

Måleegenskaper ved den norske versjonen av Autism Diagnostic Interview- Revised (ADI-R)

Marianne Halvorsen¹ (marianne.halvorsen@unn.no)

Sissel Berge Helverschou² (shelvers@ous-hf.no)

PsykTestBarn 2017, 1:5

ISSN 1893–9910

Mottatt dato 23. mai 2017

Publisert dato 27. juni 2017

Artikkelens URL <https://psyktestbarn.r-bup.no/no/artikler/adi-r-autism-diagnostic-interview-revised>

DOI 10.21337/0052

Som alle artikler i PsykTestBarn, kan denne fagfellevurderte artikkelen lastes ned, skrives ut og distribueres fritt for alle slags formål på følgende vilkår: korrekt referanse skal oppgis (se under), ingen kommersiell bruk og ingen bearbeidelse av tekst eller innhold.

Denne artikkelen skal siteres på følgende måte:

Halvorsen, M. & Helverschou, S. E. (2017). Måleegenskaper ved den norske versjonen av Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R). *PsykTestBarn*, 1:5. doi: 10.21337/0052

¹ Universitetssykehuset Nord-Norge, Barne og ungdomsklinikken, Barnehabiliteringen Tromsø

² Oslo Universitetssykehus, NevSom - Nasjonalt kompetansesenter for Nevroutviklingsforstyrrelser og Hypersomnier

Sammendrag

Beskrivelse. Autism Diagnostic Interview – Revised (ADI-R) er et semistrukturert intervju utviklet av Sir Michael Rutter, Ann Le Couter og Cathrine Lord for å bidra til valid og reliabel diagnostisering av Autismespekterforstyrrelser. Intervjuet ble første gang publisert i 1989 av Western Psychological Services og revidert i 1994. Norsk utgave ble utarbeidet av Hogrefe i 2009. Det foreligger norsk protokoll med oversikt over spørsmålene, mens manualen med instruksjon for hvordan intervjuet skal gjennomføres og skåres er amerikansk. Intervjuet består av 93 ledd. Det kan benyttes til vurdering av voksne og barn over tolv måneder og med mental alder over ti måneder. Intervjuet tar 1,5 – 2,5 timer. ADI-R bør administreres av en erfaren kliniker. Klinikeren intervjuer forelder eller omsorgsperson med god kjennskap til utviklingshistorien og nåværende fungering for personen som vurderes. Ved hjelp av en diagnostisk algoritme utarbeides grenseverdier for indikasjon på mulig forekomst av autisme.

Litteratursøk. Systematisk litteratursøk etter studier av målegenskaper ved den norske, svenske og danske versjonen av intervjuet ga 190 treff. I tillegg ble tre artikler inkludert etter innspill fra eksperter. En norsk befolkningsstudie med til sammen 679 deltakere og seks svenske kliniske studier, hvorav den største bestod av 268 deltakere, oppfylte inklusjonskriteriene. Flertallet av studiene omfattet barn og ungdom.

Psykometri. Den diagnostiske validiteten til ADI-R er undersøkt for de nye småbarns algoritmene. Funn viser at den norske og svenske ADI-R-versjonen har lavere sensitivitet sammenlignet med amerikanske valideringsstudier. Grad av samsvar mellom ADI-R og Autism Diagnostic Observation Schedule-2 (ADOS) i diagnostikk er varierende. Interrater-reliabilitet for ADI-Rs enkeltledd, diagnostiske ledd og diagnostisk klassifisering er funnet tilfredsstillende i et mindre svensk utvalg. Faktorer som barnets alder, IQ og atferdsvansker, i tillegg til foreldrebekymring, kan påvirke validiteten til ADI-R.

Konklusjon. Det foreligger ikke norske eller skandinaviske normer. Validiteten til de nye småbarns algoritmene er i all hovedsak tilfredsstillende når en komplementerer diagnostikken av autismespekterforstyrrelser ved hjelp av direkte observasjon ved bruk av ADOS. Karakteristika ved barnet og omsorgsgiver kan påvirke validiteten til ADI-R. Det er behov for studier av validiteten til de ordinære diagnostiske algoritmene, men også av instrumentets reliabilitet.

