



Henry S. Roane
Cathleen C. Piazza
Gina M. Sgro
Valerie M. Volkert
The Marcus Institute, Atlanta, USA
Cynthia M. Anderson
*West Virginia University, Morgantown,
USA*

Analisi e interventi psicoeducativi sui comportamenti problema associati alla sindrome di Rett

S O M M A R I O

SCOPO: LO SCOPO DI QUESTO STUDIO ERA IDENTIFICARE LE VARIABILI IMPLICATE NEL MANTENIMENTO DEI COMPORTAMENTI PROBLEMA ASSOCIATI ALLA SINDROME DI RETT. IL VERIFICARSI DI TALI COMPORTAMENTI È COMUNEMENTE ATTRIBUITO A VARIABILI BIOLOGICHE CORRELATE AL DISTURBO. IN ALCUNI CASI, COMUNQUE, QUESTI COMPORTAMENTI HANNO DIMOSTRATO DI ESSERE SENSIBILI ALLE VARIABILI AMBIENTALI. CIONONOSTANTE, LA RICERCA RIGUARDANTE LE VARIABILI IMPLICATE NEL MANTENIMENTO DEI COMPORTAMENTI NEGATIVI E LA LORO MODIFICAZIONE PER RIDURRE EFFICACEMENTE TALI COMPORTAMENTI È SCARSA.

METODO: ABBIAMO ESEGUITO L'ANALISI FUNZIONALE DEI COMPORTAMENTI PROBLEMA ESIBITI DA DUE PERSONE DI GENERE FEMMINILE CON DIAGNOSI DI SINDROME DI RETT. IN SEGUITO ALL'ANALISI FUNZIONALE, SONO STATI SVILUPPATI DEI TRATTAMENTI PER INTERROMPERE LA RELAZIONE TRA IL COMPORTAMENTO E IL RINFORZATORE CHE LO MANTENEVA.

RISULTATI: I RISULTATI DELL'ANALISI FUNZIONALE HANNO INDICATO CHE, IN ENTRAMBI I CASI (SFREGARE LE MANI E METTERLE IN BOCCA), I COMPORTAMENTI DISADATTIVI ERANO MANTENUTI DA RINFORZO AUTOMATICO.

IL TRATTAMENTO, CHE PREVEDEVA DI INTERROMPERE LO SFREGAMENTO DELLE MANI PER UN SOGGETTO E DI IMPEDIRE DI METTERLE IN BOCCA PER L'ALTRO, HA PORTATO CAMBIAMENTI DI GRANDE RILIEVO NEI LIVELLI DEI COMPORTAMENTI PROBLEMA PRESENTATI DALLE PARTECIPANTI. QUESTI CAMBIAMENTI HANNO MOSTRATO CHE PREVENIRE L'ACCESSO AL RINFORZO AUTOMATICO RIDUCEVA LA MOTIVAZIONE A INTRAPRENDERE IL COMPORTAMENTO PROBLEMA.

CONCLUSIONI: QUESTI RISULTATI INDICANO CHE È POSSIBILE MANIPOLARE LE VARIABILI AMBIENTALI PER AGIRE SUL VERIFICARSI DEI COMPORTAMENTI PROBLEMA ASSOCIATI ALLA SINDROME DI RETT.

La sindrome di Rett è un disturbo dello sviluppo, diagnosticato quasi esclusivamente nelle persone di genere femminile, che implica la mancanza di acquisizione o la regressione generale di abilità e la manifestazione di comportamenti problema (per esempio, stereotipie con le mani). Benché la ricerca sulla sindrome di Rett sia aumentata negli ultimi 10 anni, l'eziologia di questo disturbo non è stata finora pienamente chiarita (Perry, 1991; Van Acker, 1991). L'esordio

della malattia si ha tipicamente dopo circa cinque mesi di normale sviluppo fisico. A questo punto si manifesta una varietà di sintomi: rallentamento della crescita, microcefalo, perdita dell'uso funzionale delle mani, stereotipie con le mani (per esempio sfregare le mani), mancanza di interazione con l'ambiente circostante o estraniamento da esso e perdita o non comparsa della capacità di deambulare e delle abilità di linguaggio. Questi sintomi possono anche essere accompagnati dalla perdita delle abilità acquisite precedentemente (per esempio, l'uso autonomo del bagno e abilità di comunicazione). Queste perdite danno spazio allo sviluppo di vari disturbi neurologici (per esempio, crisi epilettiche e deficit cognitivi) che complicano ulteriormente lo sviluppo (Perry, 1991).

Probabilmente la caratteristica comportamentale principale nella sindrome di Rett riguarda i movimenti ripetitivi e stereotipati delle mani, come sfregarle, morderle, farle svolazzare, metterle in bocca, graffiarsi o colpirla con le mani (Iwata et al., 1986; Wehmeyer, Bourland e Ingram, 1993). Alcuni di questi comportamenti possono essere classificati come autolesionistici perché provocano danneggiamento fisico alla persona stessa. I comportamenti autolesionistici compaiono nel 19% circa delle persone affette da un disturbo dello sviluppo (Oliver, Murphy e Corbett, 1987). In disturbi specifici dello sviluppo come la sindrome di Rett, l'incidenza di comportamenti autolesionistici è maggiore (Cataldo e Harris, 1982; Deb, 1998). Sansom et al. (1993) hanno riscontrato che approssimativamente il 49% delle persone con sindrome di Rett presenta almeno una tipologia di comportamento autolesionistico, e la maggior parte (38%) di essi implica l'uso delle mani.

La ricerca ha individuato alcuni fattori responsabili dello sviluppo e del mantenimento dei comportamenti autolesionistici: variabili genetiche (per esempio, anomalie cromosomiche – Deb, 1998), l'assenza o la presenza di determinati neurotrasmettitori (Cataldo e Harris, 1982). Il numero elevato di persone affette da sindrome di Rett che presentano stereotipie legate alle mani indica che questo comportamento potrebbe essere correlato a una disfunzione organica. Ciononostante, la ricerca sul mantenimento dei comportamenti autolesionistici mostra che non tutte le manifestazioni di tali comportamenti sono da attribuirsi interamente a cause organiche (Carr, 1977). Anche se l'eziologia originale del comportamento ha base organica è comunque possibile modificarlo attraverso approcci psicoeducativi basati sul condizionamento operante.

Secondo la teoria della contingenza operante, il comportamento si verifica in base alle conseguenze che sono state associate a esso precedentemente. La manipolazione delle conseguenze può determinare diversi effetti sul comportamento. Due procedimenti comunemente utilizzati per modificare il verificarsi di un comportamento sono il rinforzo e l'estinzione. Quando si presenta uno stimolo piacevole o se ne rimuove uno aversivo e la probabilità che il comportamento occorra in futuro aumenta, il procedimento operante prende il nome di rinforzo. Se si elimina la relazione tra la risposta e il rinforzatore la frequenza della risposta precedentemente rinforzata diminuisce (estinzione).

