

PROTOCOLO DE INVESTIGACIÓN

Ensayo aleatorio controlado sobre la efectividad de la Musicoterapia improvisacional para niños con Trastornos del Espectro Autista (Time A): Protocolo de investigación¹

Autores originales: Monika Geretsegger, Ulla Holck y Christian Gold² Traducción al español: Karina Ferrari³ y Nuria Marsimian

Resumen

Antecedentes: Un estudio previo de investigación ha sugerido que la Musicoterapia puede facilitar habilidades en áreas comunes afectadas por el Trastorno del Espectro Autista tales como, la interacción social y la comunicación. Sin embargo, la generalización de los resultados previos es acotada ya que los estudios eran limitados tanto en la precisión de la metodología o en la relevancia clínica de su enfoque. La meta de esta investigación es determinar los efectos de la Musicoterapia improvisacional, en las habilidades comunicacionales de niños con Trastorno de Espectro autista. Un objetivo adicional de esta investigación, es examinar si la variación en la frecuencia del tratamiento (es decir el número de sesiones de Musicoterapia por semana) afecta los resultados de la terapia además de determinar su costo-efectividad.

Métodos/Diseño: Niños de entre 4 y 6.11 años que están diagnosticados con Trastorno de Espectro Autista, serán asignados al azar a una de las tres condiciones. Los padres de quienes participen en el estudio recibirán tres sesiones de asesoramiento a padres (al comienzo, a los dos y a los cinco meses). Además a los niños asignados al azar a los dos grupos de intervención se les ofrecerá individualmente sesiones de musicoterapia improvisacional en un período de cinco meses, ya sea una sesión (intensidad baja) o tres sesiones (intensidad alta) por semana. Los efectos globales de la Musicoterapia serán medidos usando escalas estandarizadas aplicada por evaluadores ciegos tanto a los niños (Autism Diagnostic Observation Schedule, ADOS) como a los padres (Social Responsiveness Scale, SRS) antes, a los 2, 5 y 12 meses después de la aleatorización. El costo-efectividad será calculado según tiempo trabajado (man years). Un grupo de diseño secuencial con mirada intermedia en N=235 asegurará tanto la influencia como la eficacia.

Discusión: En respuesta a la necesidad de ensayos más rigurosamente diseñados para examinar la efectividad de la Musicoterapia en los Trastornos de Espectro Autista, este estudio pragmático se propone generar resultados que serán generalizables a la práctica clínica. Al abordar la cuestión de la variación en la frecuencia del tratamiento, los resultados de esta investigación también proporcionarán información, en relación a relevancia de la frecuencia de las sesiones, con respecto a la efectividad del tratamiento.

Trial Registration: Current Controlled Trials ISRCTN78923965

¹ Traducción al español de "Randomised controlled trial of improvisational music therapy's effectiveness for children with autism spectrum disorders (TIME-A): study protocol"

Copyright © 2012 Geretsegger et al; licensee BioMed Central Ltd. This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution License (<http://creativecommons.org/licenses/by/2.0>), which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

² Grieg Academy Music Therapy Research Centre (GAMUT), Uni Health, Uni Research, Bergen, Norway Full list of author information is available at the end of the article

³ Colaboradora TIME-A de Argentina.

Antecedentes

Las dificultades o los retrasos en el desarrollo de las habilidades que conciernen a la interacción social y a la comunicación se encuentran en el núcleo de los Trastornos del Espectro Autista (TEA) [1]. Los intentos de ayudar a los niños con TEA a desarrollar habilidades significativas del lenguaje y de la comunicación social involucran una amplia variedad de enfoques diferentes. No obstante existe muy poca evidencia sobre la efectividad para la mayoría de los diversos métodos de intervención disponibles y publicados, los cuales están diseñados para mejorar la comunicación y la interacción social [2]. Se pueden encontrar algunos resultados favorables para enfoques tales como la intervención temprana del comportamiento [3,4] y la comunicación aumentativa [5]. Sin embargo si se aplican estándares metodológicamente rigurosos, estadísticamente habrá mejoras significativas en la comunicación y el lenguaje, que hasta ahora solo podía ser probada en una intervención centrada en la comunicación mediada por los padres [6], en intervenciones de la conducta mediadas por los padres [2] y en Musicoterapia [2,7]. Del mismo modo, en una revisión de los tratamientos emergentes para niños con TEA [8] incluyendo varios suplementos nutricionales, dietas, medicaciones y tratamientos no biológicos, se llegó a la conclusión de que sólo las opciones de tratamientos que alcanzaron el más alto rango en una clasificación basada en la evidencia calificada fueron la melatonina, inhibidores de la acetilcolinesterasa, naltrexona y la Musicoterapia. Considerando que los tratamientos farmacológicos, habitualmente apuntan a síntomas tales como hiperactividad, agitación, trastornos del sueño en lugar de los síntomas esenciales del TEA, esto puede causar efectos adversos [2,8], de esta forma la Musicoterapia puede ser vista como un tratamiento prometedor pero no todavía suficientemente evidenciado para

mejorar las habilidades de interacción social y comunicación dentro de los TEA. Debido a numerosas limitaciones en la calidad metodológica de los estudios previos [2], se ha llegado a la conclusión, que se necesitan con urgencia, ensayos aleatorios controlados de mayor calidad (RCTs).

La Musicoterapia tiene una larga tradición dentro de los TEA [9,10], y hay muchos informes clínicos, estudios de casos, y estudios de grupos individuales de (por ejemplo, [11-13]; para una visión general, vea [14]) los cuales sugieren que la Musicoterapia puede mejorar las habilidades de comunicación social, tales como iniciar y responder en actos comunicativos. En los últimos años, se han hecho grandes esfuerzos para que se lleven a cabo investigaciones más rigurosas en esta área. Una revisión de Cochrane que combina los resultados de tres pequeños estudios controlados de Musicoterapia en niños con TEA [7] llegó a la conclusión de que este tipo de intervención puede tener efectos positivos sobre las habilidades comunicativas de los niños con TEA, pero también indicó la limitada aplicabilidad de los resultados de los estudios a la práctica clínica, debido a la corta duración de las condiciones del tratamiento; además señaló que existe poca flexibilidad en las técnicas aplicadas en Musicoterapia.