Abstract

Description. ADI-R is a semi-structured interview developed by Sir Michael Rutter, Ann Le Couter and Cathrine Lord to provide valid and reliable diagnostics of Autism Spectrum Disorders. The first version was published in 1989 by Western Psychological Services and a revised version in 1994 (ADI-R). The Norwegian version was developed by Hogrefe in 2009. There is a Norwegian protocol and an American manual available for users. The interview can be used to assess both adults and children above the age of 12 months and with mental age above 10 months. ADI-R consists of 93 items. The interview lasts 1.5–2.5 hours. To administer the ADI-R, an experienced clinical interviewer questions a parent or caretaker who is familiar with the developmental history and current behaviour of the individual being evaluated. Cut-off values are calculated by a diagnostic algorithm to give an indication of suspicion of an autism spectrum disorder.

Literature search. A systematic search for psychometric evidence for the Norwegian, Swedish and Danish versions of the ADI-R identified 190 articles. Experts suggested three additional articles. The included publications reported data from one population-based Norwegian study of totally 679 participants, in addition to six clinical studies from Sweden, in which the largest study included 268 participants. The majority of the participants were children and adolescents.

Psychometrics. The diagnostic validity of the new toddler algorithms of the ADI-R gave lower sensitivities compared to the original American validation studies. The convergence of the ADI-R and Autism Diagnostic Observation Schedule-2 (ADOS) showed mixed results. The inter-rater reliability for single ADI-R algorithm items, behavioral domains totals and agreement for diagnostic classification is good. Characteristics such as child age, IQ and conduct problems, in addition to parental concern for ASD, can influence the construct validity of the ADI-R.

Conclusion. There are no Norwegian or Scandinavian norms available. The diagnostic validity of the new toddler algorithms is acceptable when combined with direct observation through the ADOS. Child and caregiver characteristics may hamper the construct validity of the ADI-R. Further studies should investigate the construct validity of the ordinary diagnostic algorithms in addition to instrument reliability.

Innledning

ADI-R er et semistrukturert intervju som ble utviklet for å bidra til valid og reliabel diagnostisering av autismespekterforstyrrelser. Første versjon av verktøyet ble publisert i 1989 av Sir Michael Rutter, Ann Le Couteur og Cathrine Lord (Le Couteur et al., 1989). Hensikten var å gi et bedre grunnlag for forskning ved å standardisere utviklings- og symptombeskrivelser av barn og unge med autisme. En ønsket å kunne sammenlikne funn og beskrivelser mellom ulike forskningsmiljøer og klinisk kunne skille mellom autisme og andre utviklingsforstyrrelser.

Den første utgaven av ADI var egnet til å kartlegge barn med en kronologisk alder på minst fem år og en mental alder på minst to år. Økt kunnskap om tidlig utvikling hos barn med autisme og behov for ytterligere standardisering av instrumentet, førte til en total revidering av ADI, og navnet ble endret til ADI-R (Revised) (Lord, Rutter & Le Couteur, 1994; Rutter, Le Couteur & Lord, 2003). Det er denne versjonen som omtales her. Norsk utgave ble utarbeidet av Hogrefe i 2009. Det foreligger en norsk protokoll med oversikt over spørsmålene, mens selve manualen med instruksjon for hvordan intervjuet skal gjennomføres og skåres er amerikansk. Det foreligger også en egen småbarnsversjon av ADI-R-intervjuet.

ADI-R er basert på DSM-IV (American Psychiatric Association, 1994) og ICD-10s (World Health Organisation, 1993) kriterier for barneautisme og gjennomgripende utviklingsforstyrrelser. ADI-R er ennå ikke tilpasset DSM-5 (American Psychiatric Association, 2013), og har heller ingen