Secondo Carr (Perry, 1991; Van Acker, 1991), il comportamento autolesionistico sarebbe di tipo operante: egli ha presentato tre ipotesi per spiegare lo sviluppo e il mantenimento di esso. L'ipotesi del rinforzo positivo indica che il comportamento autolesionistico è mantenuto dalla presentazione di uno stimolo positivo contingentemente al comportamento stesso. Per esempio, il bambino può ricevere attenzione sociale (rimproveri o abbracci) contingentemente al mordersi la mano. Nonostante si possa ritenere che questo «calmi» o distraiga il bambino, l'attenzione può funzionare come rinforzatore, aumentando la probabilità che si verifichi il comportamento immediatamente precedente.

La seconda ipotesi operante descritta da Carr implica l'eliminazione contingente di uno stimolo aversivo (rinforzo negativo). Per esempio, una persona può iniziare il comportamento problema quando gli si chiede di terminare un compito. In risposta a questo comportamento l'educatore può reagire smettendo di fare richieste. Quindi, la persona impara che intraprendere il comportamento problema fa cessare le richieste e ciò aumenta la probabilità che questo si ripresenti in futuro.

L'ultimo meccanismo operante proposto da Carr riguarda l'autostimolazione. Questa ipotesi descrive il comportamento che si intraprende per produrre o ridurre una fonte di stimolazione indipendente dall'ambiente sociale (rinforzo automatico). Per esempio, una persona con deficit visivi può mettersi le dita negli occhi per produrre una stimolazione che può funzionare da rinforzatore. Inoltre, una persona cui dolgono le orecchie può colpirla al fine di alleviare il dolore.

Allo scopo di testare le ipotesi operanti di Carr (1977), Iwata et al. (1991) hanno sviluppato un metodo di valutazione (analisi funzionale) per identificare le relazioni funzionali tra un comportamento e gli eventi ambientali. Durante l'analisi funzionale, si presentano delle condizioni di test in cui gli antecedenti (eventi che si verificano prima del comportamento, come la presenza o l'assenza di attenzione sociale, stimoli aversivi o attività) e le conseguenze (eventi che seguono un comportamento, come il prestare attenzione ed evitare un compito o assenza di stimolazione) variano sistematicamente e si misurano i cambiamenti associati ai comportamenti problema. Ogni condizione di test è attuata per valutare un particolare rinforzatore operante.

Nella loro sperimentazione, Iwata et al. (1991) hanno notato alti livelli di comportamenti autolesionistici associati a una determinata condizione di test in sei soggetti su nove; inoltre le modalità di risposta variavano tra i partecipanti a seconda della condizione in cui era più probabile che il comportamento si manifestasse. Iwata et al. (1994) scoprirono anche che l'analisi funzionale era efficace nell'identificare la fonte di rinforzo per i comportamenti problema nel 95% dei casi. Quindi, il metodo di Iwata et al. (1999) ha dimostrato la possibilità di determinare e di controllare sperimentalmente la relazione tra antecedenti, comportamento problema e conseguenze. In questo modo è stato possibile identificare il rinforzo contingente che manteneva il comportamento disadattivo.

La ricerca recente ha mostrato che i trattamenti che si basano sull'analisi funzionale sono più efficaci di altri trattamenti comportamentali (Repp, Felce e Barton, 1988; Smith et al., 1993) o farmacologici (Didden, Duker e Korzilius, 1997). Inoltre, l'analisi funzionale è diventata una procedura standard per prescrivere i trattamenti dei comportamenti problema in quanto questi trattamenti implicano la manipolazione del rinforzatore che mantiene il comportamento stesso. Per esempio, Day et al. (1988) hanno utilizzato l'analisi funzionale al fine di sviluppare il trattamento per tre persone che presentavano comportamenti autolesionistici. Il trattamento consisteva nell'insegnare un metodo alternativo di comunicazione per accedere agli stimoli, per quanto riguarda i comportamenti mantenuti da stimoli sociali, e nel fornire forme alternative di stimolazione (musica attraverso gli auricolari) per i comportamenti mantenuti da rinforzo automatico. Quindi, Day et al. (1988) hanno mostrato come l'analisi funzionale possa portare allo sviluppo di un trattamento nel quale i risultati della valutazione siano utilizzati per identificare il rinforzatore da presentare in modo contingente a una risposta alternativa, o da eliminare in seguito a un comportamento inappropriato.

Diversamente dai comportamenti mantenuti da rinforzatori sociali, quelli mantenuti da rinforzo automatico presentano particolari difficoltà per il trattamento (Vollmer, 1994). Il motivo principale è rappresentato dal fatto che determinare la presenza del rinforzo automatico esclude alcuni rinforzatori come quelli sociali, ma non ne identifica uno specifico. Di conseguenza, lo sviluppo del trattamento può essere meno preciso in quanto i rinforzatori automatici non sono sotto il controllo del terapeuta (al contrario di rinforzatori come le lodi) e non possono essere manipolati direttamente. Inoltre, la stimolazione prodotta dal comportamento, cioè il rinforzatore, è intrinsecamente correlata alla risposta. Quindi, è possibile che la risposta stessa fornisca sempre il rinforzatore.

Relativamente pochi studi hanno investigato gli effetti dei meccanismi operanti delle stereotipie con le mani nella sindrome di Rett. Per esempio, Wehmeyer et al. (1993) hanno manipolato gli antecedenti per valutare le stereotipie con le mani in due persone con sindrome di Rett. Un soggetto si metteva le mani in bocca più frequentemente quando gli venivano fatte richieste, mentre l'altro si sfregava maggiormente le mani in assenza di stimolazione. In modo simile, Oliver et al. (1986) hanno condotto una breve valutazione delle diverse tipologie di comportamento autolesionistico presentate da un soggetto con sindrome di Rett. Questi risultati indicavano che le risposte si verificavano in seguito a circostanze antecedenti di diverso tipo, ma che i comportamenti autolesionistici erano più numerosi in condizioni di stimolazione limitata o di attenzione fisica e verbale continua. Ciononostante, in nessuno di questi studi le conseguenze associate ai comportamenti problema sono state manipolate. Quindi, anche se sono state identificate le condizioni in cui era più probabile che si verificasse il comportamento, non è stata ottenuta alcuna informazione riguardo alle conseguenze che

potevano essere manipolate per aumentare i comportamenti appropriati e per diminuire quelli che non lo erano. Nonostante questo limite, gli studi precedenti hanno mostrato che i comportamenti problema esibiti dalle persone con sindrome di Rett avrebbero potuto essere sensibili alle variabili operanti, le variabili ambientali cioè avrebbero potuto essere manipolate per aumentare o diminuire i comportamenti problema.