Tras esta revisión, se llevaron a cabo algunos estudios (RCTs) que se esforzaron para mejorar la relevancia clínica de la Musicoterapia, mediante la aplicación de tratamientos de varios meses, así como procedimientos de Musicoterapia improvisacional, flexibles y centrados en el niño, realizados por musicoterapeutas entrenados [15-17].

La Musicoterapia improvisacional para niños con TEA generalmente puede ser descrita como un enfoque centrado en el niño, haciendo uso del potencial que ocurre a través del hacer música de forma

improvisacional, para generar la expresión de emociones y la vinculación social.

En lugar de trabajar las habilidades específicas de manera abstracta, la Musicoterapia improvisacional se ha destacado por su potencial para proporcionar un marco significativo que, similar a la interacción temprana madre-hijo, abarca características relevantes de la comunicación social, tales como la integración en una historia compartida de interacción, el tener una perspectiva común de atención, la toma de turnos y la existencia de una sintonía músico-emocional [15-18]. En el primero de estos RCTs más recientes en métodos de Musicoterapia centrados en el niño [15], se sugirió que la Musicoterapia improvisacional, puede facilitar las habilidades fundamentales para la interacción social de los niños con autismo y demostró que es eficaz en la mejora de los niveles más bajos de atención conjunta inicial y en responder a las propuestas de atención conjunta. A pesar de los resultados significativos de este ensayo, algunas limitaciones metodológicas tales como, su pequeño tamaño de muestra (N = 10) y gran número resultados obtenidos, limitaron la posibilidad de generalizar sus resultados. Estudios RCTs recientes con una muestra mayor N = 23 (reporte no publicado, Thompson, McFerran, y Wigram, 2011) y N = 24 [16], respectivamente; también investigaron los efectos de la Musicoterapia improvisacional, centradas en las habilidades de comunicación social en niños pequeños con TEA siendo aún muy limitadas en el tamaño de la muestra y la potencia del ensayo. Es necesaria una gran RCT pragmática, para determinar si la Musicoterapia improvisacional, mejora los síntomas esenciales de los TEA en un encuadre generalizable.

Objetivos

Los objetivos de este estudio son los siguientes:

- 1.) Determinar si la Musicoterapia es más efectiva que la atención básica estándar en la mejora de las habilidades de comunicación social en niños con TEA según lo evaluado por los médicos independientes al final del período de tratamiento.
- 2.) Determinar si la Musicoterapia es más efectiva a la atención estándar en la mejora de la respuesta social en los niños con TEA según la evaluación de los padres o tutores al final del período de tratamiento.
- 3.) Determinar si la respuesta se modifica con la variación de la intensidad del tratamiento.
- 4.) Determinar cómo las habilidades sociales y de la comunicación se desarrollan hasta el seguimiento de doce meses después del comienzo del tratamiento.

Se prevé que la capacidad social-comunicativa de los niños aumentará con el tiempo, que las habilidades comunicativas pueden ser mejores en Musicoterapia que en la atención estándar, y que a mayor frecuencia la Musicoterapia puede intensificar la mejora de las habilidades evaluadas. Evaluar las habilidades sociales y comunicativas de los participantes siete meses después de terminar el tratamiento (12 meses después de la aleatorización) dará información importante de si algún efecto en las habilidades investigadas se mantiene.

Métodos y Diseño

Participantes

El estudio incluirá a los niños que sean referidos por instituciones participantes (Hospitales, centros de desarrollo, grupos de apoyo de padres) que cumplan con los siguientes criterios:

Crterios de inclusión

- (A) Niños de 4 años; 0 a 6; 11: En el tiempo respectivo de la asignación al azar, los participantes de edades comprendidas entre 4,0 y 6,11. Dada la naturaleza de las habilidades de la comunicación social que son seleccionadas en este estudio, como algo que ocurre a principios del desarrollo, la inclusión de niños pequeños es

considerada necesaria; como será deseable que los niños vayan a la terapia sin sus padres, el rango de edad más bajo ha sido elegido basándose en la experiencia de que los niños serán usualmente capaces de ir a una terapia individual a esa edad; una razón más para establecer el límite inferior a los 4 años es que uno de los resultados de las escalas de medición (SRS, ver más abajo) está normalizado para niños de 4 años de edad, el rango de edad más alto fue elegido para poder limitar la muestra a un grupo que comparta las mismas características de la vida cotidiana en edad preescolar y/o en el tiempo del cambio de escuela.

(B) *Diagnóstico del Trastorno de Espectro Autista*: Los participantes deben tener un diagnóstico evaluado por un psiquiatra infantil o psicólogo clínico de acuerdo con los criterios del CIE-10 antes de su respectiva evaluación inicial. El diagnóstico de los participantes con TEA necesita ser reconfirmado en la evaluación inicial con el criterio diagnósticos que cumplen los niños con TEA en el Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS) [19] y en dos de los tres dominios del Autism Diagnostic Interview-revised (ADI-R) [20].

Crterios de exclusión

(A) Grave trastorno sensorial: Los niños que participan en el estudio no deben verse afectados por graves trastornos sensoriales como la ceguera o la sordera, ya que esto altera el objetivo, el curso, y la aplicación de la terapia.

(B) Experiencia previa con Musicoterapia: Los niños que hayan tenido sesiones de Musicoterapia antes de la incorporación al estudio no serán incluidos, pues sería probable que tengan una fuerte influencia en el curso de la terapia. Tanto los niños sin lenguaje verbal

como los niños que utilicen el lenguaje de señas pueden ser incluidos. Los padres o tutores deben dar consentimiento informado para que sus hijos participen en el estudio. Los participantes deben ser capaces de asistir hasta a tres sesiones semanales de Musicoterapia. En los casos en que el transporte hacia y desde los lugares donde las sesiones de Musicoterapia se llevan a cabo no sea accesible para los padres/tutores, pueden ponerse a disposición los viáticos para evitar el prejuicio o la deserción debido restricciones financieras de alguna familia.

