

Einhverfurófið og svefn

Fræðileg úttekt á meðferðarúrræðum og virkni þeirra

María Kristín H. Antonsdóttir

HUG- OG FÉLAGSVÍSINDASVIÐ

Lokaverkefni til BA gráðu í sálfræði

Félagsvísindadeild

Apríl 2016

Einhverfurófið og svefn: Fræðileg úttekt á meðferðarúrræðum og virkni þeirra

María Kristín H. Antonsdóttir

12 eininga lokaverkefni
sem er hluti af
Bachelor of Arts-prófi í sálfræði

Leiðbeinandi/-ur/ráðgjafi
Dr. Gísli Kort Kristófersson

Félagsvísindadeild
Hug- og félagsvísindasvið
Háskólinn á Akureyri
Akureyri, apríl 2016

Titill: Einhverfurófið og svefn: Fræðileg úttekt á meðferðarúræðum og virkni þeirra
Stuttur titill: Einhverfurófið og svefn: Úttekt á meðferðarúræðum
12 eininga lokaverkefni sem er hluti af Bachelor of Arts-prófi í sálfræði

Höfundarréttur © 2016 María Kristín H. Antonsdóttir
Öll réttindi áskilin

Félagsvísindadeild
Hug- og félagsvísindasvið
Háskólinn á Akureyri
Sólborg, Norðurslóð 2
600 Akureyri

Sími: 460 8000

Skráningarupplýsingar:

María Kristín H. Antonsdóttir, 2016, B.A. verkefni, félagsvísindadeild, hug- og félagsvísindasvið, Háskólinn á Akureyri, 64 bls.

Prentun: Háskólaprent
Reykjavík, apríl, 2016

Ég lýsi því hér með yfir að ég ein er höfundur þessa verkefnis og að það er ágóði eigin
rannsókna

Manía Kristín A.

(Undirskrift höfundar)

Það staðfestist hér með að lokaverkefni þetta fullnægir að mínum dómi kröfum til BA-prófs
við Hug- og félagsvísindasvið

Ally R.

(Undirskrift leiðbeinanda)

Útdráttur

Inngangur: Svefnvandamál eru tíð meðal barna með einhverfurófsröskun (ASD). Þessi svefnvandamál geta leitt til frekari vandamála eins og t.d. verri hegðunarmynsturs og slakari taugaþroska. Einnig greina foreldrar barna með ASD frá því að svefnvandamál séu þeim íþyngjandi og skerði töluvert lífsgæði innan fjölskyldunnar. Svefntengd meðferðarúrræði geta því skipt sköpum þegar um er að ræða heilsu, lífsgleði og þroska barna með ASD sem og lífsgæði aðstandenda þeirra. Mikilvægt er að bæði klínískir starfsmenn og foreldrar séu meðvitaðir um virkni einstakra meðferðaúrræða þegar kemur að svefnvanda þessa hóps svo m.a. foreldrar geti tekið upplýstar ákvarðanir og klínískir starfsmenn eigi kost á eins heildsteyptri nálgun og mögulegt er.

Aðferð: Í þessari fræðilegu úttekt (literature review) tók höfundur saman yfirlit yfir rannsóknir og greinar sem skoða svefntengd meðferðarúrræði fyrir börn með ASD og greinir frá virkni þeirra. Úttektina má nota sem ákveðnar leiðbeiningar í klínísku starfi þar sem hún gefur gott yfirlit yfir þau meðferðarúrræði sem kostur er á. Hinsvegar leggur höfundur áherslu á það að klínísk dómgreind sé höfð að leiðarljósi samhliða notkun hennar.

Niðurstöður: Niðurstöður sýnda að úrval meðferðaúrræða er breitt en þó er almennur skortur á rannsóknargrunni flestra úrræða á þessu sviði. Lyfjameðferð með melatóníni og atferlismeðferð með slokknun hafa verið mest rannsökuðu inngrípin hingað til og sýna almennt góða virkni. Flest meðferðarúrræði sýna einhverjar jákvæðar niðurstöður og lofa góðu fyrir framtíð klínískrar starfsemi. Eitthvað ójafnvægi er á milli rannsóknarniðurstaðna sem gefur til kynna að sum atriði eru einstaklingsbundin.

Umræða: Mikilvægt er að starfsmenn hafi ávallt í huga einstaklingsmun barna með ASD þegar meðferðaráætlun er unnin og að hún sé einnig gerð með barnsins nánasta umhverfi og aðstandendur í huga. Niðurstöður úttektarinnar varpa ljósi á það hversu mikilvægt er að frekari rannsóknargrunnur sé byggður á þessu sviði svo bæta megi svefntengda meðferðarnálgun klínískra stétta þegar kemur að börnum með ASD og umönnunaraðilum þeirra.

Lykilorð: einhverfurófið, ASD, svefnraskanir, meðferðarúrræði, inngríp, klínísk sálfræði

Abstract

Background: Sleep related problems are common amongst children with autism spectrum disorder (ASD). Those problems can lead to further negative outcomes like bad daytime behavior and poorer neurodevelopmental outcomes. Parents of ASD children have also reported that their children's sleeping problems can be very burdening for them and can negatively affect the whole family's quality of life. Sleep related therapies are therefore essential when considering the health, life satisfaction and development of children with ASD, as well as the quality of life for their family members. It is crucial that both clinical workers and parents are well aware of the functional qualities and efficacy of different therapeutic interventions when it comes to sleep within this group. Both, so that parents will be more qualified of making informed decisions, and so clinical workers will gain a more comprehensive approach to this form of therapy.

Method: In this literature review, the author presents an overview of the research that addresses sleep related therapies for children with ASD, along with their functional qualities. The review can be used for clinical guidance as it gives a comprehensive overlook over the therapeutic interventions available in this field. On the other hand, the author places great emphasis on that it will be used more as a tool to guide clinical decision making, not to replace it.

Findings: The results show that the range of therapeutic interventions is wide, but that a general lack of research is present in most areas. A drug treatment with the agent melatonin and a behavioral based intervention with extinction have been the two most researched interventions up to this point, and show generally good efficacy. Most of the therapeutic interventions show some positive qualities. Some imbalance was found between the results of different studies, which suggest the effects of individual differences in this group.

Conclusion: It is important that clinical workers always keep in mind the individual differences amongst children with ASD when creating a treatment plan. Also, it is important to keep in mind the child's proximal environment, family, friends and caregivers. This review's results highlight the importance of further research in this field, so that improvements can be made towards the quality of therapeutic interventions aimed at treating sleep related problems amongst children with ASD.

Keywords: autism spectrum disorder, ASD, sleep disorder, therapy, intervention, clinical psychology

Formáli

Þessi fræðilega úttekt er unnin undir handleiðslu Dr. Gísla Kort Kristóferssonar, sérfræðings í geðhjúkrun og lektors við Háskólann á Akureyri, sem ég vil byrja á að þakka fyrir ánægjulegt, hvetjandi og vel heppnað samstarf. Einnig vil ég þakka Kristínu Örnú Hauksdóttur fyrir prófarkalestur. Að lokum vil ég þakka fjölskyldu minni og sambýlismanni fyrir óendanlegan stuðning í öllu sem ég hef tekið mér fyrir hendur, þar með talið náminu.

Efnisyfirlit

Einhverfurófið og svefn (inngangur).....	2
Einhverfurófsröskun (e. Autism Spectrum Disorder: ASD).....	2
Svefnraskanir (e. sleep disorders: SD).....	4
ASD og svefn.....	5
Foreldrar.....	7
Meðferðarúrræði.....	8
Markmið.....	9
Aðferð.....	9
Gagnasöfnun.....	9
Helstu meðferðarúrræði.....	10
Lyfjameðferðir.....	11
Niðurstöður úr töflu 1.....	12
<i>Járn (e. iron supplementation)</i>	12
<i>Melatónín</i>	14
<i>Ramelteon</i>	16
<i>Klónidín</i>	17
<i>Gabapentín</i>	18
<i>Önnur lyf</i>	19
Samantekt og umræður úr töflu 1.....	21
Atferlismeðferðir.....	23
Niðurstöður úr töflu 2.....	24
<i>Fræðsla fyrir foreldra (e. parent education)</i>	24
<i>Hollar svefnvenjur (e. sleep hygiene)</i>	25
<i>Slokkun (e. extinction)</i>	26
<i>Skipulagðir tímar til þess að vakna (e. scheduled awakenings)</i>	28
<i>Aðlögun á líffræðilegri klukku (e. chronotherapy)</i>	29
<i>Dofnun áreitis (e. fading stimulus)</i>	29
<i>Aðlögun svefntíma (e. faded bedtime: FB/faded bedtime with response cost: FBRC)</i>	30
<i>Takmörkun svefns (e. sleep restriction)</i>	31
<i>Vekjaraklukkakerfi (e. alarm system)</i>	31
<i>Hugræn atferlismeðferð fyrir fjölskylduna (e. family based cognitive behavioural therapy)</i>	32
<i>Sambland fleiri ihlutana í einu (e. multi-component)</i>	32
Samantekt og umræður úr töflu 2.....	33
Önnur meðferðarúrræði.....	35
Niðurstöður úr töflu 3.....	36
Samantekt og umræður úr töflu 3.....	37
Umræður.....	37
Heimildir.....	41
Viðauki.....	52
¹ Töflur 1-3.....	52

Töfluyfirlit

Tafla 1. Lyfjameðferðir.....	52
Tafla 2. Atferlismeðferðir.....	55
Tafla 3. Önnur meðferðarúrræði.....	58

Einhverfurófið og svefn:

Fræðileg úttekt á meðferðarúrræðum og virkni þeirra

María Kristín H. Antonsdóttir

Háskólinn á Akureyri

Einhverfurófið og svefn: Fræðileg úttekt á helstu meðferðarúrræðum og virkni þeirra

Fylgni er milli svefnvandamála og neikvæðrar hegðunar almennt hjá börnum og fullorðnum einstaklingum með einhverfurófsröskun (Goldman o.fl., 2011; Fadini o.fl., 2015). Börn á einhverfurófinu sýna oft háa tíðni svefnvandamála (Reynolds og Malow, 2011) og má þ.a.l. áætla að þau eigi einnig við önnur hegðunarvandamál að stríða. Að því gefnu getur svefn meðal einstaklinga með einhverfu mögulega verið rót ýmissa hegðunarvandamála sem erfitt getur verið að takast á við ef ekki er unnið sérstaklega að því markmiði að bæta svefn þeirra. Því getur yfirlit yfir virkni svefntengdra meðferðarúrræða fyrir einstaklinga með ASD verið góð viðbót innan klínískrar starfsemi þegar kemur að þessum hóp.

Einhverfurófsröskun (e. Autism Spectrum Disorder: ASD)

ASD er flókinn taugasjúkdómur þar sem miðtaugakerfi einstaklings þroskast á afbrigðilegan hátt (Landlæknir, 2013; Banerjee, Riordan og Bhat, 2014). Þessi misþroski á sér yfirleitt stað á fósturstigi og koma afleiðingarnar því oftast í ljós á fyrstu árum eftir fæðingu. Æðri heilastarfsemi virðist vera skert hjá þeim sem eru með röskunina þó svo að enn sé lítið vitað um það hvað nákvæmlega valdi flestum einkennum. Greiningahandbókin fyrir geðraskanir, *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders* (DSM), hefur yfirleitt haft þá hefð að mæla langvarandi þroskaraskanir (e. pervasive developmental disorders; PDD) í mismunandi flokkum þar sem í DSM-IV voru m.a. raskanirnar asperger, upplausnarþroskaröskun (e. childhood disintegrative disorder; CDD), einhverfa, rett's heilkennið og langvarandi þroskaröskun sem ekki er nánar skilgreind (PDD-NOS; Harrington og Allen, 2014). Stór breyting átti sér stað með tilkomu DSM-V þegar flokknum var slegið saman í eina röskun sem mælist á einhverfurófi. Þar vex alvarleiki röskunnar ýmist eða minnkar eftir því hvar á rófinu einstaklingur mælist.

Breytingar á tíðni ASD hafa verið talsvert til umræðu þar sem tífelli virðast stöðugt aukast (Sæmundsen, Magnússon, Georgsdóttir, Egilsson og Rafnsson, 2013). Áður fyrr var

talið að einhverfa væri frekar sjaldgæft fyrirbæri eða með algengi upp á u.þ.b. 0.04%. Ástæðan fyrir fjölguninni virðist frekar stafa af upprunalegu vanmati á algengi í stað aukningu á útbreiðslu fötlunarinnar. Talið er að ástæðuna megi rekja til þátta eins og t.d. bættrar þekkingar, næmari mæli- og greiningaraðferða og aukinnar grósku í rannsóknum á þessu tiltekna sviði síðastliðna tvo áratugi. Í dag er talið að algengi ASD sé u.þ.b. 0.6-1.0% hér á landi (Landlæknir, 2013) en meðal nýjustu rannsókna erlendis hafa tölur sýnt allt upp í rúmlega 2.0% algengi (Harrington og Allen, 2014; Baio, 2014). Því má segja að ASD sé algengari röskun en áður var haldið og að með betri þekkingu megi búast við því að fleiri fari að nýta sér þá aðstoð sem í boði er.

Talið er að ASD orsakist að mestu leyti út frá erfðum þó að erfitt sé að segja til um nákvæmar orsakir og ýmist bendir til að þær séu margvíslegar (Park o.fl., 2016). Landlæknir (2013) skrifar að fjölgena erfðir séu við völd í um 85-90% tilvika og í öðrum tilvikum séu aðrir læknisfræðilegir þættir sem spila inni (oft aðrar raskanir eða sjúkdómar). ASD er því í flestum tilfellum meðfædd röskun sem því miður virðist vera, samkvæmt okkar bestu vitund, ólæknandi. Um 10-25% þeirra sem greinast með ASD eru einnig með aðrar genatískar raskanir eins og brothætt (e. fragile) X heilkennið, tuberous sclerosis (TSC) og rett's heilkenni svo dæmi séu nefnd (Betancur, Sakurai og Buxbaum, 2009). Einnig má nefna hér að rannsóknir hafa gefið til kynna að um sé að ræða ákveðna truflun í myndun taugamóta sem og truflun á ýmsum ferlum heilans sem vinna að uppbyggingu, eins og t.d. úrvinnslu prótína við taugamót (Zoghbi og Bear, 2012). Nýlegt yfirlit yfir nógildan skilning okkar á ASD greinir frá því að röskunin sé flókið fyrirbæri sem hefur marga orsakabætti, bæði umhverfis- og erfðafræðilega og ber því að varast að draga einhæfar ályktanir um orsakir röskunarinnar (Park o.fl., 2016).

Eins og áður var nefnt þá koma einkenni flestra með ASD í ljós snemma í barnæsku (Banerjee, Riordan og Bhat, 2014). Drengir eru fimm sinnum líklegri að greinast með ASD en

stúlkur (Baio, 2014). Birtingarform getur verið mjög mismunandi eftir einstaklingum en að öllu jöfnu birtast helstu einkennin í hegðunarmynstri og þá aðallega á þremur sviðum eða í mál- og tjáskiptum, í félagslegu samspili/tengslum og í sérkennilegri og/eða árátukenndri hegðun (Landlæknir, 2013). Einnig virðist oft vera töluverð truflun á samþættingu skynáreita þar sem einstaklingurinn á erfitt með að taka á móti og svara ýmsum skynupplýsingum eins og t.d. að sjá, heyra, finna lykt, bragð og snertingu (Wiggins o.fl., 2015).

Svefnraskanir (e. sleep disorders: SD)

ASD virðist einnig leiða til truflunar á svefnvenjum og talað er um að meira en helmingur þeirra sem eru með ASD upplifi að minnsta kosti eina svefnröskun (Fadini o.fl., 2015).

Svefn er mjög mikilvægur fyrir alla (Schwichtenberg o.fl., 2013). Svefnvandamál eiga það til að tengjast auknum hegðunvandamálum í vöku eins og t.d. kvíða, líkamlegum óþægindum, auknum fráhvörfum, athyglisbresti og árásargirni (Schwichtenberg o.fl., 2013). Einnig hafa þau almenn áhrif á heilsu, hegðun, athygli, æðri hugarstarf og frammistöðu í námi (Chen, Lemonnier, Lazartigues og Planche, 2006). Rannsóknir sem beinast að svefni gefa til kynna að hann hafi gríðarlega mikilvæga virkni fyrir starfsemi heilans og eigi m.a. þátt í enduruppbyggingu á frumu-, net- og innkirtlakerfum líkamans. Svefn á einnig þátt í orkusparnaði og vistfræðilegri aðlögun sem og hann spilar mikilvægt hlutverk í námi og mótun taugamóta (Mignot, 2008).

Hér má því áætla að í ljósi þess hversu mikilvægur svefn er fyrir daglega starfsemi líkamans, þá er hættu á því að afleiðingar ófullnægs svefns hjá einstaklingum með ASD geti verið mjög alvarlegar. Í samantekt á yfirliti þeirra Reynolds III og O'Hara (2014) er gert grein fyrir mikilvægi þess að svefnvenjur sjúklinga séu skoðaðar en þar stendur:

„Mental health clinicians should appreciate that sleep is a fundamental human behavior and that inadequate sleep has adverse medical, psychiatric, and psychosocial consequences. Sleep disturbances interact with common mental disorders; the two are

mutually exacerbating, and both must be appropriately addressed to ensure optimal outcomes for our patients. Sleep is by the brain, of the brain, and for the brain.”

Álykta má samkvæmt þessu að ASD einstaklingar með SD eigi við gagnkvæmar raskanir að stríða sem ýta undir og auka styrk einkenna hvors annars. Þess vegna er mikilvægt að starfsfólk geðheilbrigðisþjónustu á Íslandi geri viðeigandi skoðanir og vísi til meðferða sem taka tillit til svefns og hversu áhrifamikill hann getur verið og tryggi þ.a.l. það sem við getum kallað bestan (e. most optimal) árangur sjúklings í meðferð.

ASD og svefn

Niðurstöður rannsókna sýna um 40-80% algengi SD meðal barna með ASD (Reynolds og Malow, 2011). Helstu einkenni eru m.a. aukin svefntöf, verri skilvirkni heildarsvefns, styttri svefn, fleiri skipti sem einstaklingur vaknar yfir nóttina, of mikil örvun í svefni sem leiðir til vöku, lægri gildi melatóníns í líkamanum og svefntími er handahófskenndur (Cohen, Conduit, Lockley, Rajaratnam og Cornish, 2014). Hægt er að flokka marga þessara svefnvanda sem fyrsta flokks svefnraskanir í samræmi við alþjóðlega flokkun svefnraskana (International Classification of Sleep Disorders; ICSD-3), en þetta eru svefnraskanir eins og svefnleysi og andvökur (e. insomnia), svefnhegðunarröskun (e. parasomnia) og röskun á hringrás svefns og vöku (e. circadian rhythm sleep-wake disorder; American Academic of Sleep Medicine, 2014). Þó svo að hér séu nefndir algengustu svefnvandar meðal einstaklinga með ASD þá má þess geta að þeir birtast á jafn mismunandi hátt og einhverfueinkennin sjálf (Hollway og Aman, 2011). Hver einstaklingur sýnir mismunandi samspil svefnörðugleika við þau einstaklingsbundnu einkenni sem fylgja röskuninni.

Meðal nýrra rannsókna benda einhverjar til þess að um sé að ræða skýr, einstefnu tengsl milli svefns og hegðunar hjá einstaklingum með ASD, þ.a.s. að ófullnægur svefn ýti undir neikvæð einkenni röskunarinnar (Cohen o.fl., 2014). Ýmsar aðrar rannsóknir hafa þó greint frá því að um sé að ræða samband í aðra átt, eða að þeir sem sýni alvarlegri einkenni

ASD eigi frekar í erfiðleikum með svefn (Mayes og Calhoun, 2009; Park o.fl., 2012). Þá eiga ýmis einkenni ASD eins og t.d. fjandsamleg hegðun, árásargirni, ADHD, afbrigðileiki í samskiptum, skapsveiflur og bæði takmörkuð og endurtekin hegðun að spá fyrir um svefnvandamál. Það er því ekki auðvelt að segja til um orsakasamband og hvort alvarlegri einkenni ASD ýti undir frekari einkenni SD, eða hvort að SD ýti undir alvarlegri einkenni ASD. Eflaust er um að ræða tvo þætti sem spila saman og verka á víxl við hvorn annan upp að ákveðnu marki.