In uno studio di Iwata et al. (1986) le conseguenze dei comportamenti disadattivi sono state manipolate attraverso un'analisi funzionale analoga. Iwata et al. (1986) hanno dimostrato che due persone con sindrome di Rett si mordevano le mani indipendentemente dalle contingenze ambientali manipolate durante l'analisi funzionale. Ciononostante, Iwata et al. (1986) hanno mostrato che il comportamento autolesionistico diminuiva quando, durante il gioco, si presentava del cibo: in questo caso il comportamento problema necessitava solo di un breve contenimento delle mani. In altre parole, anche se non sembrava che i soggetti intraprendessero i comportamenti problema per produrre uno specifico risultato sull'ambiente, un trattamento basato sulla contingenza operante è stato efficace per ridurre il comportamento. Questi studi hanno dimostrato che, nonostante i comportamenti problema delle persone con sindrome di Rett possano essere correlati a fattori fisiologici, il loro mantenimento e la successiva riduzione possono essere influenzati da variabili operanti e psicoeducative.

Benché la ricerca abbia mostrato che i comportamenti disadattivi delle persone con sindrome di Rett possano essere sensibili alle variabili operanti, il metodo dell'analisi funzionale è stato scarsamente utilizzato per valutare e trattare questi comportamenti. Una possibile ragione è rappresentata dalla convinzione che questi comportamenti non siano sensibili o non rispondano favorevolmente alle contingenze operanti. Si noti che nonostante i comportamenti disadattivi associati alla sindrome di Rett possano avere una base biologica, si è visto che il loro verificarsi può comunque essere influenzato dalle variabili operanti. In alcune circostanze, la persona potrebbe intraprendere il comportamento problema per produrre una sorta di stimolazione nel suo ambiente e quindi aumentare la probabilità che il comportamento occorra (rinforzo automatico). In questi casi un possibile trattamento potrebbe implicare la modificazione dell'ambiente in modo tale che siano presenti forme alternative di stimolazione, oppure programmare una situazione in cui la risposta problematica non produca il rinforzo.

Lo scopo di questo studio era estendere la ricerca riguardante l'applicazione dell'analisi funzionale e degli interventi basati sulla contingenza operante per i comportamenti problema presentati dalle persone con sindrome di Rett. Inizialmente è stata condotta un'analisi funzionale, in due persone di genere femminile affette da sindrome di Rett, per determinare l'influenza delle variabili operanti (attenzione o fuga contingenti o la presentazione di attività alternative) sul verificarsi del comportamento problema.

Metodo generale

Soggetti e setting

Hanno partecipato allo studio due persone di genere femminile con diagnosi di sindrome di Rett. I genitori di entrambi i soggetti affermavano che le loro figlie avevano raggiunto uno sviluppo normale fino all'età di 18 mesi, momento in cui le abilità precedentemente acquisite avevano incominciato a regredire. Al momento del ricovero, le partecipanti non erano in grado di svolgere autonomamente le routine di cura personale (per esempio, mangiare, vestirsi e utilizzare il bagno), non avevano la capacità di deambulare e presentavano un ciclo del sonno irregolare. Inoltre, entrambe mostravano un funzionamento cognitivo che si collocava tra il ritardo mentale grave e quello profondo. Entrambe le pazienti sono state ricoverate in un centro residenziale specializzato per il trattamento dei disturbi gravi del comportamento.

Elise (23 anni) presentava diagnosi di sindrome di Rett con ritardo mentale profondo ed era stata ricoverata per la valutazione e il trattamento del comportamento di sfregarsi le mani. Lily (14 anni) era affetta da ritardo mentale profondo e sindrome di Rett. Il comportamento problema principale di Lily consisteva nel mettersi le mani in bocca e, poiché ciò provoca dei danni fisici, era considerato un comportamento autolesionistico.

Tutte le sessioni si sono svolte in una stanza per la terapia delle dimensioni di 3 m x 3 m situata nel centro residenziale. Tutte le sessioni duravano 10 minuti e venivano condotte 5 volte alla settimana. Ogni giorno i soggetti partecipavano a un numero di sessioni che era compreso tra 8 e 10. I comportamenti problema che non erano obiettivo del trattamento, come piangere, venivano ignorati all'interno di ogni condizione.

Misurazioni delle risposte e accordo tra osservatori

I comportamenti da trattare sono stati definiti individualmente per ogni partecipante. Lo sfregamento delle mani (Elise) è stato definito come l'afferrare o lo stringere forte le mani o le braccia. Il mettersi le mani in bocca (Lily) è stato definito come il portare almeno un dito oltre le labbra. I dati per lo sfregamento delle mani di Elise sono stati raccolti utilizzando una misura della durata, ottenuta dividendo il numero di secondi nei quali si manifestava il comportamento per la durata della sessione espressa in secondi, in modo tale da disporre di una percentuale della sessione in cui si verificava il comportamento bersaglio del trattamento. Per i comportamenti autolesionistici di Lily, i dati della frequenza sono stati convertiti in una misura della media, dividendo il numero delle risposte osservate per la durata di ogni sessione espressa in secondi, in modo tale da ottenere il numero delle risposte che occorre al minuto.

I dati per calcolare l'accordo tra osservatori sono stati raccolti durante una porzione di ogni fase. Due osservatori seduti dietro a uno specchio unidirezionale hanno raccolto indipendentemente i dati per l'accordo relativamente al verificarsi dei comportamenti problema di ogni partecipante. L'esatto coefficiente di accordo è stato calcolato dividendo il numero degli intervalli di 10 secondi in cui si manifestava l'accordo (sulla presenza e sull'assenza dei comportamenti) per il numero totale degli intervalli di 10 secondi e moltiplicando per 100%. I dati per il calcolo dell'accordo tra osservatori sono stati raccolti durante il 27,4% delle sessioni di analisi funzionale e durante il 42,9% delle sessioni di valutazione del trattamento. La media degli accordi durante l'analisi funzionale era del 96,2% (gamma, 90,2%-100%) per Elise e del 95,2% (gamma, 85,2%-100%) per Lily. L'esatto coefficiente medio durante il trattamento era dell'83,7% (gamma, 49,2%-96,7%) per Elise e del 98,2% (gamma, 74,1%-100%) per Lily.

Studio 1 Analisi funzionale

Procedimento

L'analisi funzionale, con un approccio simile a quello di Iwata et al. (1994), è stata condotta per entrambe le partecipanti al fine di identificare le variabili operanti responsabili del mantenimento dei comportamenti problema. Nella condizione di attenzione, erano disponibili degli oggetti classificati precedentemente come poco graditi e un terapeuta svolgeva altre attività. Contingentemente al verificarsi di ogni comportamento problema, il soggetto riceveva un breve rimprovero: «Non fare così. Ti farai male». Lo scopo di questa condizione era accertare se i comportamenti negativi venissero esibiti al fine di ricevere attenzione dall'adulto (rinforzo sociale positivo).

