblasti epigenetiky se hovoří o možnosti deaktivace některých genů vlivem aktivace určitého nového chování.

Tak se zřejmě projevuje uzdravný proces u dětí s PAS. Objektívni měření však není k dispozici, geny zodpovědné za PAS nejsou stále z převážné části popsány. V případě studie Rané intervence O.T.A.[®] bude pro používání termínu „úzdava“ vhodné další longitudinální sledování více než čtvrtiny z celkového počtu dětí, které při závěrečném testu ADOS-2 kritéria poruchy nespĺňovaly. U některých dětí z kategorie mimo oblast PAS byla po dvou letech v intervenci přítomna residua poruchy. Z těchto důvodů bude vhodné sledovat vývoj dětí z této kategorie i nadále a po dvou až čtyřech letech re-testem prověřit stabilitu výsledků v čase. Informace o stabilitě výsledků v čase a běžném fungování dětí se jeví jako klíčová. Dobré výsledky referují i další studie, ale intervence O.T.A. je závislá pouze na vedení dítěte rodičem a je po dvou letech ukončena. Zůstává tedy otázkou, zda je dítě schopné si nadále udržet dobré výsledky anebo se začnou, s příchodem vyšších nároků v rozumném sociálním situacím ve vyšším věku, jeho výsledky zhoršovat. Klinická zkušenost z předchozích sledování dětí, které prošly v batolecím věku dvouletým programem intervence O.T.A. a nyní navštěvují běžné základní školy bez

¹⁵ Podrobněji se přehledu účinnosti dalších metod věnuje metodika.



asistenta, poskytla řešitelům naději, že by většina těchto dětí mohla své výsledky udržet. Relevantní data na větším vzorku dětí ale dosud chyběla.

2.2.9. Závěry k dílčím studiím

V oblasti well-beingu byly zaznamenány veskrze pozitivní změny a matky dětí s PAS vykazují po intervenci well-being srovnatelný s obecnou populací. Celé šetření bylo samozřejmě limitováno nižší návratností a tím, že nemáme srovnání s KS. Nicméně i na základě zkušeností pracovníků centra lze usuzovat, že intervence významně zvyšuje pocit pohody matek z IS.

Co se týče průchodu vzdělávacím systémem, je na místě srovnání se studii s tímto náhledem na měření účinnosti terapií. Výsledky nerandomizované Lovaasovi studie (1987), která otevřela cestu pro široké používání aplikované behaviorální analýzy v dalších desetiletích, jsou prezentovány právě především průchodností školským systémem. Téměř polovina dětí z jeho intervenční skupiny (40 h terapie po dobu 3 let), byla umístěna v první třídě do běžné školní třídy s výukou odpovídajícího rozsahu (9 dětí z 19), jen 10 % dětí bylo umístěno do speciální třídy pro děti s autismem (na rozdíl od skupiny kontrolní, která pobírala po 3 roky jen 10 h ABA týdně, kde v autistické třídě skončilo 53 % dětí). Výsledky Rané intervence O.T.A.[®], kde neprobíhal žádný intenzivní trénink dětí, se podobají v možnosti integrace výsledkům Lovaasovým.

2.2.10. Diskuse k limitům studie

Limity obou hlavních evaluačních designů byly stručně diskutovány již při jejich představení výše. V této části se podrobněji věnujeme vybraným problémům v kontextu předchozích studií v této oblasti a s ohledem na doporučení pro budoucí evaluace podobných intervencí.

Klíčovou otázkou je možnost provedení experimentu u dětí s PAS v batolecím věku. Pokud se jedná o studie intervenčních programů, které hodnotí výsledky dítěte, sledují se obvykle jednotlivé dovednosti, resp. profit dítěte z intervence v několika vybraných oblastech. Nehodnotí jeho výsledky z pohledu závažnosti autistických symptomů, zda má dítě těžkou formu autismu se závažnými projevy, zda jsou projevy lehčího rázu nebo dokonce nekorespondují s klinickým obrazem PAS. Takové studie jsou kritizovány za to, že neměří symptomatiku PAS vhodnými nástroji.