Börn með ASD eiga almennt oftar við svefnörðugleika að stríða og sýna einnig alvarlegri og fleiri einkenni en þau börn sem þroskast á dæmigerðan hátt (May, Cornish, Conduit, Rajaratnam og Rinehart, 2015). Þau sem upplifa eina svefnröskun eða vandamál, eiga oft við fleiri svefnvandamál að stríða á sama tíma (Liu, Hubbard, Fabes og Adam, 2006). Sjaldan er um eitt afmarkað vandamál að ræða þar sem mörg þeirra haldast í hendur og verka hvort á annað. Svefnvandamálin eru því miður oftast komin til þess að vera og virðast fylgja einstaklingi í gegnum lífið þó einkenni eiga það til að minnka eftir því sem ASD börn verða eldri (Matson, Ancona og Wilkins, 2008; May o.fl., 2015). Niðurstöður rannsókna sýna yfirleitt neikvæð tengsl svefnvandamála við hegðunarmynstur að degi til (Cohen o.fl., 2014; Sikora, Johnson, Clemons og Katz, 2012). Börn með ASD sem einnig upplifa vandamál í tengslum við svefn sýna bæði alvarlegri og fleiri innri og ytri hegðunarvandamál en þau börn með ASD sem ekki upplifa svefnvandamál.

Richdale, Baker, Short og Gradisar (2014) greindu frá því fyrir stuttu að breytileiki í svefnmynstri meðal táninga með ASD spáði markvisst fyrir um 57% af birtingamynd neikvæðra ASD einkenna að degi til. Flestar niðurstöður rannsókna eru samhljóða um það að einstaklingar með ASD sem að eiga í erfiðleikum með svefn sýni almennt alvarlegri einkenni og aukin hegðunarvandamál en þeir sem upplifa lítil svefntengd vandamál (Rzepecka, McKenzie, McClure og Murphy, 2011; Adams, Matson, Cervantes og Goldin, 2014). Færri

klukkustunda svefn að meðaltali hverja nótt hefur sem dæmi spáð fyrir skorti í félagslegri færni meðal barna með ASD (Schreck, Mulick og Smith, 2004) sem og meiri árásargirni og ofvirkni svo dæmi séu nefnd (Goldman o.fl., 2011). Enn fremur er algengt að aukin ADHD einkenni (Liu o.fl., 2006; Mayes og Calhoun, 2009; DeVincent, Gadow, Delosh og Geller, 2007) og einkenni takmarkaðrar og endurtekinnar hegðunar (Goldman o.fl., 2009 og 2011; Park o.fl., 2012) mælist oftast meðal barna með ASD sem eiga við frekari svefnvandamál að stríða. Hér getur orsakasamhengi þó verið óljóst og ber því að fara varlega í túlkun á þessum upplýsingum.

Greindarvísitala (IQ) hefur einnig spáð fyrir um svefnörðugleika en börn með ASD sem sváfu í færri klukkustundir hverja nótt voru með lægri greindarvísitölu og slakari málgetu (e. verbal skills) en þau sem sváfu fleiri klukkustundir (Taylor, Schreck og Mulick, 2012). Þau höfðu einnig verri aðlögunarfærni og lakari samskiptahæfileika. Svefnvandamál meðal ASD barna hafa einnig áhrif á kvíðatengdar raskanir og ýmis einkenni sem þeim fylgja til dæmis truflanir í meltingarvegi (Holloway o.fl., 2013). Svefnvandamál hafa auk þess verið tengd við það að börn með ASD borði of lítið en mögulega hefur það einnig áhrif á truflanir í meltingarvegi (Mannion, Leader og Healy, 2013). Enn og aftur er erfitt að segja til um eðli sambandsins. Hvað sem því líður hlýtur að teljast mikilvægt að fagaðilar og foreldrar geri allt í sínu valdi til að bæta svefn barna og unglunga með ASD.

Foreldrar

Foreldrar barna með ASD hafa greint frá því að svefnörðugleikar séu ein af þeim mest íþyngjandi vandamálum sem þau þurfa að takast á við í sambandi við röskunina (Reynolds og Malow, 2011). Því má segja að um sé að ræða skert lífsgæði bæði fyrir þolendur sem upplifa afleiðingar ófullnægjandi svefns beint sem og aðstandendur sem upplifa afleiðingarnar óbeint. Góðu fréttirnar eru hins vegar þær að í yfirliti þeirra Cohen og félaga (2014) kemur fram að rannsóknir sýna almennt að miklir möguleikar séu fyrir því að hægt sé að bæta bæði

hegðunarmynstur ASD einstaklinga sem og fjölskylduvirkni ef unnið er að því að bæta svefn meðal þeirra. Að því gefnu, að ófullnægjandi svefn meðal ASD einstaklinga hafi neikvæð áhrif á hegðun þeirra og streitu foreldra, má áætla að það sé brýn þörf fyrir þróun skilvirkra svefnmeðferða sem eru aðlagðar með einstök ASD einkenni skjólstaðings í huga.

Meðferðarúræði

Mikilvægt er að svefntengd vandamál meðal einstaklinga með ASD sé bæði skilgreint og mætt með viðeigandi einstaklingshæfu meðferðarinnngripi (Cohen o.fl., 2014). Því miður er það oft þannig að lítið er framhjá svefnröskunum meðal þessa hóps vegna þess að aðal áherslan virðist vera á hegðunaryvandamál sem draga til sín mikla athygli (Cortesi, Giannotti, Sebastiani, Panunzi og Valente, 2012). Þar af leiðandi eru svefnvandamál meðal einstaklinga með ASD oft óskilgreind og ómeðhöndluð. Hins vegar gefur ýmislegt til kynna að svefnvandamálin séu hluti af rót vandans og leiði upp að ákveðnu marki til frekari hegðunaryvandamála (Cortesi, Giannotti, Ivanenko og Johnson, 2010). Að því gefnu má áætla að með því að bæta svefn einstaklinga með ASD sé hægt að bæta hegðunarmynstur þeirra óbeint í leiðinni. Rannsókn þeirra Moon, Corkum og Smith (2011) gefur einmitt til kynna að svo sé raunin, en þar sýndu ríflega 70% þátttakenda bættu hegðun að lokinni öflugri svefnmeðferð.

Vaxandi vísbendingar staðfesta að alvarleg svefnvandamál meðal barna með ASD séu frekar algeng og beri með sér neikvæðar afleiðingar (Knight og Johnson, 2014). Þrátt fyrir það virðist vera lítið um rannsóknir sem byggja á gagnreyndum svefnmeðferðum fyrir þennan tiltekna hóp. Mikilvægt er að eðli svefns hvers einstaklings með ASD sé tekinn með í meðferðaráætlun til þess að ná fram heildrænni nálgun. Þrátt fyrir það minnst leiðbeiningar á meðferðarúræðum sem eiga að vinna á erfiðum hegðunareinkennum meðal einstaklinga með ASD lítið á svefn (Cohen o.fl., 2014). Brýn nauðsyn er á bættari skilningi á eðli svefnraskana meðal einstaklinga með ASD og hvaða meðferðarúræði sýni skilvirkar

niðurstöður fyrir hver sértæku einkenni. Ef klínískir starfsmenn og foreldrar eiga að geta tekið upplýstar ákvarðanir er mikilvægt að dregin séu saman þau gögn sem fjalla um gild og viðeigandi inngríp, hver árangur þeirra er og hvað einkennir þau. Heildstætt yfirlit á virkni meðferðarúrræða getur því skipt miklu máli þegar kemur að því að taka ákvörðun um meðferðarúrræði svefnraskana fyrir einstaklinga með ASD.

Markmið

Markmið þessarar fræðilegu úttektar er að skoða rannsóknir sem fjalla um meðferðarúrræði og aðferðir sem eru í boði fyrir börn og unglunga með ASD og svefntengd vandamál, sem og að fá gróft yfirlit yfir skilvirkni þeirra.

Aðferð

Höfundur yfirlitsins var einn um að leita að greinum sem skoðuðu svefntengd meðferðarúrræði fyrir einstaklinga með ASD. Snið þessa yfirlits nefnist fræðileg úttekt eða *literature review*.

Gagnasöfnun

Gagnasöfnun fór almennt fram á rafræna gagnagrunninum *PubMed*, en leitarvefurinn *Google Scholar* var einnig notaður í leit þegar þörf var á. Leitarorð voru í grunninn autism spectrum disorder, ASD, sleep disorder/sleep disorders, SD og sleep. Í fyrstu úttekt bættist við leitarorðið pharmacotherapy og síðan eftirfarandi leitarorð (eitt í einu): iron supplementation, melatonin, ramelteon, clonidine, gabapentin, antidepressants, atypical antipsychotics/antipsychotics, trazadone, sedative-hypnotics/hypnotics, benzodiazepines og clonazepam. Í annari úttekt bættist við behavioural intervention/interventions og síðan eftirfarandi leitarorð (eitt í einu): sleep hygiene, parent education, extinction, scheduled awakenings, faded bedtime, sleep restriction, stimulus fading, chronotherapy, multiple interventions, multi-component intervention og alternative behavioural interventions. Í þriðju úttekt bættist við eftirfarandi leitarorð (eitt í einu): massage therapy, music therapy og light

therapy. Þriðja úttektin var mjög strembin og krafðist þess að höfundur prófaði sig áfram í von um að finna einhverjar niðurstöður rannsókna um aðrar aðferðir sem ekki voru byggðar á lyfjagjöf og atferlisinnngripi.

Markmið með gagnasöfnun var að finna flest allar þær greinar sem til væru um svefnmeðferðir einstaklinga með ASD. Margar rannsóknir fjölluðu um áhrif ákveðins meðferðarúrræðis á ASD almennt, en þær voru teknar frá í leitinni þar sem markmiðið var að skoða rannsóknir sem skoða áhrif á svefn. Einnig voru rannsóknir sýjaðar frá ef þær skoðuðu einungis áhrif ákveðins úrræðis á svefn og ekki var um ASD úrtak að ræða. Hins vegar voru rannsóknir sem fjölluðu um börn með taugafræðilegar þroskaraskanir stundum teknar með þar sem ASD er frekar algeng taugafræðileg þroskaröskun. Þetta var aðallega gert þegar lítið sem ekkert fannst um áhrif ákveðinnar meðferðar á börn með ASD.

Greinarnar sem notaðar voru í yfirlitunum voru ritrýndar (e. peer-reviewed publication) og skrifaðar á ensku. Aldamótin voru höfð sem aldursmörk greinanna með þeirri undanþágu að nota eldri greinar ef lítið var til um ákveðið inngríp. Töflur 1, 2 og 3 má finna í viðauka 1 og greina þær frá niðurstöðum úttektarinnar. Tafla 1 sýnir samantekt á rannsóknum sem skoða lyfjatengd meðferðarúrræði fyrir einstaklinga með ASD. Tafla 2 sýnir samantekt á atferlistengdum meðferðarúrræðum fyrir sama hóp og tafla 3 sýnir yfirlit ýmissa annarra meðferða. Röðun íhlutana í töflunum þremur hefur enga skýringu og er háð tilviljun.

Helstu meðferðarúrræði

Meðferðir sem vinna á svefnvandamálum lofa góðu þegar kemur að þeirri krefjandi hegðun sem einstaklinga með ASD og fjölskyldur þeirra þurfa oft að glíma við (Veatch, Maxwell-Horn og Malow, 2015). Einhverfueinkenni eiga það til að minnka ef unnið er að bættari svefnvenjum þar sem ófullnægjandi svefn hjá einstaklingum með ASD leiðir oft til verri og hærri tíðni neikvæðra einkenna sem tengja má við röskunina. Rannsóknir benda til þess að atferlis- og lyfjamiðaðar aðferðir séu efnilegar nálganir þegar unnið er með

svefnvandamál hjá þessum tiltekna hópi (Veatch o.fl., 2015). Mikilvægt er að klínískir starfsmenn séu meðvitaðir um þá meðferðarmöguleika sem eru í boði og hvert eðli þeirra sé svo þeir geti tekið meðvitaða ákvörðun um það hvað sé besta meðferðaráætlunin hverju sinni (Blackmer og Feinstein, 2016). Foreldrar barna með ASD ættu einnig að fá viðeigandi fræðslu hvað varðar eðli svefnraskana og hver áhrif meðferðar getur orðið í grófum dráttum svo þeir geti tekið þátt í ákvarðanatöku og eftirfylgni meðferðar.

Lyfjameðferðir

Lyf eru víða notuð í meðferð við svefnröskunum meðal einstaklinga með einhverfurófsröskun (Angriman, Caravale, Novelli, Ferri og Bruni, 2015). En þrátt fyrir það er mikill skortur á vel uppsettum og stýrðum rannsóknum sem greina frá virkni, þoli, skammtastærð og öryggi lyfjanna hjá þessum tiltekna hópi og því eru rannsóknargögn og niðurstöður því miður almennt af skornum skammti (Blackmer og Feinstein, 2016). Einhver grunnur ágætra rannsókna er fyrir hendi en þær eru oft takmarkaðar og ekki nógu margar svo hægt sé að draga staðfestar ályktanir yfir á einstaklinga (Blackmer og Feinstein, 2016). Þær geta hins vegar nýst sem óformleg leiðsögn þegar unnið er með sjúklinga af þessu tagi.

Þegar unnið er með svefnvandamál barna með ASD þá virðist hvert tilfelli hafa einstaka eiginleika sem hefur áhrif á það hvaða einkenni birtast og hvernig þau birtast (Blackmer og Feinstein, 2016). Af þessum ástæðum hefur ekki verið settur fram einn klínískur gullstandard sem segir nákvæmlega hvernig eigi að vinna með svefnvandamál hjá börnum með ASD. Önnur ástæða fyrir þessu er, eins og nefnt var hér fyrir ofan, að rannsóknir eru af skornum skammti og lítið til sem styður eina lyfjameðferð framyfir aðra. Því er mikilvægt að hver einstaklingur sé skoðaður vel áður en meðferð er hafin og einblínt á einkennameðferð sem þýðir að þau lyf eru valin sem vinna best á þeim neikvæðu einkennum sem eru til staðar hjá viðkomandi einstaklingi (Blackmer og Feinstein, 2016). Af þessum ástæðum er sérstaklega mælt með því að þau klínísku gögn sem til eru um sjúkling séu

skoðuð vel áður en sérstakt lyf er valið. Þetta eru gögn eins og lyfjasaga, núverandi lyfjanotkun, aðrir meðsjúkdómar, líkamlegt ástand einstaklingsins og þroskaaldur.

Af þeim upplýsingum sem til eru þá einblína flestar greinar sem fjalla um lyfjameðferðir við svefnröskunum fyrir einstaklinga með ASD á svefnleysi (e. insomnia) og því lítið til af upplýsingum sem hægt er að reiða sig á ef um annarskonar svefnraskanir er að ræða (Angriman o.fl., 2015). Angriman og félagar (2015) tala um í yfirliti sínu að þegar um er að ræða börn með taugafræðilegar þroskaraskanir eins og ASD, þá ætti læknisfræðileg nálgun að fylgja ferli svefnlækninga almennt eins og gert er hjá einstaklingum með heilbrigðan taugaþroska. Fyrst og fremst ætti að skoða þau einkenni sem tengjast svefnvandamálinu og byggja svefnmeðferð út frá því. En þrátt fyrir að mælt sé með almennri nálgun á svefnvandamálum þá er samt sem áður mikil þörf á frekari gögnum sem geta auðgað skilning á öryggi og virkni lyfjameðferða við svefnvandamálum hjá einstaklingum með ASD (Blackmer og Feinstein, 2016). Ein ástæðan er sú að einstaklingar með taugafræðilegar þroskaraskanir eru erfðafræðilega frábrugðnir einstaklingum sem eru með það sem kallað er venjulegan taugaþroska. Það er því varla hægt að setja samasemmerki milli einstaklinga sem ekki eru með ASD og upplifa svefnvandamál og einstaklinga sem eru með ASD.

Þar til frekari rannsóknarniðurstöður liggja fyrir þá verða klínískir starfsmenn að reiða sig á þau takmörkuðu gögn sem til eru. Í töflu 1 má sjá lyfin sem eru helst notuð í meðferð við svefnvandamálum hjá einstaklingum með ASD. Einnig er greint frá rannsóknum sem fjalla um lyfin og helstu niðurstöðum þeirra. Í framhaldinu verður greint frá helstu atriðum í töflu 1.

Niðurstöður úr töflu 1

Járn (e. iron supplementation). Sú tilgáta hefur verið lögð fram að skortur á járn magni í blóði hjá einstaklingum með ASD sé ein ástæðan fyrir því að svefnvandamál séu tíð meðal þessa hóps (Dosman o.fl., 2007; Youssef, Singh, Huntington, Bevker og Kothare,

2013). Hringrás svefns og vöku er að hluta til stjórnað af dópamín-ópíum kerfinu þar sem járn virðist vera ómissandi þáttur og því mögulegt að járnskortur skerði dópamínvirkni sem síðan hefur neikvæð áhrif á svefn (Youssef o.fl., 2013). Erfitt getur verið að mæla gildi járnbeint og því hafa ferratín gildi verið mæld í staðinn. Þau eru einnig nákvæmari.

Í könnunar rannsókn (e. pilot research) þeirra Dosman og féлага (2007) jókst gæði svefns meðal barna með ASD eftir 8 vikna járnmeðferð. Út frá þeirra niðurstöðum væri því hægt að álykta að járn inntaka hafi einhver áhrif á svefn þessa hóps. Rannsóknin bendir einnig til þess að lág gildi járnbeint meðal ASD barna sé eitthvað sem hægt er að vinna með þar sem gildi þeirra sem tóku þátt í rannsókninni urðu betri eftir meðferðartímabilið. Hins vegar greina þeir frá því að inntaka járnbeint geti leitt til meltingatruflana sem er vert að hafa í huga þegar unnið er með einhverfum.

Einnig hafa Youssef og félagar (2013) greint frá því að um mögulegt samband járnbeint og svefns sé að ræða. Þeir gerðu yfirlit á grafi sem gaf upplýsingar um börn á 20 ára tímabili. Þar kom fram að börn með ASD voru með marktækt lægri gildi ferratíns en samanburðarhópur. Yfirlitið sýndi auk þess að börn sem voru með ASD og áttu við ýmis svefnvandamál að stríða almennt voru með lægstu gildi ferratíns í samanburði við aðra hópa. Í nýlegri yfirlitsgrein kemur fram að gögn sem skoða járnþjóf í meðferð við svefnvandamálum hjá einstaklingum með taugafræðilega þroskasjúkdóma séu af skornum skammti og því erfitt að áætla hvers konar samband sé til staðar milli lágs gildis járnbeint og svefntruflana meðal einhverfa (Blackmer og Feinstein, 2016). Í greininni mæla höfundar með því að klínísk reynsla meðferðaraðila ráði matinu á því hvort einstaklingur með ASD fái járnmiðaða meðferð í stað þess að kíkja einungis á þau rannsóknargögn sem til eru. Aðal ástæðan fyrir þessu er sú að rannsóknir á járninntöku við svefnröskunum meðal einstaklinga með ASD eru bæði takmarkaðar og fáar og því erfitt að veita meðferð einungis byggð á þeim.

Þær fáu rannsóknir sem teknar hafa verið saman hér gefa til kynna mögulegt samband ferratíngilda og svefnvandamála meðal barna á einhverfurófi. Þó er erfitt að segja til um orsakasamband eða hvort svefntruflanir geti hugsanlega leitt til lægra járnngildis hjá einstaklingum eða hvort aðeins sé um einstefnusamband að ræða þar sem gildi járnns hafi áhrif á svefn. Mikilvægt er að gerðar verði fleiri rannsóknir á þessu sviði í nánustu framtíð því frekari upplýsingar geta leitt til bættari meðferðarúrræða fyrir einhverfa einstaklinga með svefntruflanir.

Melatónín. Eitt mest rannsakaða lyf þegar kemur að svefnvandamálum meðal einhverfa barna er melatónín (Angriman o.fl., 2015; Blackmer og Feinstein, 2016). Melatónín er hormón sem spilar lykilhlutverk í stjórnun hringrásar svefns og vöku (Angriman o.fl., 2015). Ýmsir þættir geta haft áhrif á seytingu melatóníns eins og t.d. dagsljós. Melatónín hefur m.a. verið notað í lyfjameðferð við svefnröskunum hjá börnum með dæmigerðan taugaþroska og hefur leitt til bættari virkni svefns (Angriman o.fl., 2015). Þessar niðurstöður má einnig finna meðal barna sem eru taugafræðilega misþroska nema hvað að melatónín virðist virka mun sterkari og áhrifameiri á þann hóp. Margar rannsóknir hafa verið gerðar á áhrifum lyfsins á börn með taugaþroskaraskanir, þ.m.t. ASD, og einnig hafa niðurstöður rannsókna verið teknar saman í þó nokkrum góðum yfirlitsgreinum (sjá m.a. Damiani, Sweet og Sohoni, 2014; Schwichtenberg og Malow, 2015; Blackmer og Feinstein, 2016). Þó svo að heilstætt mat á öllum þeim rannsóknum sem gerðar hafa verið nái út fyrir ramma þessarar umfjöllunar þá hafa tvær nýlegar yfirlitsgreinar náð að draga vel saman helstu upplýsingarnar sem liggja fyrir (Damiani o.fl., 2014; Schwichtenberg og Malow, 2015).