Nella condizione di fuga i soggetti erano seduti a un tavolo mentre un terapeuta faceva loro richieste di tipo scolastico o di autonomia utilizzando un procedura di prompting a tre fasi (prompt verbali, gestuali e fisici a 5 secondi di distanza l'uno dall'altro). Si concedeva un periodo di fuga della durata di 30 secondi contingentemente a ogni comportamento problema. Questa condizione è stata organizzata per capire se il comportamento fosse mantenuto dal rinforzo negativo (fuga dal compito).

Nella condizione di deprivazione, i soggetti sono stati osservati in assenza di altre persone e di stimoli. Non sono state programmate conseguenze da fare seguire al comportamento problema. Lo scopo di questa condizione era determinare se il comportamento persistesse indipendentemente dalle conseguenze sociali in un ambiente asettico (rinforzo automatico).

Nella condizione di gioco, il soggetto aveva accesso agli stimoli preferiti e veniva elargita attenzione sociale ogni 30 secondi; inoltre non si facevano richie-

ste e tutti i comportamenti problema venivano ignorati. Questa condizione fungeva da controllo per le altre in quanto le partecipanti avevano libero accesso agli stimoli preferiti, l'attenzione sociale era presente in abbondanza e non veniva fatta nessuna richiesta spiacevole.

Risultati e discussione

Il grafico in alto della figura 1 mostra i risultati dell'analisi funzionale per quanto riguarda Elise. Lo sfregare le mani si verificava quasi continuamente in tutte le condizioni di test, le medie erano: 97,6% della sessione nella condizione di gioco, 98,2% in quella di attenzione, 90,5% in quella di fuga, 90,1% in quella di solitudine). Questi risultati indicano che i comportamenti di Elise occorreivano indipendentemente dall'influenza ambientale. Sembrava cioè che lo sfregare le mani di Elise fosse mantenuto da rinforzo automatico, in altre parole questo comportamento produceva o alleviava una stimolazione.

I risultati dell'analisi funzionale di Lily sono raffigurati nel grafico in basso della figura 1. Quantità elevate e variabili del comportamento di mettere le mani in bocca erano presenti in tutte le condizioni. Le medie erano le seguenti: 4,9 nella condizione di attenzione, 4,2 in quella di gioco, 3,8 in quella di fuga e 2,3 in quella di deprivazione. La mancanza di differenza significativa nei risultati di Lily indicava che anche i suoi comportamenti problema erano mantenuti da rinforzo automatico.

I risultati dell'analisi funzionale indicano che i comportamenti problema delle due partecipanti sembravano essere mantenuti da rinforzo automatico. Nello specifico, i comportamenti disadattivi di Elise e di Lily erano presenti in tutte le condizioni, indipendentemente dalle manipolazioni ambientali.

Come menzionato precedentemente, il comportamento mantenuto dal rinforzo automatico presenta alcune difficoltà per il trattamento, in quanto la risposta è direttamente correlata al rinforzatore che la mantiene. Dato che i comportamenti rinforzati automaticamente producono il loro stesso rinforzo, un trattamento utilizzato è quello di interrompere la relazione tra la risposta e il rinforzatore. Per esempio, Piazza et al. (1996) hanno intrapreso un trattamento di questo tipo per la pica di un giovane che ingeriva sigarette. I risultati dell'analisi funzionale indicavano che il comportamento era mantenuto da rinforzo automatico. Quindi, il trattamento consisteva nell'impedire l'ingestione dei mozziconi di sigaretta. L'intervento è stato in grado di ridurre la pica a livelli prossimi allo zero. Si è ipotizzato che la riduzione nel comportamento fosse correlata all'eliminazione della relazione risposta-rinforzatore. In altre parole, il rinforzo non durava a lungo perché la risposta (l'ingestione di mozziconi di sigaretta) che solitamente lo produceva non si verificava. Quindi, è stato impedito l'accesso al rinforzatore che portava all'ingestione di sigarette.

Considerando i risultati dell'analisi funzionale e di altre ricerche, nello studio 2 abbiamo valutato l'efficacia dell'interruzione della risposta (sopprimere la relazione risposta-rinforzatore) sulle stereotipie autolesive con le mani presentate dalle due pazienti.

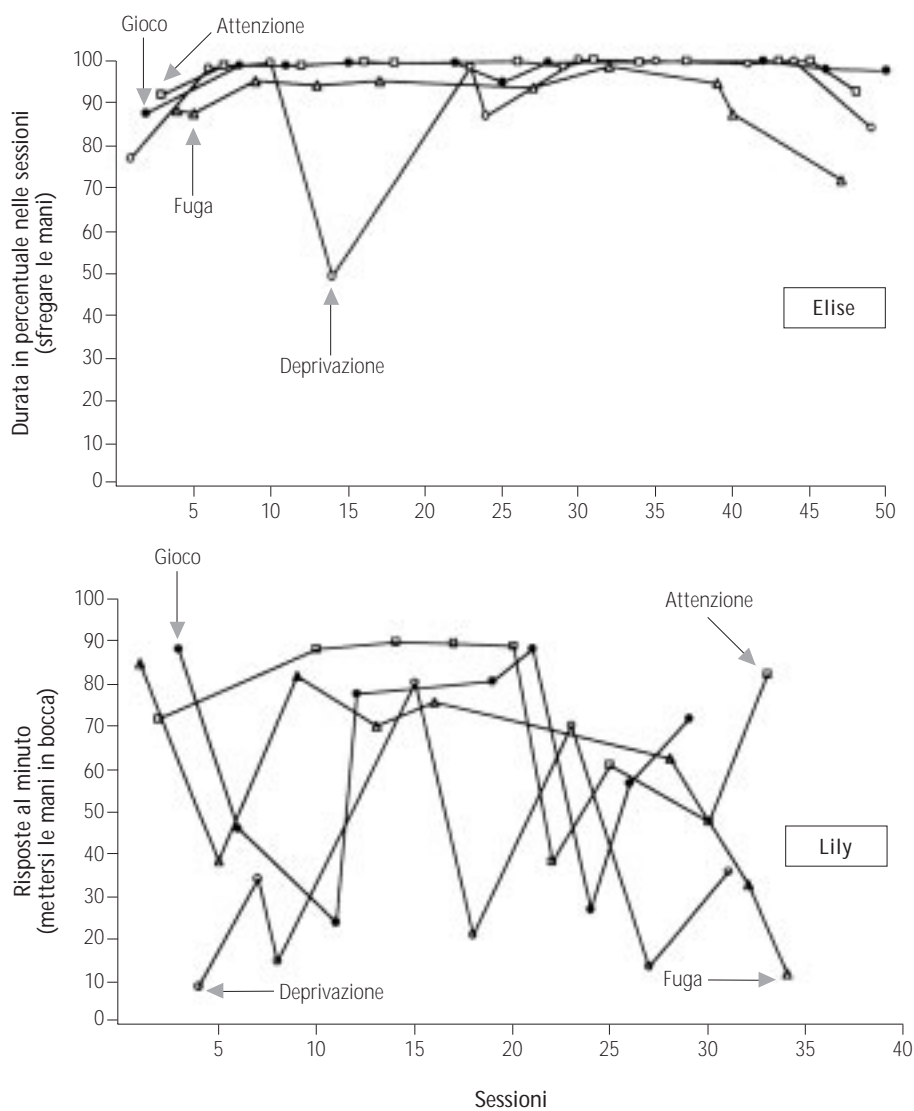


Fig. 1 Il grafico in alto mostra, in percentuale, la durata del comportamento di sfregare le mani presentato da Elise durante le sessioni. Il grafico in basso mostra il numero di volte al minuto in cui Lily si è messa le mani in bocca durante l'analisi funzionale.