Dalším nedostatkem studií u batolat je krátkodobý horizont. Pro pozitivní efekt intervencí je třeba u dítěte s PAS longitudinální sledování, u studií kratších (3-6 měsíců) nemusí být efekt na závažnosti symptomů prokazatelný. Sledují se tedy jen změny dílčích projevů, nevyužívá se test ADOS-2 apod.

Je také vhodné připomenout, že většina zahraničních studií zkoumající účinnost (v ČR asi nejznámější) aplikované behaviorální analýzy (ABA) u batolat není randomizovaná. V dostupné odborné literatuře k ABA jsme našli pouze dvě takové studie: u první z nich výsledky neprokázaly větší rozdíly mezi skupinami, výsledky druhé nebyly ani nikdy publikovány (Chawarska & Volkmar, 2020; podrobněji v metodice) (podrobněji v metodice).

Další oblastí randomizovaných studií zjišťujících efektivitu intervenčních programů u batolat jsou studie měřící well-being rodičů. Jedná se o studie typu PACT, kdy děti obou skupin pobírají obdobnou intervenci, a participantů jsou náhodně rozděleny do 2 skupin, kdy v intervenční skupině se, na rozdíl od kontrolní, pracuje s rodinou na zlepšení interakcí rodič-dítě. V takových studiích batole 1) neztrácí čas a 2) není odesláno k pobírání „komunitní intervence“ nebo dokonce placebo. V obou skupinách jsou rodiny, které se rozhodly pobírat behaviorální intervenci a v ní nadále pokračují. Tedy z etického hlediska není skupina kontrolní z pohledu času, který je třeba u batolete využít, ochuzena.

Ve výzkumné studii k ověření programu O.T.A. bylo zamýšleno poskytnout rodinám z kontrolní skupiny pouze komunitní péči, resp. ranou péči. Bylo by mnohem vhodnější mít možnost poskytnout těmto



rodinám intervenční program u batolat ověřený (ESDM nebo jiný naturalistický program založený na ABA), což ale v té době ještě možné nebylo.

K závěru o účinnosti metody přispěla i velmi přísná kritéria vstupu, která byla zvolena právě s ohledem na získání validních důkazů. Do studie byly zařazeny nejen děti s „čistým“ PAS, ale často také s dalšími komorbiditami. Přijaty byly i děti, které ve věku okolo dvou let například ještě dobře nechodily nebo chodily o široké bázi, nebo také dítě s těžkým zrakovým postižením. Vysoké skóre M-CHAT-R koreluje s přítomností komorbidit,¹⁶ což se ukázalo i v naší studii. Pro případné následné studie proto doporučujeme zvolit pozitivitu M-CHAT-R 3+, abychom rozšířili počet dětí s PAS bez přítomnosti dalších souběžných poruch. Takové výsledky lze potom lépe srovnat s výsledky jiných programů. U nich je totiž obvyklé, že děti, u kterých se prokáže porucha intelektu nebo jiné komorbidity, nejsou ve studiích hodnoceny. Hodnotí se v nich především účinnost na projevy PAS, na které jsou intervence zaměřeny. Výsledky naznačují, že „očistění“ studie o závažné komorbidity by dále zvýšilo účinnost intervence.

Hlavním doporučením pro další evaluaci účinnosti metody je tedy provedení randomizované kontrolované studie, v *ideálním případě* v různých zařízeních (Weinberger et al., 2001) a porovnávající účinnost metody O.T.A. s jinou vědecky ověřenou metodou. Bohužel, v současné době není taková studie pravděpodobná.