Í yfirliti þeirra Damiani og félagar (2014) er greint frá því að rannsóknir á melatóníni séu yfir höfuð takmarkaðar vegna þess að þær virðast flestar hafa lítil úrtök, einhæfa rannsóknaruppsetningu og einnig skorta hlutlægar mælingaraðferðir. Þrátt fyrir þessar takmarkanir er niðurstaðan sú að lyfið hefur jákvæð áhrif og er öruggt í meðferð barna með

ASD sem eiga við svefnvandamál að stríða. Schwichtenberg og Malow (2015) komast einnig að þeim niðurstöðum að melatónín sé almennt öruggt þar sem aukaverkanir virðast vera óalgengar og vægar. Þeir nefna að fáar rannsóknir séu til sem skoða virkni og öryggi lyfsins þegar kemur að börnum með ASD og svefntruflanir. Sem dæmi þá er lítið vitað um það hver sé ákjósanlegur skammtur af lyfinu þegar kemur að þessum tiltekna hópi (Damiani o.fl., 2014).

Rannsóknir hafa gefið til kynna að melatónín styttri bæði svefntöf og bæti svefntíma barna með ASD (Wirojanan o.fl., 2009; Gringras o.fl., 2012). Í samanburðarrannsókn þeirra Wirojanan og féлага (2009) sváfu börn með ASD sem fengu melatónín um 21 mínútu lengur en samanburðarhópur sem fékk lyfleysu. Einnig sofnuðu þau 42 mínútum fyrr á kvöldin en þeir sem fengu lyfleysu og svefntöf varð u.þ.b. 28 mínútum styttri. Áætla má af þessum niðurstöðum að melatónín hafi bæði áhrif á svefntöf barna með ASD sem og heildarsvefn yfir ákveðið svefntímabil. Með það í huga að foreldrar barna með ASD finna oft fyrir miklu álagi þegar svæfa á börnin, þá kom einnig fram í þessari rannsókn að foreldrar barnanna sem gefið var melatónín voru einstaklega ánægðir með bætingarnar á svefntöfinni.

Í annarri samanburðarrannsókn sem gerð var stuttu seinna greindu rannsakendur frá svipuðum niðurstöðum (Gringras o.fl., 2012). Melatónín bætti heildarsvefntímabil um 22.4 mínútur og svefntöf styttist um 37.5 mínútur. Þeir sem fengu melatónín meðferð virtust einnig sofna talsvert fyrr á kvöldin en vöknuðu fyrr á morgnana en þeir sem fengu lyfleysu. Meðferðin virkaði best á þá sem upplifðu lengstu svefntöfina. Hún virtist einnig hafa önnur jákvæð áhrif eins og það að fjölskyldustarfsemi varð betri sem og hegðun ASD barna að degi til (þó svo að þessar niðurstöður hafi ekki verið tölfræðilega marktækar).

Yfirlitsgrein þeirra Damiani og féлага sem gerð var árið 2014 staðfesti einnig virkni melatóníns í meðferð barna með ASD og svefntruflanir, sérstaklega þegar kæmi að svefntöf og heildarsvefni. Eftir að hafa skoðað gögn fyrri ára benti flest til þess að melatónín hefði

mestu virknina ef þau áttu erfitt með að sofna á kvöldin eða vöknudu oft yfir svefntímabilið. Schwichtenberg og Malow (2015) greindu frá því ári síðar í yfirliti sínu að melatónín væri áhrifaríkt í meðferð og að rannsóknir sem mældu stutt meðferðartímabil þar sem melatónín var gefið tengdust marktækri minnkun á svefntöf hjá flestum flokkum taugafræðilegra þroskaraskana, þar með talið ASD. Enn einu ári síðar, í mjög svo nýlegri yfirlitsgrein þeirra Blackmer og Feinstein (2016), er aðeins öðruvísi vinkill á virkni melatóníns hvað varðar svefntöf og heildarsvefn. Þeir tóku eftir því að foreldrar og yferráðamenn greindu frá því að lyfið virkaði vel til þess að minnka svefntöf en væri ekki eins gott til þess að viðhalda svefni yfir svefntímabil.

Ósamræmi í niðurstöðum þessara þriggja yfirlita um áhrif melatóníns á heildarsvefntímabil ýtir undir mikilvægi þess að klínískir starfsmenn leggi ávallt vandað mat á eðli vandans áður en meðferðarúrræði er ákveðið. Það er mögulega einstaklingsbundið hvort melatónín hefur áhrif á heildarsvefn eða ekki þar sem við sjáum mismunandi áherslur milli rannsókna. Stundum hefur það áhrif á heildarsvefn og stundum ekki. Hins vegar virðast rannsóknir almennt vera sammála um virkni melatóníns þegar kemur að svefntöf hjá börnum með ASD (Damiani o.fl., 2014; Schwichtenberg og Malow, 2015; Blackmer og Feinstein, 2016). Mismunandi niðurstöður ýta einnig undir mikilvægi þess að starfsmenn fylgi eftir virkni meðferðar hjá hverju tilfelli og geri heildstætt mat öðru hvoru á því hver virknin sé, hverjar aukaverkanirnar eru o.s.frv. Enn fremur er nauðsynlegt að vita meira um það hvað á sér stað eftir að meðferð melatóníns lýkur. Reyndar virðist vera skortur á rannsóknum sem mæla virkni melatóníns á svefnvenjur einstaklinga með ASD sem veita eftirfylgni eftir meðferðartímabilið og meta aukaverkanir og viðbrögð eftir að meðferð lýkur (Damiani o.fl., 2014).

Ramelteon. Melatónískur viðtaka-antagónisti að nafni ramelteon hefur einnig verið notaður í svefnmeðferð einhverfra barna (Blackmer og Feinstein, 2016). Antagónistinn er

með sértækni og sækni í viðtakana MT1 og MT2. Virkni lyfsins hefur verið rannsakað í tveimur tilfellarannsóknum með frekar löngu millibili (Stigler, Posey og McDougale, 2006; Kawabe, Horiuchi, Oka og Ueno, 2014). Í tilfellarannsókn þeirra Stigler og féлага (2006) greina þeir frá því að ramelteon hafi dregið úr svefntöf og þeim skiptum sem unglingar vöknudu á næturna. Einnig virtist vera ágætt þol fyrir lyfinu og engin þreyta var skráð að degi til. Þessar niðurstöður sýndu fram á möguleika ramelteons í meðferð svefnvandamála meðal unglinga með ASD og ýttu undir að frekari rannsóknir voru gerðar. Átta árum síðar var ákveðið að gera aðra tilfellarannsókn sem skoðaði þrjú tilfelli barna með ASD og svefnvandamál sem fengu ramelteon meðferð (Kawabe o.fl., 2014). Þar voru niðurstöður einnig jákvæðar hvað varðar svefn og sýndu fram á að börn með ASD þyrftu mögulega vægan skammt af lyfinu fyrir ákjósanlegar niðurstöður (2-8 mg/á dag). Einnig sýndu niðurstöður að ramelteon tengdist bættari hegðun að degi til sem gæti gefið til kynna að lyfið sjálft hefði þessi áhrif eða um þriðju breytu væri að ræða sem er sú að bættari svefn leiði til betri hegðunar. Má segja að lyfið sýni árangur ýmist beint eða óbeint þegar unnið er með svefnvandamál og hegðunarvandamál barna með ASD.

Nýleg yfirlitsrannsókn Blackmer og Feinstein (2016) greinir frá því að gögn sem sýna virkni ramelteons á svefnvenjur meðal einhverfra barna eru mjög takmörkuð. Gögnin byggja á mjög litlu úrtaki og hafa lítið samanburðargildi, rannsóknarsnið þeirra er einhæft eða takmarkast við tilfella-rannsóknir, meðferðartímabil eru yfirleitt mjög stutt og því er skortur á upplýsingum sem gefa til kynna hvort langtíma notkun sé í lagi. Einnig er lítið vitað um notagildi ramelteons í klínísku starfi og þarf frekari gögn, rannsóknir og niðurstöður til þess að geta sagt meira til um það og virkni þess, ásamt kostum og göllum.

Klónidín. Klónidín er lyf sem hefur sýnt fram á að dragi úr hvatvísi, athyglisbresti og ofvirkni, ásamt því að vera stundum notað sem róandi lyf fyrir miðlæga starfsemi líkamans (Ming, Gordon, Kang og Wagner, 2008). Lyfið er agónisti adrenalínískra viðtaka sem heita

apha2 og vinnur að því að koma í veg fyrir virkni noradrenalíns sem hefur ýmsar róandi afleiðingar. Lyfið er oft notað þegar unnið er með börn sem eru taugafræðilega misþroska og bæði upplifa ófullnægjandi svefn og eiga við hegðunarrvandamál að stríða (Blackmer og Feinstein, 2016). Eftir að hafa veitt 19 börnum með ASD og svefnraskanir og/eða hegðunarraskanir klónidín meðferð í ½-2 ár gerðu Ming og félagar (2008) afturvirka rannsókn á virkni lyfsins með því að spyrja foreldra barnanna um áhrif þess. Allir þátttakendur sem áttu erfitt með að sofna á kvöldin og allir nema 1 af þeim sem upplifðu erfiðleika við að viðhalda svefni upplifðu marktækar bætingar á þeim sviðum samkvæmt upplifun foreldra. Einnig greindu foreldrar frá því að lyfið leiddi til minni athyglisbrests og ofvirkni og hafi dregið úr skapsveiflum og árásargirni.

Í yfirliti Blackmer og Feinstein (2016) kemur fram að þó klónidín virðist einkar áhrifaríkt fyrir marga þá þurfi að gæta varúðar þegar það er tekið í notkun og fylgjast vel með aukaverkunum. Þetta á sérstaklega við um þau börn sem á sama tíma eru á öðrum lyfjum eins og MTK-þunglyndis lyfjum (eins og þríhyrningslaga þunglyndislyfjum) og einnig ef einstaklingar eru með óstöðugan blóðþrýsting, ýmsa hjartakvilla eða þegar lyfið er notað í vökvaformi. Þá getur verið hætt á ýmsum skömmtunar- og blöndunarvillum. Ming og félagar (2008) greindu frá því í rannsókn sinni að aukaverkanir hafi verið almennt þolanlegar en minnst einnig á það að fleiri rannsóknir þurfi til þess að segja með fullri vissu til um virkni lyfsins í þessu samhengi. Þó klónidín sé oft notað þegar börn með ASD eiga erfitt með svefn í klíník, þá eru rannsóknir og hlutlægar niðurstöður af skörum skammti (Ming o.fl., 2008; Blackmer og Feinstein, 2016). Til þess að fá betri innsýn inn í klíníska virkni og öryggi klónidíns er nauðsynlegt að skapa breiðari rannsóknargrunn þar sem samanburður er mögulegur og upplýsingar um langtíma áhrif eru til staðar.

Gabapentín. Gabapentín er lyf við hlutbundnum flogaköstum sem hefur einnig verið notað í meðferð við svefnleysi hjá fullorðnum einstaklingum almennt (Angriman o.fl., 2015).

Mælt er með töluvert minni skammtastærð fyrir einstaklinga með taugafræðilega þroskaröskun en þá sem eru flogaveikir (5-15 mg/kg fyrir svefn á móti 40 mg/kg 3x á dag). Lyfið er fitusækinn hliðaruppbygging af γ -aminobutyric sýru sem er skylt GABA en bindist samt sem áður ekki GABA viðtökum. Stundum upplifa börn sem taka gabapentín í meðferð við einhverju öðru en svefnröskunum þá jákvæðu aukaverkun að svefninn þeirra verður gæðameiri (Blackmer og Feinstein, 2016). Lyfið virðist ekki vera mikið notað sem fyrstu línu lyfjameðferð við svefnvandamálum einstaklinga með taugafræðilega þroskaröskun en þrátt fyrir það benda fyrri gögn til þess að áhrif þess séu jákvæð þegar kemur að ófullnægjandi svefni barna með ASD (Blackmer og Feinstein, 2016).

Robinson og Malow (2013) könnuðu virkni gabapentíns í meðferð hjá 23 börnum sem voru flest taugafræðilega misþroskuð ásamt því að þjáast af svefnleysi sem einkenndist m.a. af svefntöf og svefntruflun. Eftir meðferðina hafði svefn 78% barnanna orðið betri samkvæmt mati foreldra. Reyndar voru 6 sem greindu frá aukaverkunum sem hurfu ef skammtur var minnkaður eða sett var á meðferðarhlé. Sex einstaklingar virðast ekki vera ýkja margir en ef við skoðum þetta betur þá eru 6 af 23 einstaklingum rúmlega $\frac{1}{4}$ af öllum þátttakendum. Það má því segja að frekar stórt hlutfall hafi þurft að fá minni skammt af gabapentíni eða algjörlega stöðva inntöku þess vegna aukaverkana.

Rannsóknir eru mjög af skornum skammti þegar kemur að gabapentínmeðferð fyrir einhverfa sem að eiga erfitt með svefn (Blackmer og Feinstein, 2016). Þó svo að fyrri rannsóknir tali almennt um það að lyfið sé öruggt og vel þolanlegt þá er þörf á stærri skipulögðum tilraunum áður en hægt er að segja nákvæmlega til um virkni þess (Angriman o.fl., 2015). Þegar fleiri rannsóknaniðurstöður liggja fyrir þá er fyrst hægt að byrja að álykta meira um lyfið (Angriman o.fl., 2015; Blackmer og Feinstein, 2016).

Önnur lyf. Þunglyndislyf og óhefðbundin geðrofslyf hafa stundum verið notuð án ábendingar (e. off-label) í meðferð við svefnleysi barna með taugafræðilegar þroskaraskanir

(Owens, Rosen, Mindell og Kirchner, 2010). Hins vegar er lítið um rannsóknir sem styðja notkun þeirra á þessum tiltekna hópi, nema ef um er að ræða einhverjar aðrar raskanir sem krefjast notkun þess (Blackmer og Feinstein, 2016). Þá getur verið að þunglyndis- eða geðrofslyf hjálpi einnig við einkenni svefnleysisins þó svo að aðaláherslan með gjöf lyfsins sé að vinna á einkennum hinna raskananna. Þunglyndislyf eins og trazadone hafa verið mikið notuð í klínísku starfi, þá sérstaklega ef um samhliða lyndis- og/eða kvíðaröskun er að ræða (Blackmer og Feinstein, 2016), en trazadone er ekki lengur fáanlegt á Íslandi. Ýmsar alvarlegar aukaverkanir geta fylgt inntöku þunglyndislyfja, eins og hjartsláttartruflanir og háþrýstingur (Blackmer og Feinstein, 2016). Geðrofslyf eru einnig stundum notuð í svefnmeferð ef börn eru með samhliða lyndisraskanir (Owen o.fl., 2010). Grigg-Damberger og Ralls (2013) leggja hins vegar til þess að aðeins eigi að íhuga geðrofslyf (t.d. risperidone, aripiprazole) í svefnmeðferð barna með ASD ef samhliða einkenni eins og reiði, skapstygð, sjálfskaðandi hegðun eða pirringur sé til staðar.

Áhrif svefnlyfja (e. hypnotics) hafa lítið verið rannsökuð á einhverfum einstaklingum (Blackmer og Feinstein, 2016). Ýmislegt bendir til þess að börn með ofvirkniröskun (ADHD) njóti ekki góðs af þessum tilteknu lyfjum og ætti að hafa það í huga þegar unnið er með börn með ASD sem einnig sýna einkenni ADHD. Aukaverkanir svefnlyfja geta verið algengar og miklar sem dæmi svimi, hausverkur og ofskynjun (Blackmer og Feinstein, 2016). Af því gefnu að lítið sé vitað um virkni lyfsins á ASD og sterkar vísbendingar séu um aukaverkanir og eitranir, þá er ekki mælt með róandi svefnlyfjum þegar unnið er með svefnvandamál barna með taugafræðilegar þroskaraskanir, þ.m.t. ASD.

Benzodíazepín svefnlyf eins og clonazepam getur mögulega verið meðferðarkostur þegar unnið er með svefnvandamál taugafræðilega misþroskaðra barna eins og þeirra sem eru með ASD (Angriman o.fl., 2015). Þetta á helst við um þegar einnig er unnið með röskun á örvun (e. arousal disorder), reglubundinna hreyfingu útlíma (e. periodic limb movement

disorder) eða fótaóeirð (e. restless leg syndrome). Mjög fáar rannsóknir skoða áhrif clonazepam hjá þessum tiltekna hópi (Angriman o.fl., 2015). Frekar gömul rannsókn skoðaði hins vegar áhrif þess á fullorðna einstaklinga sem voru með taugafræðilegar þroskaraskanir og greindi frá því að lyfið hafi dregið úr einkennum örvunar og reglubundinna hreyfingu útlíma (Edinger o.fl., 1996). Af þessu má ætla að clonazepam sé umhugsunarverður kostur sem inngríp í meðferð fullorðina einstaklinga með ASD sem stríða við annaðhvort örvunarvandamál eða reglubundinna hreyfingu útlíma. Mögulega kæmi lyfið einnig til greina ef ASD einstaklingur þjáist af fótaóeirð.

Almennur skortur á rannsóknum annarra lyfja þegar unnið er að svefnmeðferð einhverfa gerir erfitt fyrir að draga ályktanir um virkni þeirra á þennan tiltekna hóp. Ef meðferðaraðilar velja lyf úr þessum flokki er mikilvægt að þeir fylgi einkennasögu sjúklings vel eftir þar sem mörg lyfjanna geta haft í för með sér alvarlegar aukaverkanir. Einnig er mikilvægt að frekari rannsóknir og klínískar leiðbeiningar séu unnar um þessi lyf þar sem núverandi vitneskja byggir helst á því hvað er stundum notað í klínísku starfi en ekki á óhlutbundnum niðurstöðum rannsókna.

Samantekt og umræður úr töflu 1

Af þeim lyfjameðferðum sem eru í boði við svefnröskunum fyrir einhverfa þá eru flestar þeirra lítið rannsakaðar á þessum tiltekna hópi og skoða einungis virkni þeirra á börn með ASD (ekki fullorðna). Sum lyfjanna, eins og gabapentín, hafa eitthvað verið rannsökuð á börnum með taugafræðilegar þroskaraskanir en lítið sem ekkert verið skoðuð sérstaklega í tengslum við ASD. Samt sem áður virðast helstu lyfin sem nefnd hafa verið hér vera efnileg. Þær takmörkuðu niðurstöður sem til eru sýna að mögulega sé eitthvað bitastætt í gangi sem er vert að skoða betur með fleiri rannsóknum á þessu sviði.

Melatonín er lang mest rannsakaða lyfið þegar kemur að þessum meðferðarhóp og virðist vera algengt val klínískra starfsmanna þegar kemur að svefntengdri meðferð barna

með ASD (Blackmer og Feinstein, 2016). Hætta er á því að virkni melatóníns verði ofmetin í klínísku starfi einkum vegna þess að af þeim lyfum sem hafa verið rannsökuð á þessum tiltekna hópi, eru þær sem skoða melatónín nákvæmastar og fjölbreyttastar og því mest vitað um virkni þess á sviðinu. Rannsóknir á melatóníni sýna að lyfið er almennt öflugt í meðferð við svefnvandamálum meðal einhverfra barna en það þýðir ekki endilega að það sé besta nálgunin fyrir alla einhverfa einstaklinga sem að upplifa svefntengd vandamál. Hér sjáum við aftur hversu mikilvægt það er að gerðar verði fleiri og fjölbreyttari rannsóknir á öðrum flokkum lyfja í meðferð þar sem mögulega eru einhver tilfelli þar sem aðrar nálganir henta betur.

Aðrar lyfjameðferðir en þær sem nefndar hafa verið hér geta hentað einhverjum betur þó svo þessar séu almennt notaðar í klínísku starfi. Hér er mikilvægt að hafa til hliðsjónar að einstaklingar eru mismunandi og það hentar ekki alltaf það sama fyrir alla. Eins og nefnt hefur verið geta þunglyndislyf virkað vel fyrir börn með ASD sem einnig glíma við þunglyndi á sama tíma, þó svo að þau myndu kannski ekki henta eins vel fyrir önnur tilfelli (Blackmer og Feinstein, 2016). Mikilvægt er að vera næmur fyrir einkennum skjólstæðings, hvernig hann svarar inngrípum og hverjar óskir hans og aðstandenda eru hverju sinni.