Studio 2 Valutazione degli interventi psicoeducativi per ridurre i comportamenti problema

Procedimento

Le partecipanti sono state sottoposte a trattamenti differenti; benché fossero simili in quanto sono stati introdotti nella/e condizione/i in cui era più probabile che il comportamento problema si verificasse. I trattamenti specifici sono descritti in seguito.

Elise

La valutazione dell'intervento per Elise è stata condotta tramite un disegno a trattamenti combinati inversi (ABACD) e alternati. Le sessioni di linea di base erano identiche a quelle della condizione di gioco dell'analisi funzionale (Elise aveva accesso non contingente agli stimoli preferiti e all'attenzione degli adulti). Si sottolinea che la fase iniziale di linea di base per la valutazione del trattamento di Elise coincideva con la condizione di gioco della sua analisi funzionale.

In generale, la preparazione del trattamento per Elise era identica alla condizione di gioco dell'analisi funzionale. Nella prima fase del trattamento, è stato applicato un procedimento «Giù le mani» in modo contingente al verificarsi del comportamento problema. Questo procedimento consisteva nel pronunciare la frase: «Giù le mani, Elise» da parte del terapeuta, il quale contemporaneamente portava le mani della ragazza parallele alle sue anche per 20 secondi. Nella seconda fase dell'intervento, è stato applicato un disegno a trattamenti alternati, in cui è stata analizzata un'altra condizione (rinforzo differenziale dei comportamenti incompatibili [RDI]). In questa condizione, abbiamo valutato l'efficacia di una risposta incompatibile (premere un pulsante). Premendo il pulsante si attivavano una cassetta musicale o un ventilatore (oggetti determinati come i più graditi attraverso la valutazione delle preferenze) (Fisher et al., 1992); questi oggetti si attivavano solamente nel periodo in cui il pulsante restava premuto. Questa condizione si alternava a quella della frase: «Giù le mani». Nella fase finale della valutazione il procedimento «Giù le mani» veniva mantenuto e si aggiungeva la condizione RDI contingentemente allo sfregare le mani.

Lily

L'intervento per Lily è stato condotto attraverso un disegno a trattamenti combinati inversi (ABAB) e alternati. Si sono svolte due condizioni separate di linea di base (basate sulle condizioni di attenzione sociale e di gioco dell'analisi funzionale). Inoltre, durante la valutazione del trattamento, si alternavano sessioni individuali di fuga e di deprivazione con le condizioni di linea di base. Queste condizioni si susseguivano per valutare il grado di generalizzazione del

trattamento ad altri setting sperimentali. L'ipotesi era che si sarebbero osservati gli effetti dell'intervento solamente nelle condizioni in cui era stato introdotto il trattamento (la generalizzazione del trattamento non si sarebbe verificata nelle condizioni non programmate). Si sottolinea che i dati delle condizioni iniziali di linea di base e delle prime otto sessioni di fuga e di solitudine sono stati raccolti durante la prima analisi funzionale. Il trattamento introdotto nelle condizioni di attenzione e di gioco consisteva nell'applicazione del procedimento «Giù le mani» per la durata di 5 secondi. Questo procedimento era identico a quello descritto per Elise, con la sola differenza che la mano di Lily veniva trattenuta per 5 secondi contingentemente a ogni tentativo di mettersi le mani in bocca (ogni volta che Lily portava le mani alla bocca).

Risultati e discussione

Elise

La figura 2 mostra i risultati della valutazione del trattamento condotta per Elise. L'introduzione del procedimento «Giù le mani» ha prodotto una riduzione immediata dei comportamenti in confronto alla linea di base. Nella seconda linea di base si sono verificati livelli di risposta simili a quelli nella prima. Ricerche precedenti (Van Acker, 1991; Iwata et al., 1986) hanno dimostrato che l'es-

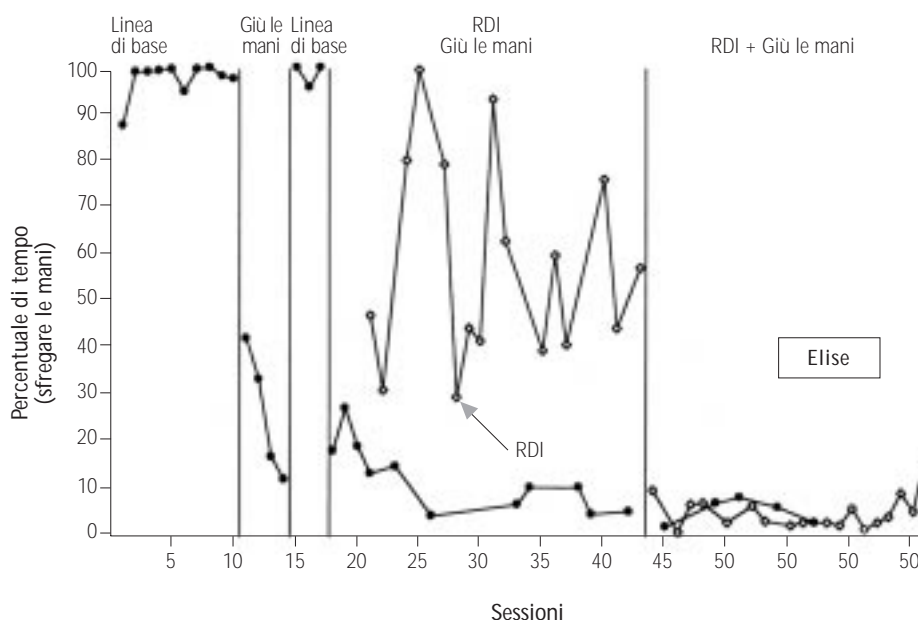


Fig. 2 Percentuale di tempo in cui Elise sfregava le mani durante il trattamento.

sere impegnati in una risposta incompatibile può ridurre i comportamenti rinforzati automaticamente. Quindi si è ipotizzato che lo sfregare le mani di Elise potesse diminuire qualora le venisse fornito l'accesso a item attivabili premendo un pulsante (RDI). Anche se l'RDI aveva ridotto leggermente il comportamento di sfregare le mani, tale comportamento persisteva in questa condizione. Quindi, nella fase finale la componente «Giù le mani» è stata aggiunta al procedimento di RDI. Si sono verificati effetti simili con il procedimento «Giù le mani» e con quello «Giù le mani» + RDI. Ciononostante, dato che il procedimento «Giù le mani» + RDI ha determinato una probabilità maggiore che i comportamenti appropriati occorressero, si è scelto questo trattamento per Elise. La durata media dello sfregarsi le mani per ogni condizione dell'analisi del trattamento era la seguente: linea di base, media = 97,5%; RDI, media = 54,3%; «Giù le mani», media = 12,8%; RDI + «Giù le mani», media = 4,7%.