Evaluación Base

Para apoyar el diagnóstico de Autismo y para establecer una base de la medida de resultado respectivo el (ADOS) [19] será administrado a los posibles participantes. Además, el (ADI-R) [20] será administrado a los padres o tutores para la adquisición de datos no sólo en el comportamiento observado durante la evaluación base sino también en la historia del desarrollo de cada niño, y para evitar la pérdida de especificidad [21,22]. El nivel de la capacidad cognitiva de los niños se evaluará a través de Kaufman Assesment Battery for Children (K-ABC) [23]. En los casos en que la aplicación de la K-ABC no sea posible debido a las limitaciones del niño en el cumplimiento de las respectivas exigencias de la situación de prueba, el nivel de funcionamiento cognitivo de los niños será estimado por el asesor quien indicará a cuál de las tres categorías pertenece (sin retraso mental vs retraso mental leve vs retraso mental moderado a profundo según la CIE-10 criterios) utilizando el juicio clínico. Para establecer la línea base de la medida del resultado secundario, se les pedirá a los padres que completen la Escala de Respuesta

Social (SRS) [24]. Además se registrarán los parámetros estándares demográficos (sexo, edad, lengua materna, tamaño de familia, estudios de los padres), las comorbilidades, es decir los trastornos duales, y la información sobre el tratamiento concomitante.

Intervenciones

Los participantes serán asignados aleatoriamente a uno de las siguientes tres condiciones:

- (1) Musicoterapia de alta intensidad: Sesiones de musicoterapia improvisacional en una sesión individual, tres veces por semana durante cinco meses (es decir, un total de hasta 60 sesiones, dependiendo de posibles omisiones de sesiones individuales debido a enfermedad o vacaciones), y tres sesiones de asesoramiento a los padres como una "condición la atención estándar" (una sola sesión al inicio del estudio, uno después de dos meses, y una tercera después de cinco meses).
- (2) Musicoterapia de baja intensidad: Sesiones de Musicoterapia improvisacional en una sesión individual una vez por semana por cinco meses (es decir, un total de hasta 20 sesiones), y tres sesiones de asesoramiento a los padres (al inicio del estudio, a los dos y cinco meses). sesiones de asesoramiento a los padres (al inicio del estudio, a los dos y cinco meses).
- (3) Atención base: Tres sesiones de asesoramiento a los padres (Al inicio del estudio, después de dos meses, y después de cinco meses).

Tratamiento concomitante

Cualquier tratamiento concomitante o intervenciones terapéuticas que los niños

participantes pudieran recibir fuera del ensayo serán registradas durante las sesiones de evaluación antes de la aleatorización y después de los 2, 5, y 12 meses, especificando el tipo y la cantidad o frecuencia de la intervención. Consideramos que la duración del tratamiento de cinco meses es suficiente para un desarrollo detectable en las habilidades sociales y de comunicación de los niños. Algunos de los RCT's anteriores sobre la Musicoterapia en Autismo [15-17] fueron capaces de identificar efectos con duración inferior o similar; ver también un meta-análisis de la relación dosis-efecto en la Musicoterapia [25]. Además, creemos que este marco de tiempo no debe ser demasiado largo para ser capaz de sostener la motivación de los padres o tutores para participar en el estudio.

Descripción de la Musicoterapia

La duración de las sesiones de Musicoterapia será de 30 minutos. Los terapeutas que realicen las sesiones de Musicoterapia serán musicoterapeutas capacitados (nivel de maestría o equivalente) con experiencia clínica de trabajo con niños con TEA. El enfoque de la Musicoterapia aplicada en este estudio está basado en las ideas y los principios de la Musicoterapia improvisacional [26,27], de los hallazgos de investigaciones anteriores en Musicoterapia [13,15-17,28] de la Psicología del Desarrollo [29]. La música interpretada o cantada por el terapeuta está generalmente en sintonía con el comportamiento (musical o de otro tipo) o la expresión del niño e incluye varias técnicas de improvisación para involucrar al niño y establecer contacto con el mismo. Para este fin las características musicales de la expresión del niño (pulso, ritmo, patrones melódicos o dinámicos, timbre, etc) pueden ser emuladas, reforzadas o complementas, permitiendo

así momentos de sincronización entre el niño y el terapeuta y dando a las expresiones del niño un significado pragmático en el contexto. Para permitir el desarrollo de comportamientos de la comunicación social específicos, el terapeuta también puede provocar suavemente al niño por ejemplo por el incumplimiento de expectativas o mediante el desarrollo de patrones de forma conjunta. La participación conjunta en actividades musicales y una historia compartida de interacción ofrecen oportunidades al niño para que éste desarrolle y mejore habilidades como el compartir un afecto, la atención conjunta, la imitación, la reciprocidad y la toma de turnos, las cuales están asociadas con el desarrollo posterior del lenguaje y la competencia social [30,31].

Descripción del asesoramiento a los padres

Las sesiones de orientación para los padres serán de aproximadamente 60 minutos y serán realizadas por un musicoterapeuta y / o psicólogo clínico con experiencia en el campo de los TEA. Las sesiones de asesoramiento contarán con conversaciones de apoyo comprometido, con un enfoque en las preocupaciones actuales, los problemas, las dificultades derivadas del diagnóstico del niño, de su comportamiento, y su desarrollo en el tiempo, así como también se proporcionará información sobre el TEA, el desarrollo del niño, y comunicación social relevante para las situaciones de la vida diaria de las familias.