Niðurstöður rannsókna gefa því til kynna að erfitt sé að alhæfa um áhrif einstakra lyfja á svefnmynstur barna með ASD. Aðeins er hægt að draga ályktanir upp að vissu marki. Einstaklingar eru misjafnir og heilar þeirra ólíkir, þeir sýna mismunandi einkenni svefnraskana og hvert einkenni birtist á einstaklingsbundinn hátt. Því kemur fyrir að þeir bregðist mismunandi við lyfjum sem ætluð eru til þess að vinna á einkennunum (Saddichha, 2010). Einstaklingsmiðuð meðferð er því afar mikilvæg þegar kemur að svefnvandamálum einstaklinga með ASD. Því meira sem vitað er um hvert lyf því meiri kostur er á heildstæðari, einstaklingsmiðaðari og betri nálgun.

Atferlismeðferðir

Þegar líffræðilegir þættir hafa verið útilokaðir sem áhrifavaldar er foreldrafræðsla og önnur atferlistengd meðferðarúrræði talin fyrstu línu meðferð við svefnvandamálum barna með ASD (Grigg-Damberger og Ralls, 2013). Atferlistengd inngríp eru oftast talin betri og öruggari kostur en lyf og eru oftast vinsælli svefntengdur meðferðarkostur meðal foreldra barna með ASD (Blackmer og Feinstein, 2016; Vriend, Corkum, Moon og Smith, 2011). Almennt séð eru vísbendingar um það að foreldrum líki ekki neitt sérstaklega vel við lyf þegar unnið er með svefntengd vandamál hjá börnunum þeirra og er það aðalega vegna þeirra aukaverkana sem lyf geta mögulega haft í för með sér (Weiskop, Richdale og Matthews, 2005). Einnig virðast jákvæð áhrif atferlismiðaðra inngrípa teygja sig út til foreldra barnanna sem unnið er með og þeir hafa m.a. sýnt aukna hæfni til þess að takast á við hinar ýmsu aðstæður sem og meiri trú á eigin færni og stjórn (Vriend o.fl., 2011).

Þrátt fyrir þá kosti sem fylgja þessum tiltekna flokki meðferðaúrræða þá er því miður sjaldnar boðið upp á atferlistengd meðferðarúrræði en lyfjatengd úrræði í klínísku starfi þegar unnið er með börn með ASD (Vriend o.fl., 2011). Mögulega er það vegna þess að krafist er mikillar skuldbindingar við að framfylgja atferlistengdum inngrípum í meðferð. En, að sama skapi, ef þeim er fylgt eftir af skynsemi geta þau leitt til bættra lífsgæða fyrir bæði börn og aðstandendur (Blackmer og Feinstein, 2016). Því er sérstök áhersla lögð á að atferlistengd inngríp séu notuð á kerfisbundinn hátt með jákvæðni, bjartsýni og trú á skilvirkni þeirra.

Niðurstöður rannsókna lofa almennt jákvæðum áhrifum atferlistengdra svefnmeðferða þegar kemur að börnum með ASD (Vriend o.fl., 2011) en lítið er um rannsóknir sem skoða fullorðna einstaklinga með ASD. Þó svo að þær niðurstöður sem til eru séu jákvæðar, þá virðist vera almennur skortur á gögnum innan hvers flokks sem hefur áhrif á gildi og gæði rannsóknargrunns. Vegna almenns skorts á rannsóknum gefst lítill kostur á því að skoða samanburð rannsókna og niðurstaðna og því erfitt að áætla hvað sé háð tilviljun og hvað ekki.

Rannsóknirnar sem til eru þjóna hins vegar mikilvægu hlutverki. Bæði veita þær kost á því að draga ákveðnar ályktanir og þær ýta undir að frekari rannsóknir verði gerðar á þessu sviði.

Vriend og félagar (2011) tóku saman í yfirliti þær rannsóknir sem skoða atferlisteng meðferðarúrræði hjá þessum tiltekna hóp og mátu skilvirkni út frá viðmiðum Chambless og Hollon. Viðmið þeirra eru þannig að flokka má inngríp í þrjá hópa eftir skilvirkni þeirra. Þetta eru hóparnir staðfast (e. well established), sennilega skilvirkt (e. probably efficacious) og hugsanlega skilvikt (e. possibly efficacious) inngríp. Til þess að inngríp geti talist staðfast eða sennilega skilvirkt, þá þurfa fleiri rannsóknir að bera það saman við annað inngríp eða samanburðarhóp. Samkvæmt niðurstöðum Vriend og féлага (2011) uppfylltu engin atferlistengt meðferðarúrræði þau skilyrði að geta verið talin vel framsett og sennilega skilvirk aðferð í klínísku starfi. Áætla má að frekari rannsóknir á þessu sviði séu mikilvægar því þær geta leitt til skýrari starfshátta innan klínískra stétta og þar af leiðandi betri þjónustu við einstaklinga með ASD.

Þar til frekari rannsóknir liggja fyrir gefa þær rannsóknir sem til eru ágæta mynd af því hvernig best sé að byggja upp atferlismiðaða meðferðaráætlun hverju sinni. Mikilvægt er að hafa í huga hver einkenni einstaklings eru þegar meðferðaráætlun er sett upp og inngríp eru valin (Vriend o.fl., 2011). Í töflu 2 má sjá atferlistengd meðferðarúrræði sem eru notuð í meðferð við svefnvandamálum barna með ASD og niðurstöður rannsókna á þessu sviði. Í framhaldinu verður greint frá helstu atriðum í töflu 2, skilgreiningar verða gefnar á atferlistengdum úrræðum og yfirlit viðeigandi gagna dregið saman.

Niðurstöður úr töflu 2

Fræðsla fyrir foreldra (e. parent education). Þegar börn með ASD fara í gegn um ákveðna meðferð leika foreldrar/forráðamenn eða aðrir ummönnumunaraðilar oft stórt hlutverk þar sem þeir sjá yfirleitt um eftirfylgni íhlutana (Vriend o.fl., 2011). Því er mikilvægt að

miðlað sé áfram viðeigandi fræðslu svo framhald meðferðar heima fyrir verði fylgt eftir á sem skilvirkastan máta.

Í samanburðarrannsólm þeirra Johnson og félaga (2013) greindu foreldrar sem fengu þjálfun í atferlismiðuðum, svefntengdum inngrípum (e. behavioural parent training) frá meiri framförum á svefnvandamálum ASD barnanna sinna en þeir sem fengu ósvefntengda fræðslu (samanburðarhópur). Það má því áætla að viðeigandi fræðsla leiði til betri lífsgæða og mögulega jákvæðari viðhorfa hjá foreldrum barna með ASD. Hins vegar er erfitt að segja hvort svefnframmistaða hafi í raun batnað þar sem mælingar voru byggðar á frásögn foreldra (e. parental report).

Rannsóknarniðurstöður Malow og félaga (2014) eru í samræmi við fyrri niðurstöður og gefa aðeins betri hugmynd um það hvort svefnmynstur hafi í raun batnað þar sem fjölbreyttari og óhlutbundnari mælingaraðferðir voru notaðar. Þeir greina frá því að svefntengd fræðsla hafi leitt til minnkunar á svefntöf, eða að hún hafi minnkað úr 58.2 mínútum í 39.6 að meðaltali. Aðrar niðurstöður voru að svefnleysi minnkaði og virkni bæði ASD barna og fjölskyldumeðlima þeirra varð betri, en það virtist ekki skipta máli hvort foreldrafræðslu væri miðlað í hóp eða á einstaklingsmiðaðan hátt (Malow o.fl., 2014).

Þessar tvær mjög nýlegu rannsóknir (Johnson o.fl., 2013; Malow o.fl., 2014) sem einblína á svefntengda fræðslu fyrir foreldra barna með ASD gefa því ágæta mynd af virkni úrræðisins þegar kemur að þessum tiltekna hópi. Þær eru byggðar á nokkuð stórum úrtökum sem styrkir gildi niðurstaðna. Þó er takmarkað hversu mikið er hægt að áætla af rannsóknarniðurstöðum vegna takmörkunar á fjölbreytni rannsóknarsniða.

Hollar svefnvenjur (e. sleep hygiene). Þegar unnið er með svefnvandamál barna með taugafræðilega þroskahömlun, og þar með talið ASD, þá eru hollar svefnvenjur talin fyrstu línu meðferð (Blackmer og Feinstein, 2016). Hollar svefnvenjur eru svefntengdar athafnir sem eiga að bæta skilvirkni svefns og eru byggðar á breytingum sem gerðar eru m.a.

í svefnskyldu umhverfi barnsins, á svefndagskrá, svefntengdum venjum og á öðrum hlutlægum sviðum sem hafa áhrif á svefn (Blackmer og Feinstein, 2016).

Þrjár yfirlitsgreinar draga saman niðurstöður rannsókna sem gerðar hafa verið á hollum svefnvenjum meðal barna með ASD (Jan o.fl., 2008; Vriend o.fl., 2011; Blackmer og Feinstein, 2016). Á heildina litið benda flestar niðurstöður til þess að hollar svefnvenjur séu gott meðferðarúrræði í bland með öðrum úrræðum en ekki nógu áhrifamikil úrræði eitt og sér þegar unnið er með svefnvandamál barna með ASD (Vriend o.fl., 2011; Blackmer og Feinstein, 2016). Meðferðin er oft notuð sem ákveðinn viðauki með öðrum aðferðum sem byggja á mun ákafari atferlis- og svefntengdum inngrípum (Vriend o.fl., 2011). Nauðsynlegt getur verið að aðlaga hollar svefnvenjur að einstökum þörfum hvers barns og þeirra fjölskyldu en sem dæmi getur lestur í bók fyrir barn áður en það fer að sofa haft lítil áhrif ef um er að ræða barn með takmarkaðan málskilning (Jan o.fl., 2008).

Í heilbrigðiskerfinu er stundum horft framhjá hollum svefnvenjum þegar kemur að börnum með ASD þar sem framkvæmd og eftirfylgni krefst oft mikillar vinnu, endurskoðunar og endurmati á áætlun (Blackmer og Feinstein, 2016). Þrátt fyrir það eru hollar svefnvenjur mikilvægur hluti í svefnmeðferð barna með ASD og gegna lykilhlutverki (Vriend o.fl., 2011). Segja má að þó aðferðin geti verið krefjandi í framkvæmd og hún nægi sjaldan til breytinga ein og sér, þá sé hún nauðsynlegt innihald í svefntengdri meðferðaráætlun barna með ASD ef ná á sem mestum árangri.

Slokknun (e. extinction). Meðferð sem byggir á slokknun hefur yfirleitt það að markmiði að hunsu ákveðna hegðun í nógu langan tíma þar til neikvæð einkenni dofna og er markmiðið síðan að þau slokkni alveg að lokum (Vriend o.fl., 2011). Sem dæmi þá væri barn með ASD látið afskiptalaust á svefnstað þar til það sofnar, óháð því hvernig það hagar sér (hegðun er hunsuð). Slokknun skiptist gróflega í tvo flokka: hefðbundin (e. standard extinction) þar sem barnið er látið óafskipt án nokkura truflunar og óhefðbundin (e. graduated

extinction) þar sem barnið er látið óafskipt aðeins í ákveðinn tíma ef þar að segja óróleg hegðun sé enn til staðar eftir að tíminn rennur út.

Weiskop og félagar skoðuðu áhrif hefðbundinnar slokkunar fyrst árið 2001 og síðar árið 2005. Í fyrri rannsókninni var skoðað tilfelli 5 ára stráks með ASD (Weiskop, Matthews og Richdale, 2001). Eftir meðferð með hefðbundinni slokkun varð drengurinn orðinn betri í sjálfsslökun og átti auðveldara með að sofna einn í eigin rúmi. Hann vaknaði sjaldnar yfir nóttina en hann gerði fyrir inngríp og við lok meðferðar gat hann sofnað sjálfur og sofið einn alla nóttina. Í síðari rannsókninni var úrtakið aðeins stærra en niðurstöður af svipuðum toga (Weiskop o.fl., 2005). Skoðaðir voru sex einstaklingar á einhverfurófinu sem áttu erfitt með svefn. Öll sex börnin upplifðu betri svefn eftir meðferð og í takt við fyrri rannsóknina þá minnkaði truflun fyrir svefninn, börnin sofnuðu oftari sjálf, það dró úr þeim skiptum sem þau vöknudu yfir nóttina og þau sváfu oftari ein.

Premur árum síðar komu Friedman og Luiselli (2008) með frekar nýstárlega nálgun á það hvernig hægt væri að nota slokkun til þess að eiga við dagspreytu hjá börnum með ASD. Þeir skoðuðu tilfelli 13 ára stráks með ASD sem svaf mikið og oft að degi til. Rannsóknin gefur vísbendingu um jákvæða virkni slokkunar til þess að eiga við dagspreytu meðal barna með ASD. Strákurinn hætti að sofna yfir daginn að lokinni meðferð sem hélst við 6 mánaða endurskoðun. Erfitt er þó að yfirfæra þessi einstöku rannsóknargögn á aðra einstaklinga því hér er um að ræða einn dreng sem upplifði bata eftir meðferð. Það er ekki fyrr en fleiri rannsóknargögn liggja fyrir sem lýsa áhrif slokkunar á dagspreytu meðal fleiri barna með ASD að hægt verður að draga skýrari ályktanir um virkni meðferðarinnar í þessu samhengi.

Vriend og félagar (2011) telja slokkun hugsanlega vera skilvirka meðferð samkvæmt þeim rannsóknargrunni sem til er. Þeir greina frá því að í öllum þeim rannsóknum um hefðbundna slokkun sem þeir skoðuðu dró úr vöku ASD barna að nóttu til og að þessar

jákvæðu breytingar voru enn til staðar við 6-12 mánaða endurskoðun. Hins vegar þá eru rannsóknir sem skoða óhefðbundna slokknun aðferðafræðilega takmarkaðar og því erfitt að áætla nákvæma skilvirkni meðferðarinnar. Þrátt fyrir það er ljóst að óhefðbundin slokknun er yfirleitt betur liðin af foreldrum en hefðbundin slokknun og hafa rannsóknir á börnum með ASD sýnt að meðferðarúrræðið geti mögulega haft svipuð áhrif og hefðbundin slokknun og m.a. dregið úr svefntöf og truflun og aukið getu barnsins til þess að sofa eitt og sér. Því væri heppilegt ef frekari rannsóknir yrðu gerðar á óhefðbundinni slokknun sem gæfu mögulega betri kost á því að mæta óskum foreldra barna með ASD.

Nýleg rannsókn með frekar stóru úrtaki barna með ASD sýnir jákvæð áhrif slokkunar á svefnmynstur (Johnson o.fl., 2013). Þessi jákvæðu áhrif eru þó einungis byggð á mati foreldra. Ef skoðuð voru áhrif með virknimæli (e. actigraphy) kom í ljós að munur milli hópa var ekki marktækt sjáanlegur. Þessar niðurstöður gefa nýjan vinkil á slokknun sem meðferðarúrræði fyrir svefnvandamál barna með ASD og gefa í skyn að foreldrar séu mögulega undir hlutdrægum áhrifum. Þó svo að flest allir foreldrar séu eitthvað hlutdrægir þegar kemur að börnunum sínum þá gæti þessi munur einnig verið skýrður út frá því að mat foreldra á jákvæðum svefntengdum bætingum barna sinna getur mögulega verið mun næmari en mat mælitækja á sama hlut. Eins og fram hefur komið fyrir í þessari úttekt þá eru foreldrar barna með ASD oft undir miklu álagi tengdu svefnvandamálum sem fylgja röskuninni og því mögulegt að þeir finni fyrir jafnvel minnstu breytingu hvað þetta varðar.

Skipulagðir tímar til þess að vakna (e. scheduled awakenings). Þessi aðferð getur verið áhrifamikil þegar börn upplifa næturógnir (e. night terrors; Vriend o.fl., 2011). Þá eru skipulagðir ákveðnir fastir tímamarkar á nóttinni þar sem börnin eru vakin og yfirleitt reynt að hitta þannig á að þau séu vakin rétt áður (u.þ.b. 30 mín) en þau vanalega upplifa næturógnir. V. M. Durand (2002) mældi áhrif þessarar tilteknu meðferðar á þremur börnum með ASD sem upplifðu slakan svefn ásamt því að vera með næturógnir. Eftir

meðferðartímabilið greindi hann frá því að dregið hafði fljótlega og varanlega úr tíðni erfiðleika sem tengdust svefni meðal þátttakenda. Heildarsvefn þeirra varð betri og lengri og meðferðin dró úr næturógnum.

Í yfirliti Vriend og féлага (2011) segja þeir rannsókn Durand (2002) vera aðferðafræðilega vel uppsetta og vellýsta. Því væri hægt að áætla að meðferðarúrræðið sé hugsanlega skilvirkt þegar unnið er með næturógnir meðal barna með ASD. Hins vegar er þetta eina rannsóknin sem gerð hefur verið á skipulögðum tímum til þess að vakna meðal barna með ASD og því lítið sem hægt er að nota til samanburðar.

Aðlögun á líffræðilegri klukku (e. chronotherapy). Lítið er til af rannsóknum sem skoða áhrif aðlögunar á líffræðilegri klukku á svefnmynstur einstaklinga með ASD (Vriend o.fl., 2011). Meðferðin byggir á því að það sé kerfisbundið unnið að því að samræma háttaríma og svefntíma (Vriend o.fl., 2011). Háttatíma er seiknað þar til hann passar við svefntíma einstaklings og kemur þá í veg fyrir að einstalingurinn liggja lengi uppi í rúmi áður en hann sofnar. Aðeins ein rannsókn greinir frá áhrifum meðferðarinnar á 8 ára barn með ASD (Piazza, Hagopian, Hughes og Fisher, 1998). Barnið sýndi skjót jákvæð viðbrögð við inngrípinu og framfarir á svefnmynstri áttu sér stað tafarlaust. Hæfum svefntíma var náð aðeins 11 dögum eftir að meðferð hófst og framfarir mældust enn við 4 mánaða endurskoðun. Vriend og félagar (2011) greina frá því í yfirlitinu að lítið sé hægt að áætla um skilvirkni meðferðarinnar út frá þessari einu rannsókn. Til þess að geta sagt frekar til um virknina þarf frekari rannsóknir á þessu sviði sem byggðar eru á sterkari og breiðari aðferðafræðilegum grunni.

Dofnun áreitis (e. fading stimulus). Dofnun áreitis er þegar ýmis áreiti sem geta haft styrkjandi áhrif á óæskilega hegðun, eins og t.d. foreldrar, eru jafnt og þétt fjarlægð úr umhverfi barnsins þar til svefnvenjur verða betri. Líkt og rannsóknir á aðlögun á líffræðilegri klukku og skipulögðum tímum til þess að vakna, þá eru rannsóknir á áhrifum dofnun áreitis á

svefnvandamál einstaklinga með ASD einnig af mjög skornum skammti. Fyrir yfirlit þeirra Vriend og féлага (2011) hafði dofnun áreitis aðeins verið skoðað í eitt skipti og á einu barni í gamalli rannsókn frá árinu 1984. Þær rannsóknir sem til eru og fjalla um dofnun áreitis meðal þessa tiltekna hóps eru allar með fleiri breytur í einu og því lítið hægt að segja um nákvæm áhrif íhlutunarinnar.

Aðlögun svefntíma (e. faded bedtime: FB/faded bedtime with response cost:

FBRC). Í FB er háttatíma breytt svo einstaklingur fari ekki fyrr í háttinn en u.þ.b. 15 mínútum áður en hann er vanur að sofna (Vriend o.fl., 2011). Síðan er sá tími færður jafnt og þétt fram og markmiðið er að lokum að ná viðeigandi svefntíma. FBRC er svipuð aðferð nema í henni eru afleiðingar ef einstaklingurinn sofnar ekki innan viss tíma sem eru oftast þær að hann er tekinn úr rúminu í u.þ.b. 30 mínútur.

DeLeon, Fisher og Marhefka (2004) skoðuðu áhrif FB á 4 ára strák með ASD sem m.a. vaknaði oft á næturnar ásamt því að sýna sjálfaskaðandi hegðun. Eftir meðferðartímabil vaknaði hann mun sjaldnar á næturna sem virtist einnig hafa áhrif á tíðni sjálfaskaðandi hegðunar. Bæði atferli minnkuðu um rúmlega 80% eftir FB meðferð og má því ætla að inngripið henti vel ef börn með ASD eigi erfitt með að sofa frá kvöldi til morguns og vakna oft á nóttinni. Einnig mætti lesa úr niðurstöðunum að heilstæðari svefn barna með ASD geti mögulega haft jákvæð áhrif á atferli eins og sjálfaskaðandi hegðun. Önnur rannsókn greindi einnig frá framförum á daglegu hegðunarmynstri eftir FBRC meðferð (Moon, Corkum og Smith, 2010). Þrjú börn með ASD og svefnraskanir sýndu styttri svefntöf og bætari hegðun eftir inngrip sem var enn til staðar við 12 vikna endurmat.