Lily

La figura 3 mostra i risultati dell'analisi del trattamento condotta per Lily durante le condizioni di attenzione e di gioco (grafico in alto). In entrambe le condizioni la ragazza si metteva le mani in bocca con un'alta frequenza. Quando è stato introdotto il procedimento «Giù le mani» per 5 secondi il comportamento problema è diminuito. La seconda linea di base ha indicato un miglioramento nella frequenza delle risposte rispetto a quella iniziale. Infine, l'introduzione per la seconda volta del trattamento «Giù le mani» ha portato alla soppressione del comportamento problema registrato durante la linea di base. Sono state osservate riduzioni sostanziali del comportamento di mettere le mani in bocca nelle condizioni di trattamento (medie = 1,1 per la condizione di attenzione e 0,5 per quella di gioco) rispetto a quelle di linea di base (medie = 4,7 per la condizione di attenzione e 4,0 per quella di gioco). Il grafico in basso della figura 3 rappresenta la frequenza del comportamento di mettere le mani in bocca durante le condizioni di fuga e di deprivazione per Lily. Benché il trattamento fosse stato introdotto simultaneamente nelle condizioni di attenzione e di gioco, il comportamento di mettersi le mani in bocca si è mantenuto durante le condizioni di fuga (media = 3,8) e di deprivazione (media = 2,3). Quindi, questi dati supportano ulteriormente l'efficacia dell'intervento «Giù le mani» per ridurre la frequenza del comportamento problema.

Discussione generale

La sindrome di Rett è un disturbo dello sviluppo che può avere effetti deleteri sulle autonomie di cura personale. Per questa ragione, i trattamenti efficaci per la riduzione della frequenza dei comportamenti problema sono indispensabili per la riabilitazione e lo sviluppo di abilità adattive. Questo studio è stato con-

dotto per associare una tecnica di valutazione utilizzata comunemente, l'analisi funzionale, allo sviluppo di un trattamento basato sulla contingenza operante per ridurre i comportamenti problema.

Benché sia innegabile che la sindrome di Rett predisponga i fattori per il verificarsi dei comportamenti disadattivi, i risultati di questo studio corroborano quelli di altri ricercatori riguardanti il fatto che i comportamenti problema associati alla sindrome in questione possano essere influenzati e controllati at-

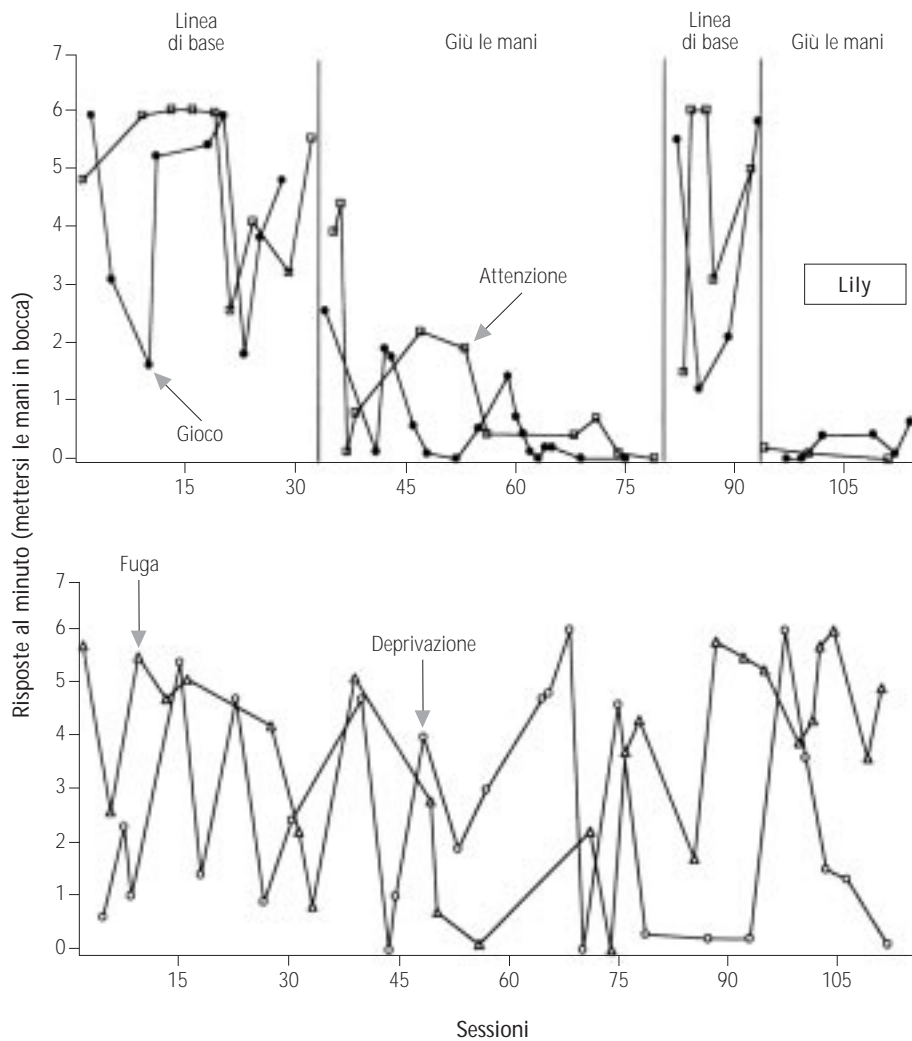


Fig. 3 Numero di volte al minuto in cui Lily si metteva le mani in bocca durante il trattamento (grafico in alto) e le sessioni di linea di base nelle condizioni di fuga e di deprivazione (grafico in basso).

traverso l'applicazione di variabili operanti (Iwata et al., 1986; Oliver et al., 1986; Wehmeyer, Bourland e Ingram, 1993). Specificamente, nella nostra ricerca i comportamenti problema dei due soggetti sembravano essere mantenuti da rinforzo automatico (la risposta produceva il rinforzatore che la manteneva). Una modalità per impedire il rinforzo dei comportamenti mantenuti da rinforzo automatico è evitare che la risposta venga completata (per esempio bloccare la mano prima che sia portata alla bocca). Quindi, il trattamento presentato in questo studio consisteva nello scindere la relazione risposta-rinforzatore interrompendo (sfregare le mani per Elise) o impedendo (mettere le mani in bocca per Lily) il verificarsi del comportamento. Impedendo il comportamento, presumibilmente, abbiamo eliminato l'accesso al rinforzo producendo quindi riduzioni del comportamento problema.