Podmínky a předpoklady celorepublikového rozšíření Rané intervence O.T.A.[®]

Hlavní pozornost procesní evaluace byla od počátku projektu věnována otázce, zda je raná intervence O.T.A. aplikovatelná v celorepublikovém měřítku. Vzhledem k reálnému vývoji v uplynulých letech lze jednoznačně konstatovat, že je, neboť realizované osvětové, vzdělávací, evaluační a advokační aktivity už mají řadu hmatatelných výsledků. Přehled nejdůležitějších milníků v uvedených oblastech před i v průběhu realizace projektu nabízí tabulka 9.

Tabulka 9: milníky projektu v letech 2016 až 2022

Rok	Milník
2016	✓ CTA spouští pravidelně aktualizovaný web www.autismus-screening.eu pro pediatry i rodiče hledající informace o screeningu PAS či M-CHAT-R. Stránka se při vyhledávání obvykle umísťuje jako první výsledek a je hojně využívána (aktuálně má přes 3 000 návštěv měsíčně).
2017	✓ MZ ČR zavádí včasný záchyt M-CHAT-R jako součást 18měsíční preventivní prohlídky dětí u pediatra ✓ CTA spouští ve spolupráci s Odbrounou společností praktických dětských lékařů školení v M-CHAT-R, proškoleny přes 600
2018	✓ v odborném časopise Česká a Slovenská psychiatrie je zveřejněn článek o Rané intervenci O.T.A (STRAUSSOVÁ, R. <i>Přednosti včasného screeningu rizika autismu, rehabilitace prostřednictvím tréninku rodičů a raná intervence O.T.A. u dětí s PAS.</i> Česká lékařská společnost JEP: Česká a slovenská psychiatrie 2018; 114 (3): 106-116, ISSN 1212-0383)
2019	✓ pro IPVZ připraví CTA akreditované vzdělávací kurzy pro pediatry v diagnostice M-CHAT-R ✓ na žádost Společnosti pro ranou péči a Asociace raných péčí NROS se spouští akreditované vzdělávací kurzy Rané intervence O.T.A. pro pracovníky v rané péči.

¹⁶ Osobní sdělení tvůrkyně M-CHAT-R D. Robins.