Guía de tratamiento para la musicoterapia y el asesoramiento a los padres

La musicoterapia y las sesiones de consejería para los padres serán ambas

proporcionadas de acuerdo con una guía de tratamiento que ha sido creada para este estudio con el fin de especificar los procedimientos del tratamiento, para permitir la formación de los profesionales y para la re aplicación del tratamiento. Dentro de esta guía se indica el marco, los objetivos generales y los principios básicos de la intervención, así como ejemplificaciones. Las directrices serán administradas de forma flexible de acuerdo con los requisitos de la situación respectiva y las necesidades del paciente o los padres en el proceso de la terapia o las sesiones de consejería y sólo se puede aplicar en combinación con y confiando en la experiencia clínica del terapeuta o consejero. Si bien la guía de tratamiento ayudará a asegurar la validez y replicabilidad del ensayo, también es importante mantener la flexibilidad y la apertura a nuevos procedimientos dentro de la Musicoterapia en la práctica clínica [32]. Manteniendo un “espacio” suficiente para la adaptación flexible dentro de la guía de tratamiento de acuerdo con las conductas sociales espontáneas del niño. También asegurará que la intervención siempre se formará de una manera adaptable a las necesidades y fortalezas de cada niño, respondiendo así a la gran variabilidad de los perfiles de desarrollo presentes en los niños con Autismo. La guía de tratamiento se describirá en un documento separado.

Evaluación de la fidelidad al tratamiento

Para determinar si el tratamiento se lleva a cabo como se pretende, serán aplicadas medidas fieles de verificación de la siguiente manera: después de cada sesión, el consejero /terapeuta documentará acontecimientos significativos, los comportamientos notables del niño/padre, y las intervenciones aplicadas. Además de

estos informes individuales todas las sesiones de terapia y las consejerías serán grabadas en vídeo para permitir la evaluación realizada por evaluadores independientes [33]. Como en un RCT anterior en Musicoterapia [34], la adhesión al método y la competencia en su aplicación también será objeto de seguimiento y será sostenido a través de la supervisión clínica de musicoterapeutas/ consejeros, utilizando las notas clínicas de los terapeutas y las grabaciones de vídeo de las sesiones cuando sea necesario.

Diseño del estudio

El estudio será multicéntrico internacional a ciego simple (asesor ciego), controlado de manera aleatoria con tres brazos paralelos. Tras la inclusión en el estudio y la evaluación inicial, los participantes serán asignados a una de las condiciones de Musicoterapia o las condiciones de la atención estándar en forma individual de acuerdo a una lista de asignación al azar generada por computadora. La proporción de asignación del número de participantes posibles en los grupos de comparación será 1:1:2 de modo que el número de niños que reciben Musicoterapia sea similar al número de participantes en la condición de cuidado estándar. Para este fin, la aleatorización se hará en bloques con secuencias aleatorias de tamaños de bloque de 4 u 8 respectivamente (una lista separada para cada sitio) para evitar la posible adivinanza de algunas asignaciones. Antes de que la asignación aleatoria sea realizada, el investigador tiene que confirmar si los participantes reclutados cumplen con los criterios de admisibilidad, así estarán inscriptos formalmente. Una vez que el reclutamiento y la recolección de datos inicial están completos y el consentimiento

completo e informado de participar en el estudio por los padres/guardas ha sido obtenido, el código de aleatorización respectivo será revelado al investigador por una persona administrativa en la oficina central de la aleatorización quien no tendrá ningún contacto con los participantes. Una descripción del diseño de estudio es mostrada en la Figura 1.

Cálculo de la potencia y tamaño de la muestra

Estimación de la magnitud del efecto

Una revisión Cochrane sobre la Musicoterapia para TEA encontró magnitudes de efectos (diferencias de medias estandarizadas) de $d = 0,5$ y $0,36$ para las habilidades de comunicación gestual y verbal, respectivamente [7]. Sin embargo, estas cifras se obtuvieron a partir de estudios pequeños con poca precisión y el uso de escalas no publicadas [7]. Una estimación más precisa utilizando la escala de ADOS puede derivarse a partir del ensayo PACT [6] donde se encontró un efecto de $d = 0,24$. Ese estudio fue más similar en su diseño al presente estudio, pero utilizó una intervención conductual diferente. En resumen, una magnitud de efecto en el pequeño ($d = 0,20$) y medio ($d = 0,50$) rango pueden ser esperadas [35], lo que corresponde a un 1 a 2,5 puntos de diferencia en la escala ADOS que tiene típicamente $SD = 5$ [6]. Una medida de efecto en este rango sería clínicamente significativa, pues la escala ADOS mide los síntomas principales del TEA que son difíciles de influir con cualquier tratamiento.