L'introduzione del trattamento ha portato a cambiamenti molto rilevanti nei livelli dei comportamenti problema per entrambe le partecipanti. Questi cambiamenti indicano che impedire l'accesso al rinforzo ha ridotto la motivazione a intraprendere i comportamenti problema. Al contrario, quando il comportamento era consentito nelle condizioni in assenza di trattamento (condizioni di linea di base e di RDI per Elise, di fuga e di deprivazione per Lily), la sua frequenza rimaneva elevata. Di conseguenza, il semplice presentare attività alternative (giocare o premere un pulsante per Elise e fornire istruzioni per Lily) non è stato sufficiente per portare i comportamenti problema a livelli clinicamente accettabili.

I risultati di questo studio sono un importante contributo per la letteratura sulla sindrome di Rett sotto diversi punti di vista. Primo, questi dati mostrano che è stato possibile analizzare i comportamenti associati alla sindrome di Rett in un contesto di contingenza a tre termini (antecedenti, comportamento, conseguenze). Due delle ricerche citate precedentemente avevano mostrato che i comportamenti associati alla sindrome di Rett erano influenzati diversamente da antecedenti specifici; ciononostante, in nessuno di questi studi erano stati valutati gli effetti delle conseguenze (Oliver et al., 1986; Wehmeyer, Boulard e Ingram, 1993). Quindi, le evidenze sperimentali riguardanti il funzionamento specifico del comportamento erano limitate. Al contrario, la nostra ricerca ha analizzato il comportamento considerando gli antecedenti e le conseguenze e questo ha permesso di ottenere una chiara comprensione del suo funzionamento. Questi dati rappresentano anche un progresso nell'analisi di trattamenti efficaci per la sindrome di Rett. Nello specifico, gli effetti del trattamento sono stati analizzati attraverso valutazioni ripetute in una condizione e una singola valutazione in un'altra condizione (Elise) e valutazioni ripetute nelle condizioni di test multiple (Lily). In tutte le condizioni, un procedimento basato sulla contingenza operante (Giù le mani) ha ridotto drasticamente i livelli dei comportamenti problema.

Un limite di questo studio è rappresentato dal fatto che non ci sono stati cambiamenti significativi nelle condizioni in cui non era presente il trattamento

(condizione di RDI per Elise e condizioni di fuga e di deprivazione per Lily). Questi dati indicano che è fondamentale interrompere la relazione risposta-rinforzatore in tutte le condizioni per ridurre i comportamenti problema. Se il rinforzo viene fornito a intermittenza (per esempio, durante le condizioni di RDI, fuga e deprivazione di questa valutazione), è probabile che il comportamento persista (Skinner, 1953). Questo è di particolare importanza quando il comportamento è mantenuto da rinforzo automatico in quanto è il verificarsi stesso della risposta che controlla l'accesso al rinforzo. Quindi, è possibile che il comportamento non sia stato ridotto allo zero durante il trattamento perché le partecipanti continuavano a ricevere rinforzo a intermittenza fuori dalle condizioni di trattamento e questo potrebbe averle motivate a emettere il comportamento durante l'intervento.

Un altro limite è rappresentato dal fatto che, nonostante l'analisi funzionale abbia permesso di escludere alcuni rinforzatori mediati socialmente, non è stata in grado di determinare le fonti specifiche di stimolazione (per esempio, stimolazione tattile) che fungevano da rinforzo automatico. Inoltre, è possibile che l'assenza di differenza per quanto riguarda i risultati osservati nell'analisi funzionale possa essere attribuita ad altri fattori (per esempio, effetti di interazione).

La ricerca futura dovrebbe seguire diverse direzioni. Principalmente, la ricerca futura dovrebbe valutare più rigorosamente l'efficacia di interventi basati esclusivamente sull'analisi funzionale. Dovrebbe essere posta maggiore enfasi sull'incremento di abilità alternative appropriate. I dati dell'analisi funzionale dovrebbero essere utilizzati per identificare i rinforzatori da utilizzare per l'acquisizione di comportamenti appropriati sostitutivi. Per esempio, Piazza et al. (1993) hanno incrementato le abilità funzionali delle mani (reggere le posate durante i pasti e alimentarsi autonomamente) e ridotto le stereotipie inappropriate con le mani attraverso l'uso di strategie basate sul rinforzo operante. Di conseguenza, Piazza et al. hanno dimostrato la possibilità di migliorare l'uso funzionale delle mani in persone con sindrome di Rett.

Anche i risultati osservati nella fase di RDI per Elise indicano che i trattamenti basati sul rinforzo possono contribuire all'eliminazione del comportamento problema. In altre parole, fornire a Elise un'alternativa o un'attività incompatibile ha ridotto il comportamento negativo in una certa misura, benché questa diminuzione non fosse clinicamente accettabile. Alcune attività di stimolazione potrebbero essere più efficaci nel competere con i comportamenti problema presentati dalle persone con sindrome di Rett. Di conseguenza, la ricerca futura dovrebbe condurre in modo più sistematico valutazioni delle preferenze per individuare attività sostitutive (Fisher et al., 1992; Piazza et al., 1996). Per esempio, Piazza et al. (1998) hanno eseguito una valutazione delle preferenze nella quale venivano forniti vari tipi di stimoli a persone che mostravano comportamenti autolesionistici rinforzati automaticamente. Ogni stimolo era associato a livelli differenti di comportamento autolesionistico. Gli stimoli associati a eleva-

ti livelli di interazione e a bassi livelli di comportamento problematico erano più efficaci nel trattamento. Allo stesso modo, le valutazioni di preferenza potevano essere condotte per identificare gli stimoli in grado di competere con il verificarsi dei comportamenti disadattivi presentati dalle persone con sindrome di Rett.

La ricerca futura dovrebbe inoltre cercare di identificare le fonti specifiche di rinforzo automatico ottenute dal comportamento problematico delle persone con sindrome di Rett. Piazza et al. (1998), per esempio, hanno utilizzato una combinazione di procedimenti per determinare la natura della stimolazione orale (specificamente la stimolazione orale ottenuta da oggetti duri) nel comportamento di pica rinforzato automaticamente in tre soggetti. Un procedimento simile potrebbe essere condotto per identificare la fonte di rinforzo associata alle stereotipie con le mani nelle persone con sindrome di Rett. Infine, la ricerca futura dovrebbe seguire le indicazioni di studi precedenti (Piazza, Fisher e Moser, 1991) per valutare l'applicazione dei principi del condizionamento operante nell'attenuazione di altre difficoltà comportamentali (per esempio, sonno, alimentazione, uso del bagno) presentati da persone con sindrome di Rett.

— TITOLO ORIGINALE —

Analysis of aberrant behaviour associated with Rett syndrome. Tratto da «Disability and Rehabilitation» vol. 23, n. 3/4, 2001. © Taylor & Francis Ltd. Pubblicato con il permesso dell'editore. Traduzione italiana di Costanza Colombi.