2020	<ul style="list-style-type: none">✓ na základě rostoucího zájmu o ranou intervenci O.T.A. se při IPVZ spouští akreditovaný vzdělávací kurz o problematice PAS v batolecím věku pro pediatry, dětské klinické psychology a klinické logopedy (součástí je představení Rané intervence O.T.A.[®]).✓ strategie projektu Ověření účinnosti Rané intervence O.T.A.[®] u dětí s pozitivním nálezem v testu M-CHAT postavit nábor rodin do intervenční a kontrolní skupiny na doporučení pediatrů se nevydařila – uvědomění si klíčové role pediatrů a jejich rozdílných postojů k významu screeningu M-CHAT-R, necítí potřebu se v problematice PAS vzdělávat – nutnost pozvolné systematické edukace této skupiny odborníků ve spolupráci s Odbornou společností praktických dětských lékařů ČLS JEP.✓ CTA disponuje celkem 5 terapeuty, kteří dokážou pokrýt aktuální, stále ještě relativně nízkou, poptávku po terapii v celé ČR. Dle zkušeností CTA nicméně i nadále bude přibližně polovina rodičů preferovat přístupy založené na přímém vedení dítěte terapeutem namísto zapojení sebe sama jako hlavního hybatele změn u dítěte, tudíž bude dostatek času na kvalitní dlouhodobý výcvik dalších terapeutů, který bude saturovat vzrůstající informovanost a zájem rodičů. Velkým potenciálním zdrojem nových terapeutů je komunita videotrenérů.✓ novela zákona o podmínkách získávání a uznávání způsobilosti k výkonu nelékařských zdravotnických povolání, která měla rozšířit skupinu profesí o tzv. terapeuta neurovývojových poruch a ukotvit tak pracovní pozici terapeutů Rané intervence O.T.A.[®], na jejímž prosazení se CTA podílelo, nebyla schválena. Silný vliv politických zájmových skupin v pozadí tohoto výsledku.✓ 2020 – Asociace klinických logopedů ČR schválila Standardy péče oboru klinická logopedie pro PAS, které společně vypracovaly PhDr. Romana Straussová, Ph.D. (CTA) a Mgr. et Mgr. Iva Bajtlerová. Do doporučených postupů zařazena i terapie O.T.A.✓ na MZ ČR začíná akreditační proces dlouhodobého (180 hodin) akreditovaného vzdělávacího kurzu Raná intervence O.T.A. pro výcvik klinických logopedů, klinických psychologů, ergoterapeutů, zrakových terapeutů a dalších nelékařských pracovníků ve zdravotnictví, který připravila PhDr. Romana Straussová, Ph.D. (CTA) a bude probíhat při IPVZ. Ke dni odevzdání této zprávy akreditační řízení stále pokračuje. Charakter připomínek MZ naznačuje politické zájmy v pozadí celého procesu, v současnosti řešeno již přímo s MZ.✓ prezidium Asociace klinických psychologů žádá CTA o doložení vědeckých studií k Rané intervenci O.T.A. z důvodu zařazení této metody do doporučených postupů pro PAS touto odbornou společností.✓ CTA na IPVZ realizuje přednášky o Rané intervenci O.T.A., doplněné konkrétními videokazuistikami pro dětské psychiatry. V důsledku této osvěty začínají někteří významní dětské psychiatry ve svých vlastních přednáškách prezentovat metodu jako účinnou pro léčbu malých dětí s PAS (zejména jde o prof. MUDr. Paclta, CSc., doc. MUDr. Stárkovou, CSc., MUDr. Matýse, MUDr. Všetěčku a MUDr. Ryšánkovou a další).✓ Odborná psychiatrická společnost Sekce dětské a dorostové psychiatrie upravuje doporučené postupy léčby dětí s PAS o využití širší škály dostupných terapeutických metod, u malých dětí do 3 let pak zejména ranou intervencí O.T.A.
2022	<ul style="list-style-type: none">✓ Poptávka po Rané intervenci O.T.A. mezi rodiči, především díky rostoucímu počtu doporučení přímo od pediatrů, vzrůstá. Souvisí to zejména se zvyšující se informovaností pediatrů a ohlasy na zkušenosti s metodou mezi dalšími lékaři (genetiky, foniatry, neurology), klinickými logopedy, klinickými psychology a také mezi samotnými rodiči.✓ Raná intervence O.T.A. bude s vysokou pravděpodobností od roku 2023 zařazena do krajské sítě sociálních služeb v Praze. Poskytovatelem terapie bude Středisko pro CTA v rámci svých sociálně aktivizačních služeb pro rodiny s dětmi.



	<ul style="list-style-type: none">✓ Pražská mezinárodní mezioborová konference Poruchy autistického spektra od časného rozpoznání k možnostem řešení v batolecím věku, na které byly poprvé zveřejněny výsledky měření účinnosti Rané intervence O.T.A.[®], má velký úspěch. Na konferenci přednášela mimo jiné americká psycholožka, autorka M-CHAT-R prof. Diana Robins, Ph.D., prof. MUDr. Ivo Paclt, CSc., prof. Hilary Kennedy, Ph.D., doc. MUDr. L. Stárková, CSc., PhDr. R. Straussová, Ph.D., prof. RNDr. PhDr. Marie Vágnerová, CSc. a další. Mezi účastníky konference byli přítomni zástupci všech zdravotnických odborností dotýkajících se problematiky PAS u malých dětí. Celá akce byla odborně i mediálně velmi úspěšná, informovala o ní i Česká televize, která také natočila 2 rozhovory s prof. Dianou Robins, Ph.D., jeden z nich byl vysílán 10. 5. v redakci vědy na ČT 24: https://www.ceskatelevize.cz/porady/10101491767-studio-ct24/222411058320510/✓ Všechny zdravotnické odbornosti pracující s dětmi s PAS, tj. dětské psychiatry, kliničtí logopedi, pediatři, a většina foniatrů i klinických dětských psychologů znají ranou intervenci O.T.A., respektují ji a většinou také rodičům doporučují. Pokud ne, jedná se již jen o jednotlivce nikoliv podstatnou část dané odborné komunity.✓ Výsledky evaluační studie jsou prezentovány formou posteru na Autism-Europe International Congress 2022 v Krakově.
--	--