sammenstilling av symptomer som skiller diagnostisk mellom autisme og de andre undergruppene innen autismespekterforstyrrelsene. Intervjuet kan brukes til å vurdere barn og voksne med mental alder over to år som mistenkes å ha en autismespekterforstyrrelse. Spørsmålene dekker åtte områder, hvor de tre kjerneområdene som kjennetegner autisme, inngår. Spørsmålene omhandler anamnesticke opplysninger og aktuelle opplysninger om barnets / personens utvikling, kommunikasjon, sosial fungering, og stereotype mønstre i forhold til atferd og interesser, familiebakgrunn, skoleforhold og medisinske opplysninger. Sammenlignet med andre kartleggingsinstrumenter for autisme var intervjuet nyskapende ved 1) sterkt fokus på detaljerte beskrivelser av atferd i stedet for vurderinger, 2) den detaljerte operasjonaliseringen av hver skåring basert på atferdsbeskrivelsene, samt 3) fokus på å innhente informasjon om tidlig utvikling, mistanke om skjevutvikling de første leveår, symptomer ved en standardalder (4–5 år), samt en beskrivelse fra hvordan hverdagen og fungering er når intervjuet blir gjennomført (Schjølberg, 2015).

Intervjuet består av 93 ledd / spørsmål, og fokuserer på de tre kjerneområdene som kjennetegner autismespekterforstyrrelser: språk og kommunikasjon, gjensidig sosial interaksjon, og begrenset, repeterende og stereotype atferdsmønstre og interesser. Intervjuet bør gjennomføres av en fagperson med omfattende klinisk erfaring med autismespekterforstyrrelser. Klinikeren bør ha gjennomført opplæring og fått veiledning i bruk av intervjuet, og inneha diagnostiseringskompetanse (dvs. være psykolog

eller lege). Intervjueren gjennomfører det standardiserte intervjuet med en forelder eller annen nærstående omsorgsperson som har god kjennskap til barnets / personens aktuelle atferd og utviklingsmessige historie. Intervjueren skal også benytte en diagnostisk algoritme. Dette er en omregningsmetode for hvordan skårene på de ulike spørsmålene skal kodes og vektet. Ved hjelp av algoritmen utarbeides en indikasjon på mulig forekomst av autisme hos personen ut fra definerte grenseverdier (cut-off verdier). Det er utarbeidet en egen algoritme til bruk for småbarn (barn mellom tolv og 47 måneder og med mental alder over ti måneder). Småbarnsalgoritmen kan benyttes både på småbarnsversjonen av ADI-R og standardversjonen (Kim & Lord, 2012b). Algoritmen består av ADI-R ledd som har vist høy sensitivitet og spesifisitet hos småbarn på tre ulike språknivåer (ikke-verbale, enkeltord-tale, frase-tale). Hver algoritme gir grenseverdier avhengig av om man prioriterer sensitivitet (klinisk grenseverdi) eller spesifisitet (forskningsgrenseverdi). Ved klinisk bruk av instrumentet prioriteres at de som identifiseres med stor sannsynlighet faktisk har tilstanden. Den kliniske grenseverdien gir også ulike variasjonsbredder (range) for klinisk bekymring (mild – moderate og moderat til alvorlig). I forskningssammenheng prioriteres spesifisitet, altså hvor mange som korrekt identifiseres til å ikke ha tilstanden.

ADI-R har beskrivelser av hensikten med hvert spørsmål, og det er også beskrevet hvilke spørsmål som *må* stilles, og spørsmål som *kan* stilles for å få frem en detaljert og hendelsesorientert beskrivelse av barnet/personens væremåte i en bestemt kontekst. Hensikten er å få nyanserte beskrivelser av god kvalitet fra foreldre/omsorgspersoner slik at forsker/kliniker kan avgjøre hvilken skår den spesifikke beskrivelsen skal ha. Dette er noe av grunnen til at bruk av ADI-R krever opplæring og drøfting med andre fagpersoner. Kun ved riktig administrering har en mulighet til å angi riktig kode på informasjonen som fremkommer i intervjuet.

Svarene som fremkommer i intervjuet skåres på følgende måte:

0 = atferd som spesifisert er ikke til stede

1 = Atferd som spesifisert er til stede, men ikke så entydig som beskrevet under kode 2

2 = Atferd som spesifisert er sikkert til stede

3 = Atferd som beskrevet er sikkert til stede, og resulterer i store vansker (barn og / eller familie) om en prøver å bryte inn

7 = Atferd innen domenet er atypisk /abnormal, men ikke av den type som spesifisert

8 = Ikke anvendelig (f.eks. karakteristika ved tale dersom barnet ikke snakker / vokaliserer)

9 = Ikke kjent/ikke spurt om

Det er helt avgjørende at en følger nøye med på hva som er *spesifisert* i hver av kodeseksjonene. Skåringen følger hvert enkelt spørsmål, og *skal skåres mens en intervjuer*. Dersom en har glemt å spørre om noe underveis, kan dette *ikke skåres* etterpå, og informasjonen vil ikke kunne inngå i den samlede vurderingen. Det er følgelig krevende å bruke ADI-R korrekt. Derfor er opplæring nødvendig for å administrere og skåre på en standardisert måte.