Bibliografia

- Carr E.G. (1977), *The origins of self-injurious behaviour: A review of some hypotheses*, «Psychological Bulletin», n. 84, pp. 800-816.
- Cataldo M.F. e Harris J. (1982), *The biological basis for self-injury in the mentally retarded*, «Analysis and Intervention in Developmental Disabilities», n. 2, pp. 21-39.
- Day R.M., Rea J.A., Schussler N.G., Larsen S.E. e Johnson W.L. (1988), *A functionally based approach to the treatment of self-injurious behaviour*, «Behaviour Modification», n. 12, pp. 565-589.
- Deb S. (1998), *Self-injurious behaviour as part of genetic syndromes*, «British Journal of Psychiatry», n. 172, pp. 385-388.
- Didden R., Duker P.C. e Korzilius H. (1997), *Meta-analytic study on treatment effectiveness for problem behaviours with individuals who have mental retardation*, «American Journal of Mental Retardation», n. 101, pp. 387-399.
- Fisher W.W., Piazza C.C., Bowman L.G., Hagopian L.P., Owens J.C. e Slevin I. (1992), *A comparison of two approaches for identifying reinforcers for persons with severe to profound disabilities*, «Journal of Applied Behaviour Analysis», n. 25, pp. 491-498.
- Iwata B.A., Dorsey M.F., Slifer K.J., Bauman K.E. e Richman G.S. (1994), *Toward a functional analysis of self-injury*, «Journal of Applied Behaviour Analysis», n. 27, pp. 197-209. (Reprinted from «Analysis and Intervention in Developmental Disabilities», 1982, n. 2, pp. 3-20.)
- Iwata B.A., Pace G.M., Dorsey M.F., Zarcone J.R., Vollmer T.R., Smith R.G., Rodgers T.A., Lerman D.C., Shore B.A., Mazaleski J.L., Goh H., Cowdery G.E., Kalsher M.J., McCosh K.C. e Willis K.D. (1994), *The functions of self-injurious behaviour: An experimental-epidemiological analysis*, «Journal of Applied Behaviour Analysis», n. 27, pp. 215-240.
- Iwata B.A., Pace G.M., Willis K.D., Gamache T.B. e Hyman S.L. (1986), *Operant studies of self-injurious hand biting in the Rett syndrome*, «American Journal of Medical Genetics», n. 24, pp. 157-166.
- Mace F.C. (1994), *The significance and future of functional analysis methodologies*, «Journal of Applied Behaviour Analysis», n. 27, pp. 384-392.
- Naidu S., Hyman S., Piazza K., Savedra J., Perman J., Wenk G., Kitt C., Troncoso J., Price D., Cassanova M., Miller D., Thomas G., Niedermeyer E. e Moser H.W. (1990), *The Rett syndrome: Progress report on studies at the Kennedy Institute*, «Brain and Development», n. 12, pp. 5-7.
- Oliver C., Murphy G.Y. e Corbett J.A. (1987), *Self-injurious behaviour in people with mental handicap: A total population study*, «Journal of Mental Deficiency Research», n. 31, pp. 147-162.
- Oliver C., Murphy G., Crayton L. e Corbett J. (1986), *Self-injurious behaviour in Rett syndrome: Interactions between features of Rett syndrome and operant conditioning*, «Journal of Autism and Developmental Disabilities», n. 23, pp. 91-109.
- Perry A. (1991), *Rett syndrome: A comprehensive review of the literature*, «American Journal of Mental Retardation», n. 96, pp. 275-290.
- Piazza C.C., Anderson C.M. e Fisher W.W. (1993), *Teaching self-feeding skills to patients with Rett syndrome*, «Developmental Medicine and Child Neurology», n. 35, pp. 991-996.

- Piazza C.C., Fisher W.W. e Moser H.W. (1991), *Behavioural treatment of sleep dysfunction in patients with the Rett syndrome*, «Brain and Development», n. 13, pp. 232-237.
- Piazza C.C., Fisher W.W., Hanley G.P., Hilker K. e Derby K.M. (1996), *A preliminary procedure for predicting the positive and negative effects of reinforcement-based procedures*, «Journal of Applied Behaviour Analysis», n. 29, pp. 137-152.
- Piazza C.C., Fisher W.W., Hanley G.P., LeBlanc L.A., Worsdell A.S., Lindauer S.E. e Keeney K.M., (1998), *Treatment of pica through multiple analyses of its reinforcing functions*, «Journal of Applied Behaviour Analysis», n. 31, pp. 165-189.
- Piazza C.C., Hanley G.P. e Fisher W.W. (1996), *Functional analysis and treatment of cigarette pica*, «Journal of Applied Behaviour Analysis», n. 29, pp. 437-450.
- Repp A.C., Felce D. e Barton L.E. (1988), *Basing the treatment of stereotypic and self-injurious behaviour on hypotheses of their causes*, «Journal of Applied Behaviour Analysis», n. 21, pp. 281-289, trad. it. *Stereotipie e autolesionismo: dall'analisi funzionale alla scelta del trattamento*. In D. Ianes (a cura di), *Autolesionismo, stereotipie, aggressività*, Trento, Erickson, 1992, pp. 63-79.
- Sansom D., Krishnan V.H.R., Corbett J. e Kerr A. (1993), *Emotional and behavioural aspects of Rett syndrome*, «Developmental Medicine and Child Neurology», n. 35, pp. 340-345.
- Skinner B.F. (1953), *Science and human behaviour*, New York, Free Press, trad. it. *Scienza e comportamento*, Milano, Angeli, 1992⁴.
- Smith R.G., Iwata B.A., Vollmer T.R. e Zarcone J.R. (1993), *Experimental analysis and treatment of multiply controlled self-injury*, «Journal of Applied Behaviour Analysis», n. 26, pp. 183-196.
- Tate B.G. e Baroff G.S. (1966), *Aversive control of self-injurious behaviour in a psychotic boy*, «Behaviour Research and Therapy», n. 4, pp. 281-287.
- Van Acker R. (1991), *Rett syndrome: A review of current knowledge*, «Journal of Autism and Developmental Disorders», n. 21, pp. 381-405.
- Vollmer T.R. (1994), *The concept of automatic reinforcement: Implications for behavioural research in developmental disabilities*, «Research in Developmental Disabilities», n. 15, pp. 187-207.
- Wacker D.P., Steege M.W., Northup J., Sasso G., Berg W., Reimers T., Cooper L., Cigrand K. e Donn L. (1990), *A component analysis of functional communication training across three topographies of severe behaviour problems*, «Journal of Applied Behaviour Analysis», n. 23, pp. 417-429.
- Wehmeyer W., Boursland G. e Ingram D. (1993), *An analogue assessment of hand stereotypies in two cases of Rett syndrome*, «Journal of Intellectual Disabilities Research», n. 37, pp. 95-102.