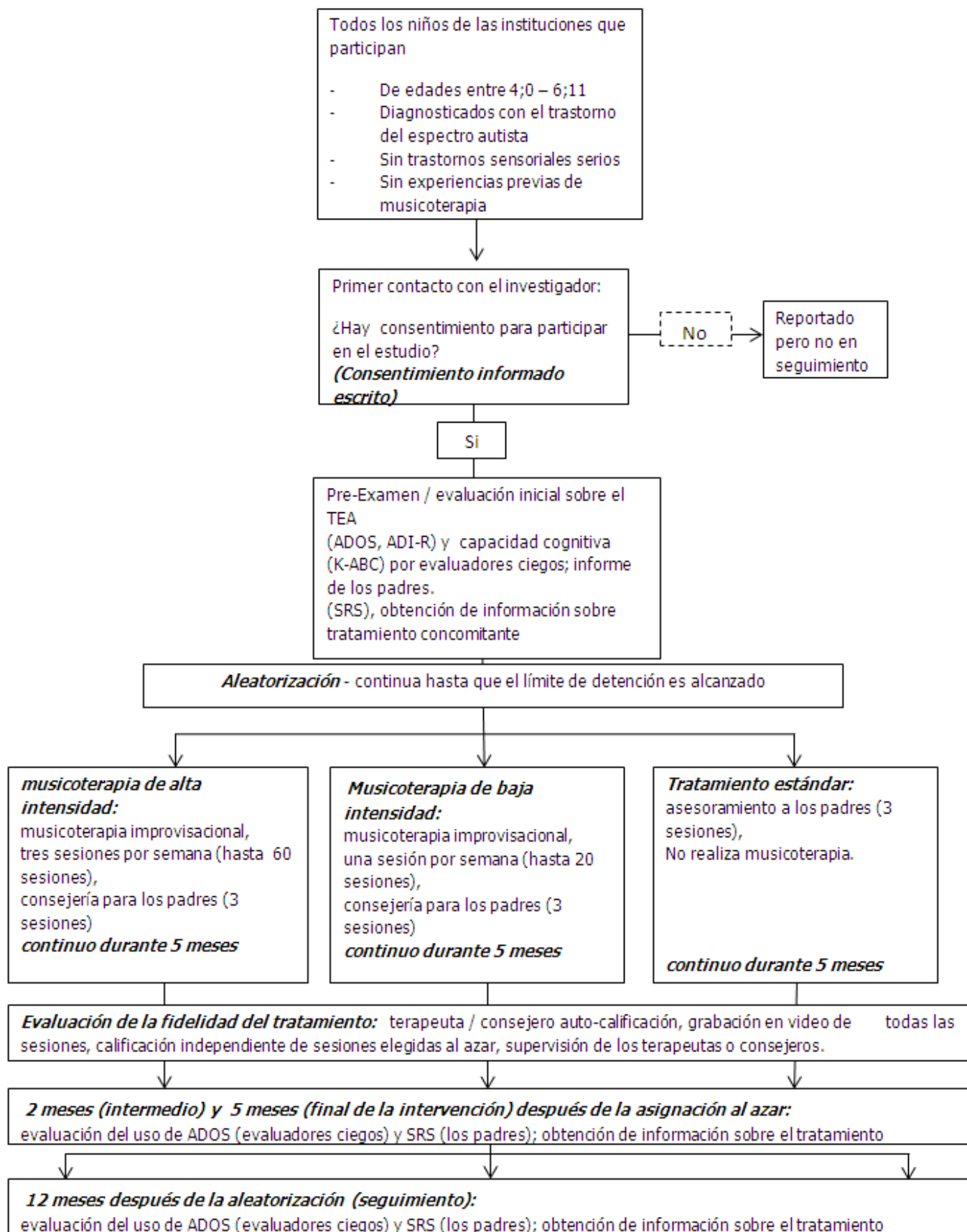


Figura 1 Diagrama de flujo de diseño del estudio. Abreviaturas: TEA – trastorno del espectro autista; ADOS - Autism Diagnostic Observation Schedule; ADI-R - Autism Diagnostic Interview-Revised; K-ABC - Kaufman Assessment Battery for Children; SRS - Social Responsiveness Scale.

Parámetros para el cálculo del tamaño de la muestra

Los dos brazos de la Musicoterapia (de alta y de baja intensidad) se tomarán juntos para el análisis primario para responder la cuestión de si la Musicoterapia en general es más efectiva a la atención estándar. La mitad de todos los participantes serán asignados a Musicoterapia. Debido a la incertidumbre en torno a la medida del efecto real y la dificultad de reclutar a grandes muestras, un diseño de grupos secuenciales (GSD, [36]) en última instancia, garantizará el 80% de potencia (dos caras alfa de 0,05), incluso para un efecto pequeño, evitando al mismo tiempo una muestra excesivamente grande si existe, de hecho, un efecto medio. Se utilizó la función común Lan-DeMet alfa y un límite de Pocock para hacer probable una detención temprana. Los cálculos y las simulaciones se hicieron para un máximo de cuatro miradas iguales, utilizando el software East 5,4 Cytel Inc., 2010.

Resultados

La Tabla 1 muestra que si hay un efecto medio de la Musicoterapia, el poder en la primera observación parcial (utilizable $N = 235$) será de 93%. La potencia también será aceptable (76%) si el efecto es ligeramente menor que la media. Si sólo hay una medida pequeña de efecto, la potencia todavía puede ser retenida por el reclutamiento de más participantes. Un Comité independiente de supervisión de datos llevará a cabo la observación parcial. Nuestro objetivo será asignar al azar a $N = 300$ participantes (150 con la atención estándar y 75 a cada tipo de Musicoterapia) para tener en cuenta posibles deserciones escolares y el agrupamiento dentro de los sitios [37]. Sin embargo, el aspecto intermedio real puede ser tomado en otra medida de muestra,

dependiendo de los avances de contratación y financiación.

Consecuencias

En el estudio se utilizarán evaluaciones realizadas por terapeutas ciegos así como informes de los padres o tutores. Las variables del resultado serán evaluados en diversos momentos: después de la evaluación inicial (que tiene lugar antes de la aleatorización de cada individuo), las medidas del resultado se volverán a aplicar después un intervalo de dos meses (nivel intermedio), una vez más después de un intervalo de cinco meses (final de la intervención) y, finalmente, en el seguimiento doce meses después de la aleatorización. De esta manera pueden cumplirse los requisitos tales como el análisis cercano del mecanismo de acción (es decir, cuánto tiempo requiere una intervención para comenzar a tener un efecto) y la investigación sobre el mantenimiento de los cambios observados durante un período más largo de tiempo [2].