Zdroj: autoři

Při úvahách o dalším systémovém rozšíření Rané intervence O.T.A.[®] je třeba vycházet ze silných a slabých stránek metody. Dle odborníků v CTA patří mezi její největší klady již ověřená účinnost, výrazná ekonomická úspornost (nemluvě o pozitivních sociálních a ekonomických dopadech snížení závažnosti projevů PAS dětí) a také kapacitní nenáročnost (okruh terapeutů může být pro pokrytí potřeb v celé ČR poměrně malý). Úskalím jsou na druhé straně vysoké nároky na odbornost, osobnost, zkušenosti a motivaci těchto terapeutů.

Zřejmě nejslabším místem metody je nemožnost jednoduše ji začlenit do systému, neboť stojí na pomezí zdravotních a sociálních služeb. Jelikož se jedná o péči o malé děti s duševní poruchou, byť často zatím bez diagnózy, je nezbytná součinnost s pediatri, dětskými psychiatry či klinickými psychology.¹⁷ Do zdravotnictví ji ovšem prozatím zařadit nelze, neboť novela o podmínkách získávání a uznávání způsobilosti k výkonu nelékařských zdravotnických povolání, která měla rozšířit skupinu profesí o tzv. terapeuta neurovývojových poruch a tím ukotvit pracovní pozici terapeutů Rané intervence O.T.A.[®], nebyla v roce 2020 schválena. Po aktuálních volbách, které pravděpodobně změní rozložení politických sil, se nicméně CTA společně s dalšími aktéry bude snažit tuto novelu znovu prosadit.

V sociálním systému lze Ranou intervencí O.T.A.[®] poskytovat ve službách sociální prevence, s nenáročným financováním z dotací z rozpočtu krajů a státu. Tento model ale nepovažujeme za ideální, protože s možností poskytovat jako "sociálně terapeutickou činnost" se váže mnoho dalších povinností a omezení vyplývajících ze zákona o sociálních službách včetně velké administrativní zátěže. Podrobněji se problematice věnuje Závěrečná zpráva k advokační strategii.

Na závěr reflexe dosavadního vývoje a aktuální situace je tedy možné konstatovat, že celý projekt a jeho výsledky jsou velmi silným argumentem pro rozšiřování Rané intervence O.T.A.[®] v ČR. A nejen zde. V únoru 2023 bude např. projekt včetně kazuistik představen na Slovensku, na konferenci, kterou

¹⁷ V případě hodnocené intervence šlo o většinu dětí: 38 navštěvovalo či stále navštěvuje logopedii s opožděným vývojem řeči, dysfázie byla potvrzena u 8 dětí.



pořádá organizace delší dobu usilující o možnost ranou intervenci O.T.A. poskytovat. V tuto chvíli další expanzi metody limitují spíše interní kapacitní možnosti, časově náročná příprava nových terapeutů a také problémy s jejím systémovým začleněním a financováním.

Závěr

Evaluační studie prokázala účinnost Rané intervence O.T.A.[®] na závažnost symptomatiky PAS. Intervence také velmi pravděpodobně přispěla k well-beingu matek dětí z intervenční skupiny, částečně také díky možnosti umístit dítě do školky (ať již s asistentem nebo bez). Lze tedy konstatovat, že metoda O.T.A. představuje *zásadní pokrok* v intervencích u batolat s PAS a doporučujeme její zařazení mezi nabízené terapeutické metody. Ruku v ruce s tím doporučujeme další ověřování účinnosti rigorózními postupy na důkazech založené léčby (především RCT) a dlouhodobé sledování intervenční skupiny.