ADI-R er et langt og detaljert intervju, og det tar vanligvis 1,5 – 2,5 timer å gjennomføre. Det kan være en utfordring å få frem en forståelse av at hensikten er å få detaljerte og kvalitativt gode beskrivelser av barnet/personens væremåte i helt bestemte situasjoner. Dersom administrator ikke lykkes med å få dette frem, kan en risikere å ende med et intervju hvor svarene blir ja/nei, og da vil ikke intervjuet kunne skåres etter intensjonene. Det krever lang erfaring og gode kliniske ferdigheter for å få intervjuet til å flyte på en naturlig måte (Schjøllberg, 2015).

Ved diagnostisering av autisme, anbefales det å benytte ADI-R sammen med Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS) (Lord et al., 2000). Denne kombinasjonen vurderes som gullstandard for i forhold til diagnostisering av autisme (Lord et al., 2012, Schjøllberg, 2015). ADOS er en semistrukturert observasjonsmetode som brukes til barn, unge og voksne. Det består av fire moduler som velges ut fra personens språklige utviklingsnivå. Det er også utviklet en egen småbarnsversjon (Lord et al., 2012). Skårene på ADI-R og den diagnostiske algoritmen er utarbeidet og basert på diagnosekriteriene for autisme i ICD-10. Studier indikerer at skårene på ADOS og ADI-R korrelerer godt med kriteriene i DSM-V (Norris, Lecavier & Edwards, 2012; Lord & Jones, 2012).

Samtidig bruk av ADI-R og ADOS kan øke muligheten for å gjøre en mest mulig korrekt vurdering. Verktøyene er konstruert slik at poengsum over angitt grenseverdi betyr en høy sannsynlighet for at det foreligger en tilstand innen autismespekteret. Dette må imidlertid suppleres med klinisk observasjon og sammenholdes med annen informasjon om personens utviklingshistorie og nåværende fungering. Klinisk vurdering er derfor viktig for vurdering av resultatet.

Selv om det anbefales å bruke en kombinasjon av ADI-R og ADOS ved diagnostisering av autisme, vurderes ADI-R som gullstandard også når den brukes alene (Cohen, 2003; Constantino et al., 2003; Matson, Nebel-Schwalm & Matson, 2007). ADI-R har egenskaper som gjør den bedre enn andre eksisterende intervjuer eller sjekklister. Testen har normer for et større aldersspenn, det har blitt publisert flere psykometrisk resultater på ADI-R, og den korresponderer best med diagnosekriteriene i DSM-IV og ICD-10. Studier av de psykometrisk egenskapene til ADI-R viser at intervjuet har gode og akseptable verdier for både reliabilitet og validitet. Når det gjelder validitet har studier vist gode og akseptable resultater for differensialdiagnostikk, kriterier for prediksjon og sammenheng med DSM og ICD kriterier. Eksempelvis har en rekke studier rapportert diagnostisk validitet for ADI-R i ulike aldersgrupper med sensitivitet og spesifisitet mellom 80 % og 90 %, og svært god inter-rater reliabilitet har blitt rapportert i flere studier med vektet kappa [K_w] ofte over .60 og prosentvis eksakt enighet[PA] over 90% (For en oversikt, se Zander et al., in press). Samtidig har det vært reist kritikk fordi studiene bare ble gjennomført på kliniske utvalg, og få resultater har blitt publisert på intervjuets psykometrisk egenskaper som ble anvendt på normalutvalg (Matson et al., 2007; Rutter's Child and Adolescent Psychiatry, 2015).