Resultado primario

Para permitir la comparación de estudios investigando intervenciones similares, así como para la potencial inclusión en las revisiones posteriores, se utilizará una escala validada utilizada ampliamente en investigaciones y en la práctica académica para la evaluación de las habilidades sociales de comunicación: El (ADOS) es un instrumento semi-estructurado, de observación estandarizado diseñado para evaluar la comunicación, la interacción social y el juego o el uso imaginativo de los materiales utilizando 28 a 31 criterios específicos de comportamiento en uno de los cuatro módulos elegidos de forma individual en función del nivel de lenguaje expresivo y la edad cronológica de cada

niño respectivamente [19]. La fiabilidad entre los calificadoros, la fiabilidad del examen-re-examen, y la validación interna han sido demostradas para el ADOS [19]. El ADOS se considera especialmente adecuado para este estudio teniendo en cuenta que, aunque estandarizada, su evaluación es a base de interacciones de juego entre evaluador y el niño, por tanto, es similar en su configuración a la Musicoterapia. El resultado primario de este estudio será el algoritmo de puntuación ADOS en comunicación social que se ha utilizado como una medida de resultado en RCTs anteriores que investigaron los efectos de las intervenciones para el Autismo [6,38,39]. Con el fin de mejorar la sensibilidad al cambio, el procedimiento de puntuación será modificada como en un RCT anterior en los efectos del tratamiento [6], es decir, el módulo aplicado a cada niño será el mismo

a través de los puntos de evaluación (en lugar de ajustar el módulo a desarrollos potenciales de las habilidades de lenguaje expresivo) para evitar discontinuidad en las puntuaciones, y toda la gama de resultados sea conservada (en lugar de recodificar 3 a 2 como en el algoritmo estándar de diagnóstico) [40]. Para evitar los prejuicios en la evaluación los asesores que administren los instrumentos serán ciegos a la asignación del grupo de los niños a ser evaluados. Esto será asegurado, por ejemplo, haciendo que las evaluaciones se lleven a cabo en un lugar diferente a las sesiones de Musicoterapia. El éxito de estudio ciego será verificado mediante la interrogación a los asesores si de manera advertida o no se enteraron sobre la asignación del niño.

Tabla 1 Tamaño de la muestra y la potencia bajo diferentes escenarios

Diferencia en la escala de ADOS (SD =5)	Medida del efecto estandarizado (Cohen's d)	Potencia en la primera observación parcial/provisoria	Prueba de potencia sobre las 4 observaciones parciales/provisorias
2.5	0,5 (efecto medio)	93%	100%
2	0.4	76%	100%
1,5	0,3	47%	99%
1	0,2 (efecto pequeño)	20%	80%

Nota: Basado en 10000 simulaciones para cada escenario, N utilizable = 235 (300 aleatorizadas). N máxima utilizable= 939

Resultados secundarios

A fin de complementar la evaluación, a los padres o tutores se le pedirá que completen la Escala de Respuesta Social (SRS) [24] al inicio del estudio, a los dos, cinco, y doce meses después de la aleatorización. La escala de 65 puntos de calificación mide la gravedad de los síntomas del Espectro Autista que ocurren en contextos sociales

normales, la evaluación de la conciencia social, el procesamiento de la información social, la capacidad para la comunicación social recíproca, la ansiedad social /la evitación, y las preocupaciones y

rasgos autistas. Definidas como adecuadas para evaluar la respuesta al tratamiento [41], estas cinco subescalas parecen

apropiadas como medidas de resultado secundarias.

La escala se caracteriza por fiabilidad alta entre los calificadores y el re-testeo, así como las calificaciones de validez interna y puede ser completada en 15 a 20 minutos [42-44], por lo tanto fácilmente aplicable durante las citas. El costo-efectividad de la Musicoterapia será comparada a la atención estándar. El costo se mide con los recursos reales utilizados en el tratamiento, en término de horas del personal de trabajo. La eficacia se mide por el ADOS y las proporciones de costo-efectividad y costo-efectividad incremental para las diferentes alternativas pueden ser calculadas. Las ganancias para el sector de la atención general de salud y la sociedad serán a mayor largo plazo, y difícilmente puedan ser incluidos en este proyecto. Sin embargo algunas a consideraciones se harán en cuanto a posibles efectos sobre el rendimiento escolar. Los costos pueden ser calculados de un país a otro utilizando las medidas de paridad de poder adquisitivo.

Análisis estadísticos

El análisis primario se llevará a cabo sobre una base de intención de tratar, y se aplicarán pruebas de dos caras en un alfa de 5%. Tras la evaluación de la normalidad, los efectos del tratamiento se analizarán mediante la utilización de ecuaciones estimadas generalizadas (GEE) enfoque que permite el análisis de datos longitudinales, mientras que contabiliza la correlación entre las observaciones repetidas para cada tema [45]. El análisis GEE también se utilizará para examinar relaciones de dosis-efecto y para explorar posibles factores de efectos de confusión de sitio o de subgrupos pertinentes, tales como la edad o subtipo de los TEA.

Cuestiones éticas

El protocolo de estudio fue aprobado por la Facultad de Humanities Human Research Ethics Board (HREB) en la Universidad de Aalborg, Dinamarca. El consentimiento informado escrito libremente dado, será obtenido de los padres/guardas del participante antes de la inscripción en el estudio conforme a exigencias reguladoras. La asignación al azar de los participantes en grupos para el estudio se considera razonable ya que no se esperan efectos adversos en cualquiera de las condiciones. Las dificultades causadas por la necesidad de asistir a tres sesiones semanales de Musicoterapia para las familias asignadas a este grupo de estudio se consideran tolerables en vista de los beneficios esperados para el niño recibiendo el tratamiento.

Discusión

La alta aplicabilidad clínica de los resultados de este ensayo es la de ser lograda a través de las condiciones de la terapia que están cerca de la práctica clínica en cuanto a criterios de elegibilidad amplios (niños verbales y no verbales, de todo tipo de TEA), duración del tratamiento (varios meses), y las técnicas terapéuticas (musicoterapia improvisacional dirigida por experimentados terapeutas en un encuadre típico). Las limitaciones del estudio son también sus puntos fuertes: la ausencia de resultados próximos a la Musicoterapia [15,17]; la heterogeneidad de la atención estándar como una condición de control; y la heterogeneidad de la población [46] pueden considerarse como limitaciones pero son características que mejorarán la viabilidad y que están en línea con ensayos pragmáticos de eficacia, cuyo objetivo es ayudar a los usuarios a elegir entre las opciones [47]. Las conclusiones que se desprendan de este estudio son esperadas a contribuir a la evidencia base de las opciones de tratamiento para los niños con

TEA. Los resultados del ensayo proporcionarán evidencia sobre la eficacia de la Musicoterapia como un tratamiento para niños con TEA y también proporcionarán información sobre la pertinencia de la frecuencia de sesiones para los resultados del tratamiento. Además, los resultados obtenidos a través de la aplicación de la guía de tratamiento dentro del presente estudio pueden ayudar a especificar con mayor detalle las directrices del tratamiento de Musicoterapia para esta población así como enriquecer la futura formación y educación de los terapeutas y otros profesionales de la salud que trabajan en el campo de los TEA.