Mögulega eru FB og FBRC góð meðferðarúrræði þegar kemur að því að tækla svefnvandamál og óæskilega hegðun meðal barna með ASD. Hins vegar skortir aðferðafræðilega ramma, stærri úrtök og fjölbreyttari snið rannsókna á þessu sviði svo hægt

sé að stjórna utanaðkomandi breytum og þar af leiðandi gefa nákvæmari upplýsingar um skilvirkni þeirra (Vriend o.fl., 2011).

Takmörkun svefns (e. sleep restriction). FB og FBRC eru skyld takmörkun svefns þó að útfærslan sé ekki nákvæmlega sú sama. Í takmörkun svefns er unnið að því að takmarka þann tíma sem barnið eyðir í rúmi sínu eins mikið og hægt er við þann tíma sem fer í það að sofa. Markmiðið er að 90% af þeim tíma sem barnið er í rúminu sé það sofandi. Tvær tilfellarannsóknir hafa skoðað áhrif þessarar meðferðar á svefn 4 ára stelpu og stráks með ASD og báðar greina frá svipuðum niðurstöðum (Christodulu og Durand, 2004; Durand og Christodulu, 2004). Eftir meðferð byggða á takmörkun svefns minnkaði tíðni truflunar í kringum svefntíma og börnin vöknudu ekki eins oft og lengi á næturna. Svefn varði almennt í styttri tíma en fyrir meðferð en foreldrar greindu frá því að þeir væru samt sem áður ánægðari með svefn barnsins. Einnig greindu foreldrar frá betri hegðun barnanna þegar nálgadist svefntíma. Í rannsókn Durand og Christodulu (2004) dró einnig alveg úr þörfinni fyrir foreldra að sofa uppí. Þær rannsóknarniðurstöður sem eru til staðar sýna því jákvæða virkni takmörkun svefns þegar unnið er með svefnvandamál hjá ungum börnum með ASD. Þó eru ýmsir erfiðleikar við túlkun þessara gagna þar sem þau takmarkast við einhæft rannsóknarsnið og lítil úrtök. Frekari rannsóknargrunnur þarf að liggja fyrir áður en áætla má um almenn áhrif þessa tiltekna meðferðarúrræðis.

Vekjaraklukkukerfi (e. alarm systems): Henriksen og Peterson (2013) skoðuðu áhrif vekjaraklukkukerfis á 12 ára stúlku með ASD og áfengisheilkenni fósturs (e. fetal alcohol syndrome). Hún átti erfitt með að halda þvagi á svefntímabili og byggðist meðferðin á því að blöðruvekjaraklukka (e. urine alarm) var föst við stúlkuna meðan hún svaf og lét vita þegar hún þurfti að fara á klósettið. Ef hún vaknaði þurr að morgni til fékk hún síðan hrós (styrkingu). Eftir að hafa verið í meðferðinni í tvær vikur var hún byrjuð að pissa sjaldnar á sig en áður og eftir þrjár vikur var hún alveg hætt að pissa á sig á næturnar sem hélst við 9

mánaða endurskoðun. Augljóslega er lítið hægt að alhæfa út frá einni rannsókn á litlu úrtaki sem þessu. Niðurstöður gefa þó til kynna jákvæð áhrif vekjaraklukkukerfis þegar unnið er með ákveðna svefntengda hegðun eins og blöðruvandamálið meðal unglunga með ASD. Þörf er á fleiri rannsóknum sem takast á við að svara hver nákvæm og almennari áhrif meðferðarinnar eru.

Hugræn atferlismeðferð fyrir fjölskylduna (e. family based cognitive behavioural therapy). Eitt vinsælasta meðferðarúrræðið við svefnleysi einstaklinga með dæmigerðan taugaþroska er hugræn atferlismeðferð (HAM; Brasure o.fl., 2015). Áhrif meðferðarinnar á svefnleysi einstaklinga með ASD hafa þó lítið verið rannsökuð. Nadeau og félagar (2015) skoðuðu nýlega virkni HAM á um 40 unglunga með ASD og kvíðaröskun og fjölskyldur þeirra. Svefntengd vandamál (e. sleep related problems: SRPs) voru mjög algeng meðal þessa hóps (ungmenni með ASD og kvíðaröskun) og þeir sem kláruðu fjölskyldumiðaða hugræna atferlismeðferð upplifðu færri svefntengd vandamál en þeir gerðu fyrir meðferð. Eflaust er erfðara að notast við HAM þegar unnið er með einstaklinga með ASD þar sem meðferðin byggir mikið á samskiptum, að bera kennsl á hugsanir sem stýra ákveðinni hegðun og vera meðvitaður um það þegar þær birtast. Gefið að einstaklingar með ASD eru með taugaþroskaröskun sem í mörgum tilvikum hefur neikvæð áhrif á samskiptahæfileika og málþroska, þá hefur HAM ýmsar takmarkanir þegar unnið er með þessum tiltekna hópi. Fleiri rannsóknir eru nauðsynlegt skref í átt að betri skilningi á möguleikum meðferðarinnar bæði fyrir einstaklinga með ASD sem og fjölskyldumeðlimi þeirra.

Sambland fleiri íhlutana í einu (e. multi-component). Oft er fleiri íhlutunum blandað saman í eina meðferðaráætlun til þess að fá áhrifaríkari nálgun. Eins og fram kom í kaflanum um hollar svefnvenjur, þá er áhrifamest að nota það inngríp samhliða með öðrum mun ákafari atferlis- og svefntengdum meðferðum (Vriend o.fl., 2011). Þær rannsóknir sem skoða inngríp fleiri íhlutana í einu hafa margar verið með stórum úrtökum en þrátt fyrir það

er ekki hægt að áætla nákvæmlega til um almenna skilvirkni meðferðarnálgunarinnar þar sem rannsóknarsnið eru takmörkuð og ónákvæm (Vriend o.fl. 2011). Meðal annars er erfitt að áætla sértæka virkni hvers inngrips fyrir sig og hvernig þau verka saman hverju sinni. Einnig er takmarkað hægt að bera niðurstöður saman þar sem sambland inngripa er sjaldan eins milli rannsókna.

Skoðuð hafa verið áhrif meðferðar sem samanstóð af foreldrafræðslu, ýmsum hollum svefnvenjum, óhefðbundinni slokknun, aðlögun/dofnun (e. fading) og styrkingu (e. rewards) á börn með ASD (Montgomery, Stores og Wiggs, 2004). Meðferðin var bæði veitt í gegnum bækling og í eigin persónu. Í báðum tilfellum virtist hún hafa svipuð jákvæð áhrif. Eftir meðferð minnkaði svefntöf ASD barna og þau vöknudu ekki eins oft á nóttunni eins og fyrir meðferð. Nýleg rannsókn greinir einnig frá svipuðum niðurstöðum áhrifa fleiri inngripa á svefnvenjur barna með ASD (Knight og Johnson, 2014). Þar voru notuð inngripin stjórnun hringrásar svefns og vöku (e. circadian rhythm management), hollar svefnvenjur, hvítt suð (e. white noise) og óhefðbundin slokknun. Á sama tíma hefur einnig verið greint frá niðurstöðum þar sem þau skipti sem börnin vakna á nóttunni fækka ekki í eða eftir meðferð (Reed o.fl., 2009). Í þeirri rannsókn fengu foreldrar barna með ASD kennslu í hefðbundinni og óhefðbundinni slokknun, dofnun áreitis (e. stimulus fading), hollum svefnvenjum, sjónrænum stuðningi (e. visual support) og styrkingaráætlunar (e. reward program). Nálgunin leiddi þó til jákvæðra framfara á öðrum sviðum, m.a. minni svefnleysi og svefntafar meðal barnanna sem og bættari svefnvenja og hegðunar að degi til.

Samantekt og umræður úr töflu 2

Talið er að hollar svefnvenjur séu fyrstu línu meðferð þegar kemur að svefnvandamálum barna með taugafræðilegar þroskaraskanir en þessu úrræði ber að para saman við önnur meðferðarúrræði svo það skili bestum árangri (Blackmer og Feinstein, 2016). Ýmislegt bendir til þess að hollar svefnvenjur ásamt slokknun væri líkleg nálgun til

Þess að bæta vandamál sem tengjast því að sofna og viðhalda svefni (Weiskop o.fl., 2001; Weiskop o.fl., 2005). Ef um næturógnir er að ræða þá væri mögulega hægt að íhuga skipulagða tíma til þess að vakna sem meðferðarnálgun (Durand, 2002). Aðlögun svefntíma getur verið góður kostur ef ASD börn eiga við það vandamál að vakna oft á svefntímabili og sýnir einnig batnandi atferli að degi til sem gæti lofað góðu ef einnig er um erfiða hegðun að ræða samhliða þessu svefntengda vandamáli (DeLeon o.fl., 2004; Moon o.fl., 2010). Fleiri íhlutanir í einu geta verið góður kostur og þar er kannski mikilvægast að meðferðarúrræði séu sett saman á þann hátt að það sé ástæða bak við hvert úrræði og röksemdarfærsla fylgi því hvernig meðferðin er byggð upp. Að lokum þá virðist foreldrafræðsla vera nauðsynleg viðbót við meðferðarúrræði þar sem foreldrar eða aðrir ummönnunaraðilar spila stórt hlutverk í framfylgni íhlutana heima fyrir (Vriend o.fl., 2011).

Almennur skortur er á fjölbreyttum rannsóknum innan hvers meðferðarflokks þegar kemur að atferlistengdum svefnúrræðum meðal barna með ASD. Oft er þörf á frekari rannsóknum innan flokkanna sem gerir það ómögulegt að áætla nákvæmlega til um almenn áhrif tiltekins meðferðarúrræðis á þennan einstaka hóp. Þetta má sjá meðal aðlögunar á líffræðilegri klukku, takmörkunar svefnis og dofnunar áreitis svo nokkur dæmi séu nefnd. Það virðist vera mjög erfitt að ætla að finna einhverja eina uppskrift að því hvernig eigi að nálgast atferlistengd svefnúrræði fyrir börn með ASD. Nauðsynlegt er að aðlaga hvert meðferðarúrræði að einstökum þörfum hvers barns og fjölskyldu þess þar sem gildi og þarfir geta verið mismunandi. Barn með ASD sem hefur takmarkaðan málskilning hefur sem dæmi lítið gagn að því að lesin sé bók fyrir háttinn (Jan o.fl., 2008). Því er lögð áhersla á það að helstu niðurstöður megi nota sem gróf viðmið, en það að einstaklingshæfa meðferðaráætlunina fyrir hvert einstakt barn og fjölskyldu þess sé alltaf í fyrirúmi.

Margt bendir til þess að atferlistengd meðferðarúrræði hafi áhrif þegar unnið er með svefnvandamál barna með ASD. Hins vegar ríkir þörf á bættari og fjölbreyttari aðferðafræði

svo draga megi skýrari ályktanir af virkni sértækra meðferðarúrræða. Þrátt fyrir að ýmsar framfarir hafi orðið á rannsóknargrunni síðastliðin ár þá er enn mikil þörf á frekari rannsóknum sem skoða íhlutanir í mismunandi umhverfum og mismunandi hópum einstaklinga með ASD. Einnig, þar sem flest atferlistengd meðferðarúrræði skilgreinast í ansi víðum skilningi og búa fæst yfir einhverjum föstum römmum, væri góð viðbót ef íhlutanir væru betur einangraðar í rannsóknum svo nákvæmara mætti sjá hvaða nálgun hefur hvaða áhrif.

Önnur meðferðarúrræði

Ýmsar óhefðbundnar aðferðir finnast sem notaðar eru við svefnvandamálum barna með ASD þó svo að þær hafi því miður ekki verið rannsakaðar ýkja mikið. Í bók Kotsirilos, Vitetta og Sali (2011) er greint frá ákveðnum klínískum ráðleggingum þegar unnið er með einstaklinga með ASD og svefnörðuleika. Ráðleggingarnar samanstanda af sex þáttum sem geta bætt svefn: hreyfing við hæfi, nudd fyrir svefntíma, staðfastar svefnvenjur, slökunartónlist og jurtate og magnesíum geta haft jákvæð áhrif (Kotsirilos o.fl., 2011). Þessar aðferðir eru flestar ódýrari, fyrirhafnar- og áhættuminni en bæði atferlis- og lyfjameðferðir, þó svo að þær séu mögulega áhrifaminni.

Þegar kemur að áhrifum óþekktari inngripa á einhverfurófsröskun út af fyrir sig þá er úrval rannsókna meira en ef um sérstök áhrif þeirra á svefn einstaklinga með ASD er að ræða (Rossignol, 2009). Þetta eru sem dæmi hin ýmsu áhrif vítamína, mataræðis og oxytocins svo fá dæmi séu nefnd. Því miður má því segja að almennt sé skortur á mældum áhrifum óhefðbundinna íhlutana á svefn einstaklinga með ASD.

Hér verður farið gróflega yfir hvaða önnur meðferðarúrræði eru í boði við svefnvandamálum barna með ASD. Í framhaldinu verður greint frá helstu atriðum í töflu 3, rannsóknum sem skoða áhrif annara meðferðarúrræða og þeirra helstu niðurstöður.

Niðurstöður úr töflu 3

Ákveðið þrýstingsteppi (e. weighted blanket) hefur verið notað í meðferð og ekki sýnt leiða til hlutlægra framfara hvað varðar svefnvenjur barna með ASD (Gringas o.fl., 2014). Huglægar mælingar frá foreldrum og börnum greina þó almenna ánægju með notkun teppisins. Tónlistarmeðferð hefur heldur ekki sýnt miklar jákvæðar niðurstöður meðal barna með ASD (Gulstad og Thorgaard, 2006). Áhrif úrræðisins virðist vera mjög einstaklingsbundin og því erfitt að segja til um almenna virkni. Mögulega er aukið skynáreiti ekki beint það sem mörg börn með ASD þurfa, þar sem þeirra ofurnæmi á skynáhrifum er líklega ein ástæða þess að þau eiga erfitt með svefn.

Nuddmeðferð sýnir almennt leiða til bættari svefnvenja barna með ASD (Escalona, Field, Singer-Strunck, Cullen og Hartshorn, 2001; Silva, Cognolini, Warren, Budden og Skowron-Gooch, 2007). Hins vegar er eftt að beita samanburði á rannsóknirnar tvær sem fjalla um þetta úrræði þar sem nuddaðferðirnar voru ekki eins. Báðar greina frá því að þau ASD börn sem að fengu nuddmeðferð upplifðu færri svefntengd vandamál en samanburðarhópur og því má áætla að nudd hafi mögulega jákvæð áhrif á svefn barna með ASD. Ljósmeðferð hefur einnig gefið til kynna jákvæðar niðurstöður ef unnið er með ASD börn sem einnig eru með röskun á hringrás svefns og vöku (Cohen o.fl., 2014). Hins vegar er erfitt að finna nákvæmar rannsóknir á áhrifum hennar þegar kemur að svefni einstaklinga með ASD.

Dýr hafa einnig verið þjálfuð til þess að mæta ýmsum þörfum ASD barna (Viau o.fl., 2010). Í rannsókn Viau og féлага (2010) var markmiðið að skoða áhrif þjónustuhunda á seytingu munnvatns og kortisóls á einhverf börn. Komust þeir m.a. að þeim niðurstöðum að magn kortisóls var lægra á morgnana á því tímabili sem þjónustuhundur var til staðar. Af þessum niðurstöðum má áætla að þjónustuhundar geti haft jákvæð áhrif á svefn barna með

ASD, mögulega sökum þeirra slökunaráhrifa sem viðvera þeirra hefur á barnið á morgnana, eða vegna þess að viðvera hundarins að kvöldi og nóttu til leiðir til betri svefns.

Samantekt og umræður úr töflu 3

Erfitt getur verið að áætla út frá þessum rannsóknum hver áhrif hvers meðferðarúrræðis eru. Rannsóknirnar eru frekar aðferðafræðilega takmarkaðar og sýna bæði lítinn mun og áhrif á fáa þátttakendur. Einnig eru margar meðferðir byggðar á einstökum inngrípum sem gerir það að verkum að erfitt er að bera niðurstöður tveggja rannsókna saman. Hins vegar má áætla af gefnum rannsóknum að þessar aðferðir séu ekki eins áhrifamiklar í flestum tilfellum eins og atferlis- og lyfjameðferðir. Það virðist vera frekar einstaklingsbundið hvort inngrípin hafi áhrif og hvaða áhrif þau hafa. Þó er varla hægt að alhæfa að þau virki ekki í einhverjum tilfellum og því um að gera að prófa sig áfram ef þörf er á (einkum þar sem áhættumat er lágt).

Umræður

Niðurstöður gefa til kynna að bæði lyfja- og atferlistengd meðferðarúrræði geti verið áhrifaríkar nálganir þegar kemur að börnum með ASD sem eiga einnig við svefnvandamál að stríða. Algengasta atferlistengda nálgunin sem hefur verið rannsökuð á þessum tiltekna hóp er slokknun en hún virðist vera áhrifarík ef erfiðleikar eru til staðar sem tengjast því að sofna og viðhalda svefni. Auk þess getur verið áhrifaríkt að bæta hollum svefnvenjum við slokknun til þess að auka áhrifin. Niðurstöður sem greina frá virkni melatóníns hafa einnig lofað góðu hvað varðar notkun lyfsins meðal ASD barna sem einnig glíma við svefntengd vandamál. Melatónín er án efa vinsælasta lyfið í svefnmeðferð barna með ASD sérstaklega ef um svefnleysi er að ræða. Góð nálgun getur verið að byrja með atferlistengda meðferð sem virðist passa við einkenni sjúklings og síðar meir bæta við lyfjameðferð ef atferlislálgun ein og sér hefur lítil eða takmörkuð áhrif (Cortesi o.fl., 2010).

Mikilvægt er að hafa í huga einstaklingsbundin einhverfueinkenni þegar niðurstöður rannsókna eru túlkaðar (Johnson o.fl., 2013). Eins og nefnt hefur verið, en verður seint sagt of oft, þá eru einstaklingar með ASD flestir misjafnir. Þeir hafa mismunandi heilastarfsemi, taugafrumutengingar, boðefnaskipti og svo framvegis. Klínískir starfsmenn geta þar af leiðandi stutt sig við fyrirliggjandi gögn en aldrei reitt sig á þau í blindni. Hvert tilfelli verður að nálgast með ákveðinni næmni fyrir þessum einstaklingsmun og því nauðsynlegt að starfsmenn innan klínískra stétta geti lagt almennar niðurstöður til hliðar öðru hvoru og notast við rökbundið mat og almenna skynsemi þegar þeir mæta sjúklingum með ASD og svefnröskun.

Hér ber einnig að nefna ákveðið vandamál sem virðist vera mjög algengt í þeim gögnum sem greina frá svefntengdum meðferðum barna með ASD og voru skoðuð fyrir þessa úttekt. Algengt er að foreldrar séu aðal mælitæki í rannsóknum og oftar en ekki styðjast rannsækendur við mat foreldra sem mælitæki. Stundum eru jafnvel engin önnur mælitæki notuð til þess að meta áhrif meðferðarinnar (sjá t.d. Johnson o.fl., 2013). Þetta getur haft í för með sér ýmis vandamál hvað varðar réttmæti rannsókna og trúverðugleika þeirra. Stundum hefur verið greint frá því að tiltekin meðferð hafi skilað árangri samkvæmt foreldrum barnanna, en þó hafi ekki sést neinn munur með virknimæli. Mögulega eru foreldrar næmari mælitæki en virknimælar þar sem þeir eru oftast huglægir og skynja ef til vill litlar breytingar og bætingar sem virknimælar nema ekki. Mögulega getur hlutdrægni þeirra einnig orðið til þess að þeir verði ónæmari eftir ákveðinn tíma fyrir þeim neikvæðu einkennum sem einstaklingurinn sýnir, þar sem þeirra ósk er að hann sýni ákveðinn bata. Að því gefnu reynist oft erfitt að segja nákvæmlega til um virkni tiltekinnar meðferðar, hvort hún hafi í raun bætt svefnframmistöðu eða hvort um sé að ræða hlutdrægni foreldra þegar kemur að því að greina frá framförum barna sinna.

Að öðru vandamáli. Meirihluti þeirra rannsókna sem fjallað hefur verið um gefur einungis mynd af því hvernig ber að nálgast börn með ASD og svefnvanda. Stundum eiga þær til að teygja aldur barnanna fram á unglingsár en þegar kemur að fullorðnum einstaklingum með ASD þá eru rannsóknir mjög svo af skornum skammti. Flest meðferðarúrræði sem snúa að þeim hópi eru annaðhvort byggð á klínískri reynslu, ósannreyndum aðferðum eða einvörðungu kenningum (Hesselmark, Plenty og Bejerot, 2014). Þetta hefur þær afleiðingar í för með sér að þau svefntengdu meðferðarúrræði sem eru í boði fyrir fullorðna einstaklinga með ASD eru mjög takmörkuð og skila þar af leiðandi takmörkuðum árangri. Hér er lögð áhersla á að rannsakendur snúi sér meira að fullorðnum einstaklingum með ASD þegar kemur að svefntengdum meðferðarúrræðum.