Účinnost metody není závislá na osobě terapeuta a je tedy vhodné její rozšíření do dalších zařízení poskytujících péči o děti s PAS. Přestože z metody nejvíce benefitovali děti bez komorbidit, profit intervence byl viditelný u všech dětí. Metodu tak lze doporučit i pro děti s přidruženými komorbiditami.

Poslední doporučení se týká provedení důkladné ekonomické evaluace, která by dokázala posoudit náklady a přínosy metody a porovnat je s obdobně zaměřenými přístupy v ČR i ve světě. Na základě velmi jednoduché kalkulace (viz výše) se metoda O.T.A. jeví jako méně náročná na celkovou terapeutickou kapacitu a tím i finančně dostupnější pro širší spektrum rodin.

Je také nutné ocenit výbornou systematickou advokační práci realizátora projektu. Ta se soustředí v první řadě na růst informovanosti o metodě napříč hlavními aktéry problematiky léčby PAS u malých dětí, dále pak na rozvoj dostupnosti, potažmo systémové ukotvení metody v ČR. Některé z advokačních aktivit byly zahájeny již před projektem a díky nim je v současné době obeznámenost odborné veřejnosti a rodičů s metodou pokročilá. A s růstem informovanosti o výsledcích Rané intervence O.T.A.[®] se začíná postupně objevovat ve standardech odborných společností dětských psychiatrů, pediatrů, klinických psychologů a logopedů jako doporučený postup léčby PAS u malých dětí. Jedním z výsledků této práce je, že realizátor bude (s vysokou pravděpodobností) od roku 2023 zařazen do krajské sítě sociálních služeb v Praze.

Literatura

- Baduel, S., Guillon, Q., Afzali, M. H., Foudon, N., Kruck, J., & Rogé, B. (2017). The French Version of the Modified-Checklist for Autism in Toddlers (M-CHAT): A Validation Study on a French Sample of 24 Month-Old Children. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 47(2), 297–304. <https://doi.org/10.1007/s10803-016-2950-y>
- Bieleninik, Ł., Posserud, M.-B., Geretsegger, M., Thompson, G., Elefant, C., & Gold, C. (2017). Tracing the temporal stability of autism spectrum diagnosis and severity as measured by the Autism Diagnostic Observation Schedule: A systematic review and meta-analysis. *PloS One*, 12(9), e0183160. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0183160>
- Chawarska, K., & Volkmar, F. R. (Eds.). (2020). *Autism spectrum disorder in the first years of life: Research, assessment, and treatment*. The Guilford Press.
- Chlebowski, C., Robins, D. L., Barton, M. L., & Fein, D. (2013). Large-Scale Use of the Modified Checklist for Autism in Low-Risk Toddlers. *Pediatrics*, 131(4), e1121–e1127. <https://doi.org/10.1542/peds.2012-1525>