Metode

Bibliotekar Sølvi Biedilæ ved Regionsenter for barn og unges psykiske helse øst og sør (RBUP) søkte etter dokumentasjon på testens psykometrisk egenskaper i databasene PsycINFO, Medline, Embase, Cochrane Library, Oria (BIBSYS), Norart, SveMed+, PubMed, CRISTin.no, NORA.no, Forskningsdatabasen.dk og Swepub. Søkedato: 16.09.2015. Søkestrategien er tilgjengelig på <http://psyktestbarn.no/CMS/ptb.nsf/pages/adi-r>. Vi kontaktet også førsteforfattere av inkluderte artikler, samt oversetterne av ADI-R, for å identifisere dokumentasjon som eventuelt ikke ble fanget opp av det systematiske søket. Dette førte til inklusjon av én artikkel (Zander, in press). Fagmiljøer som vi vet benytter ADI-R i forskning ble kontaktet direkte, og dette førte til inklusjon av ytterligere to artikler (Havdahl et al., 2016; Havdahl et al., in press).

Vi inkluderte alle publikasjoner av studier som har undersøkt og rapportert minst ett av følgende i skandinaviske utvalg:

- normdata for testen
- reliabilitet: indre konsistens, test-retest, interrater og endringssensitivitet
- validitet: samsvar med liknende testskårer, samsvar med referansestandard eller annet kriterium, og/eller faktorstruktur

I tillegg, og *kun for norske versjoner av ADI-R*, inkluderte vi publikasjoner som rapporterte gjennomsnittsskårer og/eller forekomster for henholdsvis generelle populasjoner og kliniske undergrupper.

Etter fjerning av dubletter gikk begge forfatterne gjennom alle de identifiserte publikasjoners sammendrag. Forfatterne foretok vurderingene uavhengig av hverandre. Alle publikasjoner som kunne virke relevante ble bestilt inn i fulltekst, og vurderingsprosessen ble gjentatt for disse.

Begge forfatterne vurderte normering, validitet og reliabilitet ved hjelp av en tilpasset versjon av Test review form and notes for reviewers (EFPA 2013). Forfatterne foretok vurderingene uavhengig av hverandre.

Resultater

Litteratursøk

Det systematiske litteratursøket identifiserte 74 referanser for den norske ADI-R-versjonen og 116 referanser for den danske og svenske versjonen¹. To norske artikler ble i tillegg identifisert gjennom kontakt med fagmiljøet for autisme i Norge og en svensk artikkel gjennom kontakt med aktuelle førsteforfattere fra litteratursøket. Etter gjennomgang av sammendragene fra litteratursøkene ble 117 artikler vurdert i fulltekst. Av disse ble en norsk og seks svenske studier som omhandlet relevant psykometrisk informasjon inkludert. Ingen danske studier oppfylte inklusjonskriteriene.

Tabell 1. Inkluderte studier

Referanse	Design	Populasjon	N/n	Mål	Rapporterte egenskaper, verdier
Ekström, 2008	Tverrsnitt	Barn med DM1	20	ADI-R og ASD-diagnose	Samsvar ADI-R og klinisk diagnose.
Havdahl, in press	Tverrsnitt	Autismestudien fra MoBa. Småbarn.	679/66	ADI-R småbarn, ADOS-2 og ASD-diagnose	Samsvar autismsmål og klinisk diagnose.
Johansson, 2010	Tverrsnitt	Tre utvalg, Möbius, CHARGE, OAVS	25,31,20	ADI-R, CARS, ABC og ASD-diagnose	Samsvar autismsmål og klinisk diagnose.
Kopp, 2010	Tverrsnitt	HFASD, ADHD, kontrollgruppe. Barn.	20,34,57	ADI-R	Gruppeforskjeller på middelverdier
Nygren, 2009	Tverrsnitt	Klinisk utvalg barn og voksne	57	ADI-R, DISCO-10, ASD-diagnose	Samsvar autismsmål og klinisk diagnose
Zander, 2015	Tverrsnitt	Klinisk utvalg, småbarn	268	ADI-R småbarn, ADOS-2, ASD-diagnose	Samsvar autismsmål og klinisk diagnose
Zander, in press	Tverrsnitt	Klinisk utvalg	10	ADI-R	Interrater reliabilitet

Note. ABC = Autistic Behaviour Checklist. ADOS-2 = Autism diagnostic observation schedule-second edition. ASD = autismespekterforstyrrelser. CARS = Childhood autism rating scale. DISCO-10 = Diagnostic interview for social and communication disorders-10. DM1 = Dystrofia myotonika type I. HFASD = høytfungerende autismespekterforstyrrelser.