Almennur rannsóknarskortur er á þessu tiltekna umræðuefni og þó svo að margar rannsóknir hafi skoðað meðferðarúrræði fyrir börn með ASD þá eru rannsóknir sem skoða svefntengd meðferðarúrræði fáar og takmarkaðar innan flestra flokka inngripa. Brýn þörf er á því að fleiri og ítarlegri rannsóknir séu gerðar á þessu sviði sem skoða sértæk áhrif einstakra nálgana og gefa færi á nákvæmari niðurstöðum. Það myndi leiða til betri nálgunar samkvæmt vísindalegum leiðbeiningum í meðferðarvinnu klínískra starfsmanna. Einnig myndi frekari rannsóknargrunnur veita færi á upplýstari ákvörðunarferli meðal fjölskyldna og aðstandenda sem eru oft stór hluti af ákvarðanartöku og framfylgni meðferðaferlis ASD barna með svefntengd vandamál. Betri rannsóknargrunnur getur orðið til þess að það sem byggir ofan á grunninn verður sterkara og betra. Slík vinnubrögð leiða að öllu jöfnu til gæðameiri einstaklingsnálgunar sem leiðir til bættrar virkni meðferðar, skýrari starfshátta fyrir klíníska starfsmenn og aukinnar ánægju sjúklinga og aðstandenda.

Segja má að þessi úttekt gefi skýrari mynd af virkni meðferðarúrræða á svefnmynstur barna með ASD. Niðurstöður fyrri ára bjóða bæði upp á ákveðið handrit sem hægt er að styðjast við í klínísku starfi sem og ákveðinn skýrleika hvað varðar næstu skref rannsókna.

Úttektin bendir einnig á ýmsa þætti sem betur mættu fara í framtíðinni ásamt því að sýna hversu takmarkað við í raun getum sagt til um virkni einstakra meðferðaúrræða. Hér er um að ræða nauðsynlega viðbót við þann rannsóknargrunn sem til er. Varpað er ljósi á heildarmyndina og hugmynd gefin að skýrari og markvissari skrefum í átt að betri klínískri starfsemi. Þessi bættu starfsemi getur að öllu jöfnu leitt til betri svefns og hegðun hjá einhverfum, bættari heilsu foreldra, upplýstari ákvarðanatöku aðstandenda og síðast en ekki síst, auknum lífsgæðum þeirra sem eru á einhverfurófinu.

Heimildir

- Adams, H. L., Matson, J. L., Cervantes, P. E. og Goldin, R. L. (2014). The relationship between autism symptom severity and sleep problems: Should bidirectionality be considered? *Research in Autism Spectrum Disorders*, 8(3), 193–199. doi: 10.1016/j.rasd.2013.11.008
- American Academy of Sleep Medicine (2014). *International Classification of Sleep Disorders: Diagnostic & Coding Manual, ICSD-3*. American Academy of Sleep Medicine; 2014.
- Angriman, M., Caravale, B., Novelli, L. Ferri, R. og Bruni, O. (2015). Sleep in Children with Neurodevelopmental Disabilities. *Neuropediatrics*, 46(3), 199–210. doi: 10.1055/s-0035-1550151
- Baio, J. (2014). Prevalence of Autism Spectrum Disorder Among Children Aged 8 Years — Autism and Developmental Disabilities Monitoring Network, 11 Sites, United States, 2010. *Surveillance Summaries*, 63(SS02), 1–21.
- Banerjee, S., Riordan, M. og Bhat, M. A. (2014). Genetic aspects of autism spectrum disorders: Insights from animal models. *Frontiers in Cellular Neuroscience*, 8, 58. doi: 10.3389/fncel.2014.00058
- Betancur, C., Sakurai, T. og Buxbaum, J. D. (2009). The emerging role of synaptic cell-adhesion pathways in the pathogenesis of autism spectrum disorders. *Trends in Neurosciences*, 32(7), 402–412. doi: 10.1016/j.tins.2009.04.003
- Blackmer, A. B. og Feinstein, J. A. (2016). Management of Sleep Disorders in Children With Neurodevelopmental Disorders: A Review. *Pharmacotherapy: The Journal of Human Pharmacology and Drug Therapy*, 36(1), 84–98.
- Brasure, M., MacDonald, R., Fuchs, E., Olson, C. M., Carlyle, M., Diem, S., Koffel, E., Khawaja, I. S., Ouellette, J., Butler, M., Kane, R. L. og Wilt, T. J. (2015).

- Management of Insomnia Disorder*, 159(16)-EHC027-EF. Rockville (MD): Agency for Healthcare Research and Quality (US).
- Chen, F., Lemonnier, E., Lazartigues, A. og Planche, P. (2006). Sleep problems and information processing, a “disconnection effect” in autism? *Medical Hypotheses*, 66(6), 1245–1246. doi: 10.1016/j.mehy.2006.01.004
- Christodulu, K. V. og Durand, V. M. (2004). Reducing Bedtime Disturbance and Night Waking Using Positive Bedtime Routines and Sleep Restriction. *Focus on Autism and Other Developmental Disabilities*, 19(3),130–139. doi: 10.1177/10883576040190030101
- Cohen, S., Conduit, R., Lockley, S. W., Rajaratnam, S. M. og Cornish, K. M. (2014). The relationship between sleep and behavior in autism spectrum disorder (ASD): A review. *Journal of Neurodevelopmental Disorders*, 6(1), 44. doi: 10.1186/1866-1955-6-44
- Cortesi, F., Giannotti, F., Ivanenko, A. og Johnson, K. (2010). Sleep in children with autistic spectrum disorder. *Sleep Medicine*, 11(7), 659–664. doi: 10.1016/j.sleep.2010.01.010
- Cortesi, F., Giannotti, F., Sebastiani, T., Panunzi, S. og Valente, D. (2012). Controlled-release melatonin, singly and combined with cognitive behavioural therapy, for persistent insomnia in children with autism spectrum disorders: a randomized placebo-controlled trial. *Journal of Sleep Research*, 21(6), 700–709. doi: 10.1111/j.1365-2869.2012.01021.x
- Damiani, J. M., Sweet, B. V. og Sohoni, P. (2014). Melatonin: An option for managing sleep disorders in children with autism spectrum disorder. *AJHP: American Journal of Health-System Pharmacy*, 71(2), 95–101. doi: 10.2146/ajhp130215

- DeLeon, I. G., Fisher, W. W. og Marhefka, J. (2004). Decreasing self-injurious behavior associated with awakening in a child with autism and developmental delays. *Behavioral Interventions*, 19(2), 111–119. doi: 10.1002/bin.154
- DeVincent, C. J., Gadow, K. D., Delosh, D. og Geller, L. (2007). Sleep disturbance and its relation to DSM-IV psychiatric symptoms in preschool-age children with pervasive developmental disorder and community controls. *Journal of Child Neurology*, 22(2), 161–169. doi: 22/2/161
- Dosman, C. F., Brian, J. A., Drmic, I. E., Senthilselvan, A., Harford, M. M., Smith, R. W., Sharieff, W., Zlotkin, S. H., Moldofsky, H. og Roberts, S. W. (2007). Children with autism: effect of iron supplementation on sleep and ferritin. *Pediatric Neurology*, 36(3), 152–158. doi: 10.1016/j.pediatrneurol.2006.11.004
- Durand, V. M. (2002). Treating sleep terrors in children with autism. *Journal of Positive Behavior Interventions*, 4(2), 66–72. doi: 10.1177/109830070200400201
- Durand, V. M. og Christodulu, K. V. (2004). Description of a Sleep-Restriction Program to Reduce Bedtime Disturbances and Night Waking. *Journal of Positive Behavior Interventions*, 6(2), 83–91. doi: 10.1177/10983007040060020301
- Edinger, J. D., Fins, A. I., Sullivan, R. J., Marsh, G. R., Dailey, D. S. og Young, M. (1996). Comparison of cognitive-behavioral therapy and clonazepam for treating periodic limb movement disorder. *Sleep*, 19(5), 442–444.
- Embætti landslæknis. (2013). *UNG- OG SMÁBARNNAVERND Leiðbeiningar um heilsuvernd barna 0–5 ára*. Heilsugæslan. Sótt af: http://www.landlaeknir.is/servlet/file/store93/item21268/2ungbarnavernd_leidbeiningar_12.05.13.pdf
- Escalona, A., Field, T., Singer-Strunck, R., Cullen, C. og Hartshorn, K. (2001). Brief report: improvements in the behavior of children with autism following massage therapy. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 31(5), 513–516.

- Evald Sæmundsen, Páll Magnússon, Ingibjörg Georgsdóttir, Erlendur Egilsson og Vilhjálmur Rafnsson (2013). Prevalence of autism spectrum disorders in an icelandic birth cohort. *BMJ Open*, 3(6). doi: 10.1136/bmjopen-2013-002748
- Fadini, C. C., Lamônica, D. A., Fett-Conte, A. C., Osório, E., Zuculo, G. M., Giacheti, C. M. og Pinato, L. (2015). Influence of sleep disorders on the behavior of individuals with autism spectrum disorder. *Frontiers in Human Neuroscience*, 9, 347. doi: 10.3389/fnhum.2015.00347
- Friedman, A. og Luiselli, J. K. (2008). Excessive daytime sleep: behavioral assessment and intervention in a child with autism. *Behavior Modification*, 32(4), 548–555. doi: 10.1177/0145445507312187.
- Goldman, S. E., McGrew, S., Johnson, K. P., Richdale, A. L., Clemons, T. og Malow, B. A. (2011). Sleep is associated with problem behaviors in children and adolescents with autism spectrum disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 5(3), 1223–1229. doi: 10.1016/j.rasd.2011.01.010
- Goldman, S. E., Surdyka, K., Cuevas, R., Adkins, K., Wang, L. og Malow, B. A. (2009). Defining the sleep phenotype in children with autism. *Developmental Neuropsychology*, 34(5), 560–573. doi: 10.1080/87565640903133509
- Grigg-Damberger, M. og Ralls, F. (2013). Treatment strategies for complex behavioral insomnia in children with neurodevelopmental disorders. *Current opinion in pulmonary medicine*, 19(6), 616–625. doi: 10.1097/MCP.0b013e328365ab89
- Gringras, P., Gamble, C., Jones, A. P., Wiggs, L., Williamson, P. R., Sutcliffe, A., Montgomery, P., Whitehouse, W. P., Choonara, I., Allport, T., Edmond, A. og Appleton, R. (2012). Melatonin for sleep problems in children with neurodevelopmental disorders: randomised double masked placebo controlled trial. *BMJ: British Medical Journal*, 345, e6664. doi: 10.1136/bmj.e6664

- Gringras, P., Green, D., Wright, B., Rush, C., Sparrowhawk, M., Pratt, K., Allgar, V., Hooke, N., Moore, D., Zaiwalla, Z. og Wiggs, L. (2014). Weighted Blankets and Sleep in Autistic Children—A Randomized Controlled Trial. *Pediatrics*, *134*(2), 298–306. doi: 10.1542/peds.2013-4285
- Gulstad, S. og Thorgaard, P. (2006). Music intervention among children with autism spectrum disorder and sleeping difficulties. *Musica Humana Research*.
- Harrington, J. W. og Allen, K. (2014). The clinician's guide to autism. *Pediatrics in Review / American Academy of Pediatrics*, *35*(2), 62–78. doi: 10.1542/pir.35-2-62
- Hesselmark, E., Plenty, S. og Bejerot, S. (2014). Group cognitive behavioural therapy and group recreational activity for adults with autism spectrum disorders: A preliminary randomized controlled trial. *Autism*, *18*(6), 672–683. doi: 10.1177/1362361313493681
- Henriksen, N. og Peterson, S. (2013). Behavioral Treatment of Bedwetting in an Adolescent with Autism. *Journal of Developmental and Physical Disabilities*, *25*(3), 313–323. doi: 10.1007/s10882-012-9308-y
- Hollway, J. A. og Aman, M. G. (2011). Sleep correlates of pervasive developmental disorders: A review of the literature. *Research in Developmental Disabilities*, *32*(5), 1399–1421. doi: 10.1016/j.ridd.2011.04.001
- Jan, J. E., Owens, J. A., Weiss, M. D., Johnson, K. P., Wasdell, M. B., Freeman, R. D. og Ipsiroglu, O. S. (2008). Sleep hygiene for children with neurodevelopmental disabilities. *Pediatrics*, *122*(6), 1343–1350. doi: 10.1542/peds.2007-3308
- Johnson, C. R., Turner, K. S., Foldes, E., Brooks, M. M., Kronk, R. og Wiggs, L. (2013). Behavioral parent training to address sleep disturbances in young children with autism spectrum disorder: a pilot trial. *Sleep Medicine*, *14*(10), 995–1004. doi: 10.1016/j.sleep.2013.05.013

- Kawabe, K., Horiuchi, F., Oka, Y. og Ueno, S. (2014). The Melatonin Receptor Agonist Ramelteon Effectively Treats Insomnia and Behavioral Symptoms in Autistic Disorder. *Case Reports in Psychiatry*, 2014, 561071. doi: 10.1155/2014/561071
- Kotsirilos, V., Vitetta, L. og Sali, A. (2011). *A guide to evidence-based integrative and complementary medicine*. Elsevier: Ástralía
- Knight, R. og Johnson, C. (2014). Using behavioural treatment package for sleep problems in autism spectrum disorders. *Child & Family Behaviour Therapy*, 36(3), 204–221. doi: 10.1080/07317107.2014.934171.
- Liu, X., Hubbard, J. A., Fabes, R. A. og Adam, J. B. (2006). Sleep disturbances and correlates of children with autism spectrum disorders. *Child Psychiatry and Human Development*, 37(2), 179–191. doi: 10.1007/s10578-006-0028-3
- Malow, B. A., Adkins, K. W., Reynolds, A., Weiss, S. K., Loh, A., Fawkes, D., Katz, T., Goldman, S. E., Madduri, N., Hundley, R. og Clemons, T. (2014). Parent-Based Sleep Education for Children with Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 44(1), 216–228. doi: 10.1007/s10803-013-1866-z
- Mannion, A., Leader, G. og Healy, O. (2013). An investigation of comorbid psychological disorders, sleep problems, gastrointestinal symptoms and epilepsy in children and adolescents with autism spectrum disorder. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 7(1), 35–42. doi: 10.1016/j.rasd.2012.05.002
- Matson, J. L., Ancona, M. N. og Wilkins, J. (2008). Sleep disturbances in adults with autism spectrum disorders and severe intellectual impairments. *Journal of Mental Health Research in Intellectual Disabilities*, 1(3), 129–139. doi: 10.1080/19315860801988210
- May, T., Cornish, K., Conduit, R., Rajaratnam, S. M. og Rinehart, N. J. (2015). Sleep in high-functioning children with autism: Longitudinal developmental change and

- associations with behavior problems. *Behavioral Sleep Medicine*, 13(1), 2–18. doi: 10.1080/15402002.2013.829064
- Mayes, S. D. og Calhoun, S. L. (2009). Variables related to sleep problems in children with autism. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 3(4), 931–941. doi: 10.1016/j.rasd.2009.04.002
- Mignot, E. (2008). Why we sleep: The temporal organization of recovery. *PLoS Biol*, 6(4), e106. doi: 10.1371/journal.pbio.0060106
- Ming, X., Gordon, E., Kang, N. og Wagner, G. C. (2008). Use of clonidine in children with autism spectrum disorders. *Brain & Development*, 30(7), 454–460. doi: 10.1016/j.braindev.2007.12.007
- Moon, E. C., Corkum, P. og Smith, I. M. (2011). Case study: a case-series evaluation of a behavioral sleep intervention for three children with autism and primary insomnia. *Journal of Pediatric Psychology*, 36(1), 47–54. doi: 10.1093/jpepsy/jsq057
- Montgomery, P., Stores, G. og Wiggs, L. (2004). The relative efficacy of two brief treatments for sleep problems in young learning disabled (mentally retarded) children: a randomised controlled trial. *Archives of Disease in Childhood*, 89(2), 125–130. doi: 10.1136/adc.2002.017202
- Nadeau, J. M., Arnold, E. B., Keene, A. C., Collier, A. B., Lewin, A. B., Murphy, T. K. og Storch, E. A. (2015). Frequency and Clinical Correlates of Sleep-Related Problems Among Anxious Youth with Autism Spectrum Disorders. *Child Psychiatry & Human Development*, 46(4), 558–566. doi: 10.1007/s10578-014-0496-9
- Owens, J. A., Rosen, C. L., Mindell, J. A. og Kirchner, H. L. (2010). Use of pharmacotherapy for insomnia in child psychiatry practice: A national survey. *Sleep medicine*, 11(7), 692–700. doi: 10.1016/j.sleep.2009.11.015

- Park, S., Cho, S., Cho, I. H., Kim, B., Kim, J., Shin, M., Chung, U., Park, T., Son, J. og Yoo, H. J. (2012). Sleep problems and their correlates and comorbid psychopathology of children with autism spectrum disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 6(3), 1068–1072. doi:10.1016/j.rasd.2012.02.004
- Park, H. R., Lee, J. M., Moon, H. E., Lee, D. S., Kim, B. N., Kim, J., Kim, D. G. og Paek, S. H. (2016). A Short Review on the Current Understanding of Autism Spectrum Disorders. *Experimental Neurobiology*, 25(1), 1–13. doi: 10.5607/en.2016.25.1.1
- Piazza, C. C., Hagopian, L. P., Hughes, C. R. og Fisher, W. W. (1998). Using chronotherapy to treat severe sleep problems: A case study. *American Journal on Mental Retardation*, 102(4), 358–366. doi: 10.1352/0895-8017(1998)102<0358:UCTTSS>2.0.CO;2
- Reed, H. E., McGrew, S. G., Artibee, K., Surdkya, K., Goldman, S. E., Frank, K., Wang, L. og Malow, B. A. (2009). Parent-Based Sleep Education Workshops in Autism. *Journal of Child Neurology*, 24(8), 936–945. doi: 10.1177/0883073808331348
- Reynolds III, C. F. og O'Hara, R. (2014). DSM-5 sleep-wake disorders classification: Overview for use in clinical practice. *American Journal of Psychiatry*, 170(10), 1099–1101. doi: 10.1176/appi.ajp.2013.13010058
- Reynolds, A. M. og Malow, B. A. (2011). Sleep and autism spectrum disorders. *Pediatric Clinics of North America*, 58(3), 685–698. doi: 10.1016/j.pcl.2011.03.009
- Richdale, A. L., Baker, E., Short, M. og Gradisar, M. (2014). The role of insomnia, pre-sleep arousal and psychopathology symptoms in daytime impairment in adolescents with high-functioning autism spectrum disorder. *Sleep Medicine*, 15(9), 1082–1088. doi: 10.1016/j.sleep.2014.05.005

- Robinson, A. A. og Malow, B. A. (2013). Gabapentin Shows Promise in Treating Refractory Insomnia in Children. *Journal of Child Neurology*, 28(12), 1618–1621. doi: 10.1177/0883073812463069
- Rossignol, D. A. (2009). Novel and emerging treatments for autism spectrum disorders: a systematic review. *Annals of Clinical Psychiatry*, 21(4), 213–236.
- Rzepecka, H., McKenzie, K., McClure, I. og Murphy, S. (2011). Sleep, anxiety and challenging behaviour in children with intellectual disability and/or autism spectrum disorder. *Research in Developmental Disabilities*, 32(6), 2758–2766. doi: 10.1016/j.ridd.2011.05.034
- Saddichha, S. (2010). Diagnosis and treatment of chronic insomnia. *Academy of Neurology*, 13(2), 94–102. doi: 10.4103/0972-2327.64628
- Schreck, K. A., Mulick, J. A. og Smith, A. F. (2004). Sleep problems as possible predictors of intensified symptoms of autism. *Research in Developmental Disabilities*, 25(1), 57–66. doi:10.1016/j.ridd.2003.04.007
- Schwichtenberg, A. J. og Malow, B. A. (2015). Melatonin Treatment in Children with Developmental Disabilities. *Sleep Medicine Clinics*, 10(2), 181–187. doi: 10.1016/j.jsmc.2015.02.008
- Schwichtenberg, A. J., Young, G. S., Hutman, T., Iosif, A., Sigman, M., Rogers, S. J. og Ozonoff, S. (2013). Behavior and sleep problems in children with a family history of autism. *Autism Research*, 6(3), 169–176. doi: 10.1002/aur.1278
- Sikora, D. M., Johnson, K., Clemons, T. og Katz, T. (2012). The relationship between sleep problems and daytime behavior in children of different ages with autism spectrum disorders. *Pediatrics*, 130(2), 83–90. doi: 10.1542/peds.2012-0900F
- Silva, L. M. T., Cignolini, A., Warren, R., Budden, S. og Skowron-Gooch, A. (2007). Improvement in Sensory Impairment and Social Interaction in Young Children with