Los resultados de este estudio también serán relevantes para otros campos en los que se aplica la Musicoterapia, tales como el área de Salud Mental de adultos [10,25], y para la investigación básica de las cualidades musicales de la comunicación temprana madre-hijo proporcionando un fundamento para la Musicoterapia [18,29]. La Musicoterapia en general es una intervención que se centra en el desarrollo de habilidades sociales y emocionales, siendo éstas las dificultades centrales en los pacientes con TEA.

Acknowledgements

This trial is funded by The Research Council of Norway, programmes Clinical Research and Mental Health (Research Council of Norway project number 213982). The development of this study protocol was supported by the Department of Communication and Psychology, Aalborg University, Aalborg, Denmark (MG, UH); the Department of Applied Psychology: Health, Development, Enhancement and Intervention, Faculty of Psychology, University of Vienna, Vienna, Austria (MG); and the Grieg Academy Music Therapy Research Centre, Uni Health, Uni Research, Bergen, Norway (CG). The funding sources had no role in the study design; in the writing of the manuscript; and in

the decision to submit the manuscript for publication.

Author details

1Aalborg University, Faculty of Humanities, Department of Communication and Psychology, Aalborg Øst, Denmark. 2University of Vienna, Faculty of Psychology, Department of Applied Psychology: Health, Development, Enhancement and Intervention, Vienna, Austria. 3Grieg Academy Music Therapy Research Centre (GAMUT), Uni Health, Uni Research, Bergen, Norway.

Authors' contributions

MG and CG conceived the study and developed the study design. MG drafted the manuscript. CG did the power calculation and helped to draft the manuscript. UH contributed to the development of the study design and helped to draft the manuscript. All authors read and approved the final manuscript.

Competing interests

MG, UH, and CG are clinically trained music therapists. Received: 24 August 2011 Accepted: 5 January 2012

Published: 5 January 2012

References

1. American Psychiatric Association: Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders (DSM-IV-TR®), 4th edition, text revision Washington, DC: American Psychiatric Association; 2000.
2. Wheeler D, Williams K, Seida J, Ospina M: The Cochrane Library and autism spectrum disorder: an overview of reviews. *Evid-Based Child Health* 2008, **3**:3-15.
3. Hayward D, Eikeseth S, Gale C, Morgan S: Assessing progress during treatment for young children with autism receiving intensive behavioural interventions. *Autism* 2009, **13**:613-633.
4. Eldevik S, Eikeseth S, Jahr E, Smith T: Effects of low-intensity behavioral treatment for children with autism and mental retardation. *J Autism Dev Disord* 2006, **36**:211-224.
5. Magiati I, Howlin P: A pilot evaluation study of the Picture Exchange Communication System (PECS) for children with autistic spectrum disorders. *Autism* 2003, **7**:297-320.
6. Green J, Charman T, McConachie H, Aldred C, Slonims V, Howlin P, Le Couteur A, Leadbitter H, Byford S, Barrett B,

- Temple K, Macdonald W, Pickles A, the PACT Consortium: Parent-mediated communication-focused treatment in children with autism (PACT): a randomised controlled trial. *Lancet* 2010, **375**:2152-2160.
7. Gold C, Wigram T, Elefant C: Music therapy for autistic spectrum disorder. *Cochrane Database Syst Rev* 2006, CD004381.
8. Rossignol DA: Novel and emerging treatments for autism spectrum disorders: A systematic review. *Ann Clin Psychiatry* 2009, **21**:213-236.
9. Alvin J: *Music therapy for the autistic child* Oxford: Oxford University Press; 1978.
10. Gold C: Special section: Music therapy for people with autistic spectrum disorder (Editorial). *Nord J Music Ther* 2011, **20**:105-107.
11. Holck U: Interaction themes in music therapy - definition and delimitation. *Nord J Music Ther* 2004, **13**:3-19.
12. Schumacher K: *Musiktherapie und Säuglingsforschung. [Music therapy and infant research]* Frankfurt/Main: Peter Lang; 1999.
13. Edgerton CL: The effect of improvisational music therapy on the communicative behaviors of autistic children. *Journal of Music Therapy* 1994, **31**:31-62.
14. Wigram T, Gold C: Music therapy in the assessment and treatment of autistic spectrum disorder: clinical application and research evidence. *Child: Care, Health and Development* 2006, **32**:535-542.
15. Kim J, Wigram T, Gold C: The effects of improvisational music therapy on joint behaviors in autistic children: a randomized controlled study. *J Autism Dev Disord* 2008, **38**:1758-1766.
16. Gattino GS, Riesgo RDS, Longo D, Leite JCL, Faccini LS: Effects of relational music therapy on communication of children with autism: a randomized controlled study. *Nord J Music Ther* 2011, **20**:142-154.
17. Kim J, Wigram T, Gold C: Emotional, motivational and interpersonal responsiveness of children with autism in improvisational music therapy. *Autism* 2009, **13**:389-409.
18. Wigram T, Elefant C: Therapeutic dialogues in music: nurturing musicality of communication in children with autistic spectrum disorder and Rett syndrome. In *Communicative Musicality*. Edited by: Trevarthen C, Malloch S. Oxford: Oxford University Press; 2008:423-446.
19. Lord C, Rutter M, DiLavore P, Risi S: *Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS)* Los Angeles: Western Psychological Services; 2001.
20. Lord C, Rutter M, Le Couteur A: *Autism Diagnostic Interview-Revised: a revised version of a diagnostic interview for caregivers of individuals with possible pervasive developmental disorders*. *J Autism Dev Disord* 1994, **24**:659-685.
21. Risi S, Lord C, Gotham K, Corsello C, Chrysler C, Szatmari P, Cook EH Jr, Leventhal BL, Pickles A: Combining information from multiple sources in the diagnosis of autism spectrum disorders. *J Am Acad Child Psy* 2006, **45**:1094-1103.
22. Lord C, Storoschuk S, Rutter M, Pickles A: Using the ADI-R to diagnose autism in preschool children with autism. *Inf Mental Hlth J* 1993, **14**:234-252.
23. Kaufman AS, Kaufman NL: *Kaufman Assessment Battery for Children (K-ABC)*. Interpretive Manual Circle Pines, MN: American Guidance Service; 1983.
24. Constantino JN, Gruber CP: *Social Responsiveness Scale (SRS)* Los Angeles: Western Psychological Services; 2005.
25. Gold C, Solli HP, Krüger V, Lie SA: Dose-response relationship in music therapy for people with serious mental disorders: systematic review and meta-analysis. *Clin Psychol Rev* 2009, **29**:193-207.
26. Bruscia KE: *Improvisational models of music therapy* Springfield, IL: C.C. Thomas; 1987.
27. Wigram T: *Improvisation: Methods and Techniques for Music Therapy Clinicians, Educators and Students* New York, NY: Jessica Kingsley; 2004.
28. Kim J: *The effects of improvisational music therapy on joint attention behaviours in children with autistic spectrum disorder*. PhD thesis Aalborg University, Institute for Communication and Psychology; 2006.
29. Stern D: *Forms of vitality. Exploring dynamic experience in psychology and the arts* Oxford: Oxford University Press; 2010.
30. Mundy P, Sigman M, Kasari C: A longitudinal study of joint attention and language development in autistic children. *J Autism Dev Disord* 1990, **20**:115-128.
31. Sigman M, Ruskin E, Arbeile S, Corona R, Dissanayake C, Espinosa M, Kim N, López A, Zierhut C: Continuity and change in the social competence of children with autism, Down syndrome, and developmental delays. *Monogr Soc Res Child* 1999, **64**:1-114.