- Cook, T. D., & Campbell, D. T. (1979). *Quasi-experimentation: Design & analysis issues for field settings*. Houghton Mifflin.
- Eckert, W. A. (2000). Situational Enhancement of Design Validity: The Case of Training Evaluation at the World Bank Institute. *AMERICAN JOURNAL OF EVALUATION*, 9.
- Esler, A. N., Bal, V. H., Guthrie, W., Wetherby, A., Weismer, S. E., & Lord, C. (2015). The Autism Diagnostic Observation Schedule, Toddler Module: Standardized Severity Scores. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 45(9), 2704–2720. <https://doi.org/10.1007/s10803-015-2432-7>
- Eurofound. (2017). *European quality of life survey 2016: Quality of life, quality of public services, and quality of society: overview report*. Publications Office. <https://data.europa.eu/doi/10.2806/964014>
- Gotham, K., Pickles, A., & Lord, C. (2009). Standardizing ADOS Scores for a Measure of Severity in Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39(5), 693–705. <https://doi.org/10.1007/s10803-008-0674-3>
- Helt, M., Kelley, E., Kinsbourne, M., Pandey, J., Boorstein, H., Herbert, M., & Fein, D. (2008). Can children with autism recover? If so, how? *Neuropsychology Review*, 18(4), 339–366. <https://doi.org/10.1007/s11065-008-9075-9>
- Hendl, J. (2015). *Prehled statistických metod: Analýza a metaanalýza dat*. Portál.
- Hrdlička, M. (2020). *Mýty a fakta o autismu*. Portál.
- Hus, V., Gotham, K., & Lord, C. (2014). Standardizing ADOS domain scores: Separating severity of social affect and restricted and repetitive behaviors. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 44(10), 2400–2412. <https://doi.org/10.1007/s10803-012-1719-1>
- Kleinman, J. M., Robins, D. L., Ventola, P. E., Pandey, J., Boorstein, H. C., Esser, E. L., Wilson, L. B., Rosenthal, M. A., Sutera, S., Verbalis, A. D., Barton, M., Hodgson, S., Green, J., Dumont-Mathieu, T., Volkmar, F., Chawarska, K., Klin, A., & Fein, D. (2008). The Modified Checklist for Autism in Toddlers: A Follow-up Study Investigating the Early Detection of Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38(5), 827–839. <https://doi.org/10.1007/s10803-007-0450-9>
- Lovaas, O. I. (1987). Behavioral treatment and normal educational and intellectual functioning in young autistic children. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 55(1), 3–9. <https://doi.org/10.1037/0022-006X.55.1.3>
- Nekola, M. (2007). Monitoring a evaluace realizovaných politik. In A. Veselý & M. Nekola (Eds.), *Analýza a tvorba veřejných politik: Přístupy, metody a praxe*. SLON.
- Robins, D. L. (2008). Screening for autism spectrum disorders in primary care settings: *Autism*. <https://doi.org/10.1177/1362361308094502>
- Robins, D. L., Casagrande, K., Barton, M., Chen, C.-M. A., Dumont-Mathieu, T., & Fein, D. (2014). Validation of the Modified Checklist for Autism in Toddlers, Revised With Follow-up (M-CHAT-R/F). *Pediatrics*, 133(1), 37–45. <https://doi.org/10.1542/peds.2013-1813>
- Shadish, W. R., Cook, T. D., & Campbell, D. T. (2002). *Experimental and Quasi-experimental Designs for Generalized Causal Inference*. Houghton Mifflin. <http://books.google.cz/books?id=o7jaAAAAMAAJ>
- Stenberg, N., Bresnahan, M., Gunnes, N., Hirtz, D., Hornig, M., Lie, K. K., Lipkin, W. I., Lord, C., Magnus, P., Reichborn-Kjennerud, T., Schjølberg, S., Surén, P., Susser, E., Svendsen, B. K., Tetzchner, S. von, Øyen, A.-S., & Stoltenberg, C. (2014). Identifying Children with Autism Spectrum Disorder



- at 18 Months in a General Population Sample. *Paediatric and Perinatal Epidemiology*, 28(3), 255–262. <https://doi.org/10.1111/ppe.12114>
- Toh, T.-H., Tan, V. W.-Y., Lau, P. S.-T., & Kiyu, A. (2018). Accuracy of Modified Checklist for Autism in Toddlers (M-CHAT) in Detecting Autism and Other Developmental Disorders in Community Clinics. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 48(1), 28–35. <https://doi.org/10.1007/s10803-017-3287-x>
- Topçu, S., Ulukol, B., Öner, Ö., Orhon, F. Ş., & Başkan, S. (2018). Comparison of tidos with m-chat for screening autism spectrum disorder. *Psychiatry and Clinical Psychopharmacology*, 28(4), 416–422. <https://doi.org/10.1080/24750573.2017.1422682>
- Weinberger, M., Oddone, E. Z., Henderson, W. G., Smith, D. M., Huey, J., Giobbie-Hurder, A., & Feussner, J. R. (2001). Multisite Randomized Controlled Trials in Health Services Research: Scientific Challenges and Operational Issues. *Medical Care*, 39(6), 627–634.