- Autism Following Treatment with an Original Qigong Massage Methodology. *The American Journal of Chinese Medicine*, 35(3), 393–406. doi: 10.1142/S0192415X07004916
- Stigler, K. A., Posey, D. J. og McDougle, C. J. (2006). Ramelteon for Insomnia in Two Youths with Autistic Disorder. *Journal of Child and Adolescent Psychopharmacology*, 16(5), 631–636. doi: 10.1089/cap.2006.16.631
- Taylor, M. A., Schreck, K. A. og Mulick, J. A. (2012). Sleep disruption as a correlate to cognitive and adaptive behavior problems in autism spectrum disorders. *Research in Developmental Disabilities*, 33(5), 1408–1417. doi: 10.1016/j.ridd.2012.03.013
- Veatch, O. J., Maxwell-Horn, A. C. og Malow, B. A. (2015). Sleep in Autism Spectrum Disorders. *Current Sleep Medicine Reports*, 1(2), 131–140. doi: 10.1007/s40675-015-0012-1
- Viau, R., Arsenault-Lapierre, G., Fecteau, S., Champagne, N., Walker, C. og Lupien, S. (2010) Effect of service dogs on salivary cortisol secretion in autistic children. *Psychoneuroendocrinology*, 35(8), 1187–1193. doi: 10.1016/j.psyneuen.2010.02.004
- Vriend, J. L., Corkum, P. V., Moon, E. C. og Smith, I. M. (2011). Behavioral Interventions for Sleep Problems in Children With Autism Spectrum Disorders: Current Findings and Future Directions. *Journal of Pediatric Psychology*, 36(9), 1017–1029. doi: 10.1093/jpepsy/jsr044
- Weiskop, S., Matthews, J. og Richdale, A. (2001) Treatment of sleep problems in a 5-year-old boy with autism using behavioural principles. *Autism*, 5(2), 209–221. doi: 10.1177/1362361301005002009
- Weiskop, S., Richdale, A. and Matthews, J. (2005), Behavioural treatment to reduce sleep problems in children with autism or fragile X syndrome. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 47(2), 94–104. doi: 10.1111/j.1469-8749.2005.tb01097.x

- Wiggins, L. D., Levy, S. E., Daniels, J., Schieve, L., Croen, L. A., DiGuseppi, C., . . . Pinto-Martin, J. (2015). Autism spectrum disorder symptoms among children enrolled in the study to explore early development (SEED). *Journal of Autism and Developmental Disorders, 45*(10), 3183–3194. doi: 10.1007/s10803-015-2476-8
- Wirojatanan, J., Jacquemont, S., Diaz, R., Bacalman, S., Anders, T. F., Hagerman, R. J. og Goodlin-Jones, B. L. (2009). The Efficacy of Melatonin for Sleep Problems in Children with Autism, Fragile X Syndrome, or Autism and Fragile X Syndrome. *Journal of Clinical Sleep Medicine, 5*(2), 145–150.
- Youssef, J., Singh, K., Huntington, N., Becker, R. og Kothare, S. V. (2013). Relationship of serum ferritin levels to sleep fragmentation and periodic limb movements of sleep on polysomnography in autism spectrum disorders. *Pediatric Neurology, 49*(4), 274–278. doi: 10.1016/j.pediatrneurol.2013.06.012
- Zoghbi, H. Y. og Bear, M. F. (2012). Synaptic dysfunction in neurodevelopmental disorders associated with autism and intellectual disabilities. *Cold Spring Harbor Perspectives in Biology, 4*(3), a009886. doi: 10.1101/cshperspect.a009886.

Viðauki

¹ Tölur 1-3

Tafla 1. Lyfjameðferðir: Yfirlit á þeim lyfjum sem notuð eru í meðferð við svefnröskunum hjá einstaklingum með ASD.

Lyf (agent)	Virgni	Verkar á	Rannsóknir og helstu niðurstöður þeirra
Járn (e. iron) ýmsar saltlausnir	Endurnýjun járns ýtir undir flutning á súrefni um hemóglóbín (eykur virkni rauðu blóðkorna).	ASD	<p>Dosman o.fl., 2007. Pilot study: 8 viku meðferðartímabil. 33 börn fengu járnviðbót í gegnum munn. Niðurstöður gefa til kynna að það sé samband milli svefnvandamála og járnleysi hjá börnum með ASD. 77% upplifðu ófullnægjandi svefn en upplifðu marktækar framfarir eftir inntöku járns iron therapy). Meðalgildi ferrítins jókst marktækt, eða frá 16 ng/mL í 29 ng/mL og á sama tíma jókst styrkur og gildi rauðra blóðkorna.</p> <p>Youssef, Singh, Huntington, Bevker og Kothare, 2013. Afturvirkir yfirlit: tölfræðileg vinna. Yfirlit á grafi sem sýnir börn með ASD frá árinu 1990-2010. Börn á einhverfurófi mældust með meðalgildi ferratins uppá 27 ng/mL á meðan samanburðarhópur mældist uppá 86 ng/mL ($p<0.01$). Meðal einhverfa voru þeir sem upplifðu lélega skilvirkni svefns með mun lægri meðalgildi en þeir sem voru einhverfir en upplifðu ekki svefntruflanir, eða 7 ng/mL á móti 29 ng/mL ($p<0.01$).</p> <p>Blackmer og Feinstein, 2016. Yfirlitsgrein. Tiltæk gögn sem finnast um járn hjá ASD eru takmörkuð. En samt sem áður er ákveðið samband milli lágs ferratins gildi og ófullnægjandi svefns meðal ASD barna og einnig virðist vera samband milli uppbótameðferð járn og betri gæði svefns. Niðurstöður til þessa eru byggðar á klíniskri reynslu frekar en sterkum grunni rannsókna sönnunargagna.</p>
Melatonín (e. Melatonin)	Hormón sem er framleitt í heiladingli (e. pineal gland) sem hefur stjórn á hringrás svefns (e. sleep cycle).	ASD, FXS, Angelman röskun Rett's og Smith-Magenis röskun.	<p>Wirojanan o.fl., 2009. Rannsókn: 4 vikna samanburðarrannsókn með lyfleysu – tvíblind og með slembskiptingu í hópa. Meðalsvefntími yfir nóttina var 21 mín lengri ef ASD og FXS börn voru á melatonín meðferðarkúr en þeir sem fengu lyfleysu ($p=0.02$). Einnig var svefntöf 28 mín styttri ($p=0.0001$) og meðaltíminn sem börnin sofnuðu á kvöldin færðist fram um 42 mín ($p=0.02$).</p> <p>Gringras o.fl., 2012. Rannsókn: 12 vikna samanburðarrannsókn með lyfleysu – tvíblind og með slembiskiptingu í hópa. Melatonín jók svefntíma ASD barna um 22.4 mínútur og minnkaði svefntöf ($p<0.05$). Meðferðin var áhrifamest hjá þeim með lengstu svefntöfina fyrir meðferð ($p=0.009$). Melatonín varð til þess að börnin vöknðu fyrr en þau sem fengu lyfleysu. Hegðun ASD barna varð betri og einnig fjölskyldustarfsemin í heild (en samt ekki marktækur munur þar).</p> <p>Damiani, Sweet og Sohoni, 2014. Yfirlitsgrein. Rannsóknir á börnum með ASD eru takmarkaðar vegna þess að úrtakshópar eru oftast litlir, erfitt getur verið að mæla útkomuna á hlutlegan hátt og einnig þá eru rannsóknarsniðin sem notuð eru mjög takmörkuð þar sem ekki er hægt að notast við slembiúrtök (hætta á að aðrar breytur séu að hafa áhrif). Heilt á litið þá er melatonín örugg lyfjameðferð fyrir börn með ASD sem einnig eru með svefnvandamál sem tengjast svefntöf eða lengd svefns. Vantar fleiri niðurstöður varðandi eftirfylgni meðferðar og hvernig einstaklingarnir bregðist við til lengri tíma. Staðlaður skammtur og tími milli skammta er ekki til.</p> <p>Schwichtenberg og Malow, 2015. Yfirlitsgrein. Stuttar meðferðir sýna marktæka minnkun á svefntöf og lítið er um að ASD börn kvarti yfir aukaverkunum. Ef svo er eru þær vægar. Rannsóknir sem gerðar hafa verið fyrir þetta yfirliti gefa til kynna jákvæða virkni melatonín á svefnvandamál barna með ASD.</p> <p>Blackmer og Feinstein, 2016. Yfirlitsgrein. Melatonín er mögulega best rannsakaða svefnmeðferðin. Í praktik er þessi meðferð oft notuð hjá börnum með NDDs í skammtastærð frá 1 og uppí 10 mg fyrir svefntíma. Foreldrar og</p>

ummönnunaraðilar greina frá mismunandi virkni en samkvæmt rannsóknum þá greina þeir oftast frá þessari meðferð sem áhrifaríkri til þess að hefja svefn (minnka svefntöf) en ekki eins áhrifaríkri til þess að viðhalda svefni. Klínískir starfsmenn ættu því ávalt að bera mat á því hvort barnið eigi erfitt með upphaf svefns eða hvort að það eigi erfitt með að viðhalda svefni yfir nóttina, áður en þeir ákveða hvort hefja eigi melatónín meðferð.

Ramelteon	Melatónín agónisti, virkar á MT1 og MT2 viðtaka. Jafnar hringrás svefns og vöku.	ASD	<p>Stigler, Posey og McDougle, 2006. Tilfellarannsókn: open-label trial. 2 unglíngar með ASD skoðaðir. Neikvæð einkenni sem fylgja því að upplifa annaðhvort svefntöf eða vakna oft á næturnar minnkuðu mikið/mjög mikið með ramelteon. Gott þol virðist vera fyrir lyfinu og ekki var greint frá sljóvgangi áhrifum þess að degi til. Þörf á fleiri rannsóknum til þess að staðfesta öryggi, þolmyndun og virkni lyfsins hjá börnum og fullorðnum með ASD.</p> <p>Kawabe, Horiuchi, Oka og Ueno, 2014. Tílfellarannsókn. 3 börn með ASD skoðuð þar sem ramelteon bætti einkenni svefns að nóttu til. Svefnleysi og ASD tengd hegðun urðu betri í tveimur tilfellum ef gefið var 2 mg/á dag ramelteon, en í þriðja tilfallinu urðu bætingar við 8 mg/á dag af ramelteon. Þessi þrjú tilfelli sýndu að ramelteon í minni skömmtum hefur jákvæð áhrif á svefnleysi og hegðun hjá börnum með ASD (venjulega er skammtur í kringum 4-32 mg hjá einstaklingum sem ekki eru með ASD).</p> <p>Blackmer og Feinstein, 2016. Yfirlitsgrein. Þær greinar sem til eru um virkni ramelteon á börn með ASD sem upplifa svefnvandamál eru af skornum skammti og hafa ýmsar takmarkanir eins og litla úrtaksstærð, skort á samamburði, rannsóknarsnið er ekki sterkt, tími mælinga/meðferðar er stuttur og skortur er á því hvað gögnin segja til lengri tíma (eftirfylgni). Þörf er á fleiri klínískum niðurstöðum og frekari gagnasöfnun áður en lyfið breiðist út.</p>
Klónidín (e. Clonidine)	Örvar α_2 viðtaka. Virkjar hamlandi taugafrumur sem leiðir til færri sjálfráða viðbragða, minni vasomotor viðbragða sem og róar hjartslátt.	ASD, NDDs (almennt)	<p>Ming, Gordon, Kang og Wagner, 2008. Pilot study: Meðferð + afturvirk rannsókn. 19 börn með ASD á aldrinum 4-16 og einnig með svefn- og hegðunarvandamál (17), eða bara með hegðunarvandamál (2). Allir sem áttu erfitt með að sofna upplifðu marktækar bætingar hvað það varðar þar sem það tók þá að meðaltali 2 – 5 tíma að sofna fyrir klónidín meðferð en 30 mín – 2 tíma eftir meðferð ($p < 0.0001$). 16 af 17 urðu bættari í því að viðhalda svefni eftir meðferðina en þeir vöknúðu að meðaltali 0 – 5 x yfir nóttina fyrir meðferð en 0 – 2 x eftir meðferð ($p < 0.0001$). Einnig var hófleg minnkun á einbeitingaskorti vegna ofvirkni, tilfinningalegu ójafnvægi og árásgirni hjá öllum 19. Aukaverkanir voru að mestu leyti þolanlegar.</p> <p>Blackmer og Feinstein, 2016. Yfirlitsgrein. Klónidín er oft notað þegar börn með NDDs eiga erfitt með svefn, sérstaklega ef þau eiga einnig við ákveðin hegðunarvandamál að stríða. Þó að lyfið hafi ágæta virkni þá ætti ávalt að vera á varðbergi þegar það er notað í meðferð og þá sérstaklega ef börn eru að taka CNS-þunglyndislyf samhliða eða ef einstaklingur er með óstöðugan blóðþrýsting eða hjartagalla. Sá sem gefur lyfið ætti að vera meira á varðbergi eftir því sem fleiri samhliða breytur spila inni því ýmsar skekkjur geta orðið þegar lyfið blandast við önnur lyf eða breytur.</p>
Gabapentín (e. Gabapentin)	Fítusækinn hliðaruppbygging af γ -aminobutyric sýru, eða það sem kallast GABA. Skilt GABA en bindist ekki GABA viðtökum.	NDDs (almennt)	<p>Robinson og Malow, 2013. Gabapentín-meðferð. 23 börn, 87% þeirra voru greind með NDDs og 70% voru einnig með svefnleysi sem einkenndist af bæði svefntöf og truflun. 78% barnana upplifðu betri svefn eftir meðferðina. 6 börn greindu frá aukaverkunum sem minnkuðu ef skammturinn var annaðhvort minnkaður eða meðferðin stöðvuð.</p> <p>Angriman, Caravale, Novelli, Ferri og Bruni, 2015. Yfirlitsgrein. Þetta er lyf fyrir hlutbundin flog. Minni skammtastærð fyrir NDDs einstaklinga en flogaveika (5-15 mg/kg fyrir svefn á móti 40 mg/kg 3x á dag). Fyrri rannsóknir tala um að lyfið sé öruggt og vel-þolanlegt. Mögulega hefur gabapentín jákvæð áhrif þegar unnið er með svefnvandamál hjá einstaklingum með NDDs, en þörf er á stærri skipulögðum tilraunum áður en hægt er að segja til um virkni þess.</p> <p>Blackmer og Feinstein, 2016. Yfirlitsgrein. Þær greinar sem farið er í í þessari yfirlitsgrein gefa í skyn að gabapentín sé áhrifarík meðferð fyrir börn með NDDs. Hins vegar er það í raun ekki mikið notað þegar kemur að fyrsta</p>

flokks (e. first line) svefnlyfjum. Lyfið getur bætt svefn hjá þeim börnum sem eru að taka gabapentín við öðrum samhliða sjúkdómum (s.s. jákvæðar aukaverkanir). Yfirlitsgreinin sýnir að það er þörf á mun fleiri rannsóknarniðurstöðum til þess að staðfesta þetta allt saman.

Önnur lyf

NDDs

Punglyndislyf

Owens, Rosen, Mindell og Kirchner, 2010. Spurningakönnun.

Punglyndislyf eru stundum notað sem off-label til þess að vinna með þrálátt svefnleysi meðal barna með NDDs. Lítið sem stíður notkun lyfsins ef aðeins er um svefnvandamál að ræða. Ætti aðeins að vera íhugað ef samhliða einkenni eru til staðar (eins og t.d. þunglyndi). Trazadone (róandi þunglyndislyf) var mest ávísað svefnlyf til þeirra sem barna sem áttu við lyndis- og kvíðaraskanir að stríða.

Blackmer og Feinstein, 2016. Yfirlitsgrein. Trazadone er oft notað í klínísku starfi þegar unnið er með svefnleysi (e. insomnia) barna með NDDs. Hins vegar hefur lyfið verið lítið sem ekkert rannsakað á þennan hóp. Þrátt fyrir mikinn skort á skilvirkum gögnum rannsókna hefur lyfinu verið lýst sem áhrifamiklu þegar unnið er með börn með NDDs og getur hentað sumum einstaklingum betur en önnur lyf (t.d. ef um hliðarraskanir eru að ræða). Aukaverkanir geta verið syfja að degi til, hjartsláttartruflanir og háþrýsitingur. Mikilvægt er að vera á varðbergi ef karlmenn eru settir á lyfið, þar sem það gæti skapað langvinna standpínu (e. priapism).

Geðrofslyf

Owens, Rosen, Mindell og Kirchner, 2010. Spurningakönnun. Óhefðbundin geðrofslyf eru stundum notað sem off-label til þess að vinna með þrálátt svefnleysi meðal barna með NDDs. Lyfið oft notað í svefnmeðferð þeirra barna með samhliða lyndisraskanir.

Grigg-Damberger og Ralls, 2013. Yfirlitsgrein. Aðeins á að íhuga geðrofslyf (riperidone, aripiprazole) í svefnmeðferð barna með ASD ef samhliða einkenni eins og reiði, skapstyggð, sjálfaskaðandi hegðun eða þirringur er til staðar.

Svefnlyf

Blackmer og Feinstein, 2016. Yfirlitsgrein. Áhrif róandi svefnlyfja sem eru ekki benzodíazepín hefur varla verið rannsakað á einhverfum. Hins vegar gefur ýmist til kynna að lyfið hafi ekki áhrif ef börn eru með ADHD og ætti því að hafa í huga ef barn með ASD sýnir einnig ADHD einkenni. Aukaverkanir geta verið algengar og miklar, en þetta eru sem dæmi svimi, hausverkur og ofskynjun. Af því gefnu að lítið sé vitað um virkni lyfsins á ASD og sterkar vísbendingar um aukaverkanir og eytranir, þá er ekki mælt með róandi svefnlyfjum þegar unnið er með svefnvandamál barna með NDDs.

Benzodíazepín fyrir svefnvanda (Clonazepam)

Edinger o.fl., 1996. Rannsókn. Skoðuð áhrif clonazepam á fullorðnum einstaklingum með NDDs. Lyfið bætti marktækt periodic limb movement disorder og dró úr þeim skiptum sem þátttakendur vöknudu á næturna.

Angriman o.fl., 2015. Yfirlitsgrein. Lyf sem er fyrstu línu meðferð við svefnleysi meðal fullorðna einstaklinga en því miður hefur vaknað grunur um það að lyfið geti leitt til vitrænnar skerðingar og rebound effects til svefnleysis. Einnig virðist stór hópur verða háður lyfinu. Þegar um er að ræða börn með NDDs þá getur clonazepam verið meðferðarkostur ef einnig er unnið með arousal disorder, periodic limb movement disorder eða restless leg syndrome. Hins vegar er mjög lítið til af rannsóknum sem skoða áhrif þess hjá þessum tiltekna hópi.

AND; autism spectrum disorder og vísar til einstaklinga sem eru greindir með raskanir á einhverfurófi. NDDs; neurodevelopmental disorder og vísar til einstaklinga sem eru greindir með taugafræðilegar þroskaraskanir. GABA; hamlandi boðefni í miðtaugakerfinu. EKG; hjartalínurit. FXS; fragile X syndrome og vísar til einstaklinga sem eru með brothætt X heilkennið. ADHD; attention-deficit hyperactivity disorder og vísar til einstaklinga með ofvirkniroskun.

Tafla 2. Atferlismeðferðir: Yfirlit yfir þau atferlistengdu úrræðum sem notuð eru í svefnmeðferðum meðal barna með ASD.