32. Rolvsjord R, Gold C, Stige B: Research rigour and therapeutic flexibility: rationale for a therapy manual developed for a randomised controlled trial. *Nord J Music Ther* 2005, **14**:15-32.
33. Gold C, Rolvsjord R, Aaro LE, Aarre T, Tjemsland L, Stige B: Resourceoriented music therapy for psychiatric patients with low therapy motivation: protocol for a randomised controlled trial [NCT00137189]. *BMC Psychiatry* 2005, **5**:39.
34. Erkkilä J, Punkanen M, Fachner J, Ala-Ruona E, Pöntiö I, Tervaniemi M, Vanhala M, Gold C: Individual music therapy for depression: randomized controlled trial. *Brit J Psychiat* 2011, **199**:132-139.
35. Gold C: The use of effect sizes in music therapy research. *Music Therapy Perspectives* 2004, **22**:91-95.
36. Pong AP, Chow SC: *Handbook of Adaptive Designs in Pharmaceutical and Clinical Development* New York, NY: Chapman and Hall/CRC, Taylor & Francis; 2011.
37. Ukoumunne OC, Gulliford MC, Chinn S, Sterne JAC, Burney PGJ: Methods for evaluating area-wide and organisation-based interventions in health and health care: a systematic review. *Health Technol Assess* 1999, **3**:5.
38. Aldred C, Green J, Adams C: A new social communication intervention for children with autism: pilot randomised controlled treatment study suggesting effectiveness. *J Child Psychol Psyc* 2004, **45**:1420-1430.
39. Owley T, McMahon W, Cook EH, Laulhere T, South M, Mays LZ, Shernoff ES, Lainhart J, Modahl CB, Corsello C, Ozonoff S, Risi S, Lord C, Leventhal BL, Filipek PA: Multisite, double-blind, placebo-controlled trial of porcine secretin in autism. *J Am Acad Child Psy* 2001, **40**:1293-1299.
40. Gotham K, Risi S, Pickles A, Lord C: The Autism Diagnostic Observations Schedule: revised algorithms for improved diagnostic validity. *J Autism Dev Disord* 2007, **37**:613-627.
41. Pine E, Luby J, Abbacchi A, Constantino JN: Quantitative assessment of autistic symptomatology in preschoolers. *Autism* 2006, **10**:344-352.
42. Constantino JN, Przybeck T, Friesen D, Todd RD: Reciprocal social behavior in children with and without pervasive developmental disorders. *J Dev Behav Pediatr* 2000, **21**:2-11.
43. Constantino JN, Todd RD: Autistic traits in the general population: a twin study. *Arch Gen Psychiat* 2003, **60**:524-530.
44. Constantino JN, Davis SA, Todd RD, Schindler MK, Gross MM, Brophy SL, Metzger LM, Shoushtari CS, Splinter R, Reich W: Validation of a brief quantitative measure of autistic traits: comparison of the Social Responsiveness Scale with the Autism Diagnostic Interview-Revised. *J Autism Dev Disord* 2003, **33**:427-433.
45. Zeger SL, Liang KY: Longitudinal data analysis for discrete and continuous outcomes. *Biometrics* 1986, **42**:121-130.
46. Spence SJ, Thurm A: Testing autism interventions: trials and tribulations. *Lancet* 2010, **375**:2124-2125.
47. Thorpe KE, Zwarenstein M, Oxman AD, Treweek S, Furberg CD, Altman DG, Tunis S, Bergel E, Harvey I, Magid DJ, Chalkidou K: A pragmatic-explanatory continuum indicator summary (PRECIS): a tool to help trial designers. *J Clin Epidemiol* 2009, **62**:464-475.

Pre-publication history

The pre-publication history for this paper can be accessed here:

<http://www.biomedcentral.com/1471-2431/12/2/prepub>