Meðferð	Lýsing	Auka	Rannsóknir og helstu niðurstöður þeirra
Fræðsla fyrir foreldra (e. Parent Education)	Foreldrar eða ummönunaraðilar fá fræðslu um iðlutanir og hvernig sé best að framfylgja þeim.	Mikilvægt að foreldrar fái viðeigandi fræðslu því þeir sjá oftast um það að fylgja iðlutunum eftir (sérstaklega þegar um börn með ASD er að ræða).	Johnson o.fl., 2013. Pilot study: samanburðar. Þátttakendur voru foreldrar 40 barna með ASD (meðalaldur 3.5). Annar hópurinn fékk BPT og hinn hópurinn fékk ósvefntengda fræðslu fyrir foreldra. Byggt á niðurstöðum sem foreldrar greindu frá (e. parent report), urðu marktækt meiri framfarir á svefnvandamálum ASD barna í BPT hópnum. Malow o.fl., 2014. Rannsókn: samanburðar. Skoðað hvort svefntengd fræðsla meðal foreldra barna með ASD skilaði meiri árangri ef miðluð í hóp eða einstaklings. 80 börn með ASD og svefntöf (e. sleep onset delay), 2-10 ára. Ekki munur á því hvort fræðslu sé miðlað í hóp eða einstaklings. Báðir hópar upplifðu minni svefntöf (58.2 í 39.6 mín, <0.0001) og svefnleysi (samkv. foreldrum). Einnig varð virkni bæði barns og fjölskyldumeðlima betri.
Hollar svefnvenjur (e. Sleep Hygiene)	Unnið að því að bæta svefnvenjur með bættari aðferðum.	Dæm um aðferðir: koma upp ákveðinni rútinu hvað varðar svefn, vera með áætlaðan svefntíma, minnka áreiti frá umhverfinu eins og t.d. ljós, hávaða o.fl.	Jan o.fl., 2008. Yfirlitsgrein. Þegar kemur að börnum með ASD þá gæti þurft að aðlaga hollar svefnvenjur að einstökum þörfum hvers barns og þeirra fjölskyldu vegna þess hversu einstakt hvert tilfelli er. Vriend, Corkum, Moon og Smith, 2011. Yfirlitsgrein. Aðeins tvær rannsóknir höfðu mælt hollar svefnvenjur einar og sér þegar greinin er skrifuð. Hollar svefnvenjur eru ekki nóg þegar unnið er með svefnvandamál barna með ASD. Aðferðin er oft notuð sem ákveðin viðauki með öðrum aðferðum sem eru byggðar á mun ákafari atferlis- og svefntengdum inngrípum. Má segja að hollar svefnvenjur séu nauðsyn þegar unnið er að bættari svefni meðal einstaklinga með ASD, en á sama tíma eru þær ekki nægjanlegar einar og sér. Blackmer og Feinstein, 2016. Yfirlitsgrein. Hollar svefnvenjur er fyrstu línu meðferð við svefntruflunum hjá börnum með NDDs (og þar að leiðandi börnum með ASD). Meðferðarúrræðið verður að vera notað samhliða með öðrum meðferðarúrræðum svo þau séu áhrifarík. Í heilbrigðiskerfinu er stundum horft framhjá hollum svefnvenjum þegar kemur að börnum með NDDs þar sem erfitt getur verið að framfylgja aðferðinni meðal þessa tiltekins hóps og krefst það oft mikillar vinnu, endurskoðunar og endurmati um ýmsar breytingar. Þrátt fyrir að erfitt geti verið að framfylgja úrræðinu þá er mikilvægt að hafa það með þegar unnið er með þessum hópi.
Slokknun (e. Extinction)	Þegar unnið er að því að ákveðin hópur t.d. einkenna deyi út með því að hunsa (e. ignore) það sem á sér stað frá svefntíma barns og til morguns.	Skiptist gróft í hefðbundna (e. standard/SE: engnin afskipti) og tímabundna (e. graduated/GE: afskipti eftir ákveðin tíma ef óróleg hegðun er enn til staðar).	Weiskop, Matthews og Richdale, 2001. Tilfellarannsókn: concurrent margföld-grunnlína. Áhrif SE skoðuð á 5 ára strák með ASD. Sjálfslökun (e. self-settling) og co-sleeping varð betra eftir inngríp. SE varð til þess að strákurinn vaknaði sjaldnar yfir nóttina en hann gerði fyrir inngríp og að lokum lærði hann að sofna og sofa sjálfur alla nóttina. Weiskop, Richdale og Matthews, 2005. Rannsókn: concurrent margföld-grunnlína. 5 börn með ASD, 1 með aspergen (6) og forldrar þeirra voru hluti af rannsókninni. Öll börn sem upplifðu svefntengd vandamál sýndu bætingar eftir iðlutun hefðbundinnar slokknunar. Tíðni truflunar fyrir svefn minnkaði, börnin sofnuðu oftar sjálf, það dró úr vöku að nóttu til (e. night awakenings) og það dró einnig úr því að foreldrar sváfu uppí (e. cosleeping). Friedman og Luiselli, 2008. Tilfellarannsókn: ABAB snið. Skoðað áhrif slokknun á 13 ára strák með ASD sem svaf mikið að degi til. Slokknun varð til þess að lokum að strákurinn hætti að sofna yfir daginn (e. day time sleep) sem var ennþá raunin í 6 mánaða endurskoðun. Vriend o.fl., 2011. Yfirlitsgrein. SE dró úr vöku að nóttu til hjá

börnum með ASD í öllum þrem rannsóknunum sem skoðaðar voru og bætingarnar voru enn til staðar eftir 6 – 12 mánuði. Að því gefnu er SE talin hugsanlega skilvirk aðferð. GE dró úr svefntöf og truflun (2 rannsóknir skoðaðar). Einnig dró það úr því að foreldrar sváfu uppí. Hins vegar voru rannsóknirnar um GE aðferðafræðilega takmarkaðar og því erfitt að áætla nákvæma skilvirkni.

Johnson o.fl., 2013. Tilraun: small randomized controlled trial. Þátttakendur voru foreldrar 40 barna með ASD (meðalaldur 3.5 ára). Helmingur fékk inngrip (20). Þeir sem fengu inngrip upplifðu marktækt betri svefn en samanburðarhópur ef byggt á skýrslum foreldra. Hins vegar mældist enginn hlutlægur munur með virknimæli (e. actigraphy).

Durand, 2002. Rannsókn: margföld-grunnlina meðal allra þáttakenda. Mælt áhrif meðferðar (e. scheduled awakenings) á sleep terrors meðal barna með ASD (þrjú börn, 3-7 ára). Meðferðin dró fljótlega og varanlega úr tíðni erfiðleika sem tengdust svefni. Heildarsvefn varð betri/lengri og einnig drógst úr næturögnum.

Vriend o.fl., 2011. Yfirlitsgrein. Aðeins ein rannsókn hafði skoðað skipulagða tíma til þess að vakna aðferðina meðal barna með ASD. Hins vegar greina höfundar frá því að hún hafi verið aðferðafræðilega vel uppsett og vellýst. Af þeim ástæðum telja þeir að meigi áætla að þessi aðferð sé hugsanlega skilvirk þegar unnið er með næturögnir meðal einstaklinga með ASD.

Piazza, Hagopian, Hughes og Fisher, 1998. Tilfellaannsókn. 8 ára barn með ASD skoðaður meðan á chronotherapy stöð. Tafarlausar framfarir áttu sér stað í svefnmynstri barnsins eftir að meðferð hófst. Hæfum svefntíma var náð á 11 dögum og virtist haldast eftir 4 mánuði.

Vriend o.fl., 2011. Yfirlitsgrein. Þar sem aðeins ein rannsókn hefur skoðað áhrif chronotherapy er ekki hægt að segja til um það hvort meðferðarúrræðið sé hugsanlega skilvirkt eða ekki. Til þess að geta sagt eitthvað til um það þar frekari og sterkari rannsóknargrunn.

Vriend o.fl., 2011. Yfirlitsgrein. Aðeins greint frá einni rannsókn sem skoðar dofnun áreitiss eitt og sér (mjög gömul, frá 1984). Aðrar rannsóknir til, en þær eru yfirleitt að mæla sameinuð áhrif dofnun áreitiss og fleiri iðlutana. Gögn sem segja til um virkni dofnun áreitiss eru mjög af skornum skammti og takmarkast við eina rannsókn á einu barni með ASD. Því er erfitt að áætla sértæk áhrif þessarar iðlutunar fyrir en frekari niðurstöður rannsókna liggja fyrir.

DeLeon, Fisher og Marhefka, 2004. Rannsókn: bein athugun. Mælt áhrif FB meðferðar á 4 ára stráka með ASD sem sýndi sjálfskaðandi hegðun ásamt því að vakna oft á nóttinni. FB meðferð fækkaði þeim skiptum sem hann vaknaði á nóttinu um 81% sem hafði áhrif á tíðni sjálfskaðandi hegðunar, en hún minnkaði um 82%.

Moon, Corkum og Smith, 2011. Tilfellarannsókn: within groups. Mælt áhrif FBRC á þrjú börn með ASD, 8-9 ára. Öll þrjú börnin sýndu styttri svefntöf eftir inngrip meðferðar sem héldust ennþá við 12 vikna endurmat. Börnin sýndu einnig bættari hegðun að degi til.

Vriend o.fl., 2011. Yfirlitsgrein. FB uppfyllir ekki kröfur til þess að vera talin hugsanlega skilvirkt meðferðarúrræði. Greint hefur verið frá því samtals í rannsóknunum að 9 einstaklingar með ASD hafa hlotið góðs af með FB tengdri meðferð. Hins vegar hafa þessar rannsóknir ýmist skort aðferðafræðilega ramma, verið með of lítil úrtök og aðeins notað A-B snið sem gerir það að verkum að erfitt er að stjórna fyrir utanaðkomandi breytum sem mögulega geta haft áhrif.

Skipulagðir tímar til þess að vakna (e. Scheduled Awakenings)

Ef börnin upplifa næturögnir eru skipulagðir tímar yfir svefntímabilið þar sem þau eru vakin (t.d. 30 mín áður en tilvonandi sleep terror ástand á sér stað).

Aðferðin hefur verið áhrifamikil þegar unnið er með börn sem upplifa næturögnir

Aðlögun á líffræðilegri klukku (e. Chronotherapy)

Kerfisbundin samræming á háttartíma og svefntíma. Seinkun á háttartíma og einnig þeim tíma sem einstaklingur vaknar. Á meðan er viðhaldið reglulegri dagskrá að degi til.

Hér er aðal áherslan á að farið sé í háttinn seinna en áður svo einstaklingur sé ekki að liggja anvaka í rúminu áður en hann sofnar.

Dofnun áreitiss (e. Fading Stimulus)

Áreitiss (eins og foreldri/ar eða aðrir styrkjar) sem hafa áhrif á svefn er jafnt og þétt fjarlægð.

Aðalega notað þegar markmiðið er að draga úr því að foreldrar sofi uppí eða börn uppí hjá foreldrum (e. cosleeping).

Aðlögun svefntíma (e. Faded Bedtime (FB) /Faded Bedtime With Response Cost (FBRC))

Kerfisbundin aðferð til þess að flýta svefntíma þar til markmiði (viðeigandi svefntími) er náð.

FBRC er það sama nema ef barnið sofnar ekki innan viss tíma er það tekið úr rúminu sem er þá response cost, og síðan sett aftur í rúmið eftir ca 30 mín.

Takmörkun svefns (e. Sleep Restriction)	Felst í því að takmarka þann tíma sem barnið er í rúminu sínu.	Aðeins 10% af þeim tíma má vera meðan barnið er vakandi. 90% verður að vera sá tími sem barnið er sofandi.	Christodulu og Durand, 2004. Tilfellarannsókn: margföld-grunnlína. Áhrif takmörkun svefns voru mæld hjá 4 ára strákm með ASD. Eftir inngrip meðferðar minnkaði tíðni truflunar í kringum svefntíma og einnig var fækkun í fjölda og lengd þeirra skipta sem barnið vaknaði á nóttinni. Barnið svaf almennt í styttri tíma en fyrir meðferð, en samt sem áður greindu foreldrar frá því að þeir voru ánægðari með svefn barnsins og hegðun þess í kringum svefntíma.
Fleiri íhlutnir í einu (e. Multi-Component Intervention)	Þegar fleiri íhlutnir eru teknar saman og notaðar í meðferð.		Durand og Christodulu, 2004. Tilfellarannsókn: margföld-grunnlína. Áhrif takmörkun svefns voru mæld hjá 4 ára stúlku með ASD. Svipaðar niðurstöður og hjá Christodulu og Durand, 2004, nema í þessari rannsókn dróg einnig alveg úr co-sleeping.
			Montgomery, Stores og Wiggs, 2004. Samanburðartilraun: randomized. Af þeim 45+ börnum í rannsókninni voru 21 með ASD og voru á aldrinum 2-8 ára. Verið að athuga mun á því hvort væri áhrifameira að gefa meðferð í eigin persónu (e. face-to-face), eða með bæklingi (e. booklet-delivered). Inngrip voru foreldrafærðsla, mismunandi hollar svefnvenjur, óhefðbundna slokkun (GE), slokkun (e. fading) og styrkingar (e. rewards). Báðar aðferðir voru næstum alveg jafn áhrifamiklar og leiddu til minni svefntafar (úr >30 min að sofna 5 sinnum eða oftar í viku í nokkrar mínútur að sofna 1-2 sinnum í viku) sem og færri skipta sem börnin vöknudu á nóttinni (vöknudu um 4 sinnum í viku í >30 en eftir meðferð aðeins 1-2 sinnum í nokkrar mínútur).
			Reed o.fl., 2009. Pilot rannsókn: within subject. Foreldrar 20 barna með ASD, 3-10 ára voru hluti af námskeiði (e. workshop) með áherslu á atferlistengdar svefnúrlausnir. Kennð inngrip voru hefðbundin- og óhefðbundin slokkun (SE og GE), slokkun áreitis (e. stimulus fading), hollar svefnvenjur, sjónrænn stuðningur (e. visual support) og styrkingar áætlun (e. reward program). Meðferðin leiddi til almennra framfara sem tengdust svefnleysi barnanna. Svefntöf minnkaði en þau skipti sem börnin vöknudu á nóttinni virtust ekki minnka. Einnig mældust bættari svefnvenjur eftir meðferð, sem og framfarir á hegðun barnanna að degi til.
			Vriend o.fl., 2011. Yfirlitsgrein. Þó svo að úrtök í þeim rannsóknum sem gerðar hafa verið á Multi-Component inngripum séu frekar stór, þá eru rannsóknarsnið takmörkuð á þann hátt að þau gefa ekki kost á mælingum áhrifa einstakra þátta og þ.a.l. er ekki hægt að segja nákvæmlega til um skilvirkni meðferðanna.
			Knight og Johnson, 2014. Rannsókn: margföld-grunnlína. 3 börn + fjölskyldur. Fjögur inngrip: circadian rhythm management, hollar svefnvenjur, white noise og óhefðbundin slokkun (GE). Meðferðarpakkinn var áhrifaríkur og dró úr svefntöf og einnig þeim skiptum sem börnin vöknudu yfir nóttina. Áframhaldandi framfarir komu í ljós við 1 viku eftirfylgni. Foreldrar greindu einnig frá því að þeim fannst börnin sín sofa almennt betur og voru ánægðir með meðferðaráætlunina.
Vekjaraklukku kerfi (e. Alarm systems):	Ákveðið viðvörðunarkerfi sem varar umönnunaraðila við ef um ákveðið ástand er að ræða.	Behavioural Treatment of Bedwetting: Einstaklingar eru látnir sofa með blöðruvekjaraklukku (e. urine alarm) og fá styrkingu (hrós eða annað) á morgnana ef þeir hafa sofið alla nóttina án þess að pissa á sig.	Henriksen og Peterson, 2013. Tilfellarannsókn. 12 ára stúlka með ASD og fetal alkahól heilkennið. Eftir tvær vikur pissaði hún sjaldnar á sig en áður og á þriðju vikunni var hún alveg hætt að pissa á sig á næturnar. Áhrif meðferðarinnar færðust einnig yfir á aðrar aðstæður og voru enn til staðar 9 mánuði eftir meðferð.
Fjölskyldumiðuð HAM (e. Family	Í HAM er leitast við að breyta hugarfari	HAM oft notað til að vinna á kvíða	Nadeau o.fl., 2015. Rannsókn: spurningalistar við stigagjöf á skólum, margföld-grunnlína. 102 unglingar með ASD og kvíða á aldrinum 7-

based CBT)	sem m.a. veldur neikvæðum einkennum og að breyta hegðuninni sem viðheldur þeim.	meðal ASD.	16. Svefntengd vandamál (SRPs) voru mjög algeng meðal þessa hóps (ASD með kvíða). 40 þátttakendur kláruðu HAM meðferð fyrir fjölskylduna og greindu frá því eftir meðferð að þeir upplifðu færri svefntengd vandamál en þeir gerðu fyrir meðferð.
------------	---	------------	---

AND; autism spectrum disorder og vísar til einstaklinga sem eru greindir með raskanir á einhverfurófi. NNDs; neurodevelopmental disorder og vísar til einstaklinga sem eru greindir með taugafræðilegar þroskaraskanir. BPT: Behavioral Parent Training og vísar til þess að foreldrar fá hjálfun í að veita atferlistengd inngrip. HAM (CBT): Hugræn atferlismeðferð.

Tafla 3. Önnur meðferðarræði: Yfirlit yfir önnur meðferðarræði sem notuð eru í svefnmeðferðum meðal barna með ASD.

Meðferð	Lýsing	Auka	Rannsóknir og helstu niðurstöður þeirra
Þrýstingsteppi (e. Weighted blanket)	Weighted blanket veldur djúpum þrýstingi og stöðugu skynjunar intaki (e. input)	Tilgátan er sú að Weighted blanket minnki örvarnar- og streitu tengda svörun líkamans, sem síðan gæti leitt til bætari svefns.	Gringas o.fl., 2014. Þriggja fasa rannsókn: víxlrannsókn, samanburður lyfleysu með slembiúrtaki (e. phase III trial was a randomized, placebo-controlled crossover design). Weighted blanket bætti ekki heildarsvefn hjá börnum með ASD ef mæt með actigraphy (67 kláruðu rannsókn). Enginn annar munur var á bæði hlutlægum og huglægum mælingum svefns eða á atferli. Reyndar kom í ljós á svokölluðum huglægum árangursmælikvörðum að bæði börn og foreldrar aðhlyntust Weighted blanket.
Nuddmeðferð (e. massage therapy)	Kerfisbundin nuddaðferð, mismunandi útfærslur.	Stundum er foreldrum kennt að nudda ASD eistaklingana rétt fyrir svefntíma.	Escalona, Field, Singer-Strunck, Cullen og Hartshorn, 2001. Samanburðarrannsókn: randomazided, control. 20 börn með ASD skoðuð, 3-6 ára. Í hópnum sem var verið að skoða sérstaklega var foreldrum kennt að nudda af nudd-therapista. Þau áttu að nudda börnin sín 15 mín fyrir svefntíma á kvöldin. Niðurstöður gefa til kynna að börn sem fengu nudd sýndu minni stereótípu-tengda hegðun og upplifðu færri svefnvandamál heimafyrir. Silva, Cognolini, Warren, Budden og Skowron-Gooch, 2007. Rannsókn: small, controlled, treatment. 13 börn með ASD skoðuð, 3-6 ára. Fengu daglega <i>Original Quigon</i> nuddmeðferð í 5 mánuði. Þau voru síðan borin saman við börn sem höfðu ekki fengið neina meðferð. Börnin sem fengu nuddmeðferð sýndu bætari svefnhegðun en þau sem ekki höfðu fengið nudd meðferð.
Ljósmeðferð (e. light therapy)	Sjúklingi er sýnt dagsljós eða ákveðna bylglengd ljóss.	Ljósíð er gefið í ákveðið langan tíma (sem meðferðar-aðilinn hefur skrifað uppá) og stundum aðeins á ákveðnum tímamörktum dagsins.	Cohen o.fl., 2014. Yfirlitsgrein. Ljósmeðferð er áhrifarík þegar á að því að flýta eða seinka svefntímabili skjólstaðinga með circadian svefnröskun. Hún getur verið talin valkostur þegar unnið er með börn með ASD sem einnig eru með circadian svefnröskun.
Tónlistarmeðferð (e. music therapy)	Notkun inngripa viðurkenndra tónlistarprogramma til þess að ná markmiðum í meðferð.		Gulstad og Thorgaard, 2006. Pilot study: cross-over, tveggja fasa. Skoðar 19 börn með ASD sem áttu erfitt með að slaka á fyrir svefntíma. Tónlistarmeðferð með <i>MusiCure</i> (alls 2 tíma, stöðugt prógramm) sem hljómaði gegnum ákveðna hljóð-kodda (sum börnin þöldu ekki koddann, þau fengu 70 mín CD prógramm). 5 börn hættu í miðri meðferð vegna óþæginda varðandi koddann. 6 barnanna sýndu minni svefntöf eftir 14 daga tónlistarmeðferð (bætingar voru allt frá 1 tíma uppí 7 ½). 2 börn sýndu engar breytingar. 3 börn sýndu versnandi breytingar tengdar svefntöf (2 þeirra sýndu hins vegar bætingar í hegðun).
Dýr (e. pets)	Þjálfað dýr er notað til þess að hjálpa einstaklingi við eitthvað sértækt atriði	Algengast er að nota hunda eða ketti.	Viau o.fl., 2010. Rannsókn. Skoðað 42 börn með ASD, 3.6-14.8 ára. Magn Kortisóls mælt að morgni til lækkaði þegar hundar voru til staðar. Mögulega vegna slökunaráhrifum sem viðvera hundsins hefur á barnið þegar það er saman með hundinum, eða vegna þess að viðvera hundsins leiðir til bætari svefns.

AND; autism spectrum disorder og vísar til einstaklinga sem eru greindir með raskanir á einhverfurófi. CD; geisladiskur.