Inkluderte studier

Tabell 1 viser de inkluderte studiene. Havdahl et al. (in press) rapporterte ADI-R data for de nye småbarns algoritmene fra autismestudien (ABC-studien) som har blitt gjennomført av Folkehelseinstituttet i samarbeid med blant annet Columbia-universitet i New York, USA. ABC-studien er en delstudie av Den norske mor og barnundersøkelsen (MoBa) som er en prospektiv kohortundersøkelse som følger opp gravide mødre og fedre fra svangerskap til barnealder. I ABC-studien ble det benyttet ulike strategier for å fange opp barn med mulig autismespekterforstyrrelser (ASD). Foreldre oppga autistiske trekk i spørreskjema og/eller ved at de ble henvist til ABC-studien ved mistanke om ASD. Andre rekrutteringsstrategier var gjennom registrerte ASD diagnoser via Norsk pasientregister, søsken til rekrutterte barn, og tilfeldig seleksjon. Hele utvalget bestod av 679 barn under 48 måneder. Barn med alvorlige sensoriske handikap som syn eller hørselshemming og/eller motoriske vansker og/eller ikke-verbal mental alder under ti måneder ble ekskludert ($n = 14$). ASD ble diagnostisert hos 66 barn (barneautisme $n = 41$, uspesifisert gjennomgripende utviklingsforstyrrelser $n = 24$ og

Aspergers syndrom $n = 1$). 83 % av barna med ASD var gutter. Gjennomsnittlig alder for barna med ASD er videre fordelt på de tre ulike språknivågruppene. Disse gruppene ble basert på barnas språklige ferdigheter. Gruppene var ikke-verbal gruppen ($n = 11$), enkeltordtale ($n = 20$) og frasetalegruppen ($n = 35$). Gjennomsnittlig alder var henholdsvis 41,4 måneder ($SD = 3, 2$ måneder), 41,1 måneder ($SD = 3,3$ måneder) og 41,2 måneder ($SD = 2,6$ måneder). Gjennomsnittlig IQ for barna med ASD i ikke-verbal, enkeltordtale og frasetale gruppene var henholdsvis 37,7 ($SD = 11,2$), 64,0 ($SD = 19,9$) og 81,3 ($SD = 20,5$). Andre ikke-ASD-diagnoser ble diagnostisert hos 303 småbarn (språkvansker $n = 204$, psykisk utviklingshemning $n = 38$ og ADHD $n = 20$). Gjennomsnittlig alder for disse barna var 41,8 måneder ($SD = 2,6$ måneder) i ikke-verbal gruppen ($n = 14$), 42,1 måneder ($SD = 2,2$ måneder) i enkeltordtalegruppen ($n = 58$) og 42,1 måneder ($SD = 2,2$ måneder) i frasetalegruppen ($n = 231$). Gjennomsnittlig IQ for barna med andre ikke-ASD-diagnoser i ikke-verbalgruppen var 52,7 ($SD = 19,9$), 72,0 ($SD = 15,9$) i enkeltordtalegruppen og 92,5 ($SD = 15,0$) i frasetale gruppen. De resterende 294 barn oppfylte ingen diagnostiske DSM-IV-kriterier. Gjennomsnittlig alder for barna som hadde

frasetale var 42,1 måneder ($SD = 2$, 2 måneder). Tilsvarende var gjennomsnittlig IQ 103,6 ($SD = 12,2$).

Diagnosene ble basert på all tilgjengelig informasjon, som også inkluderte ADI-R og ADOS. Artikkelen rapporterte samsvar mellom skårer og grenseverdier for ADI-R og ADOS og klinikerdiagnoser, samt hvordan foreldre bekymring for ASD påvirket skårer i instrumentene.

Svensk versjon av ADI-R

Zander, Sturm og Bölte (2015) rapporterte ADI-R data for de nye småbarns algoritmene. Studien bestod av 268 barn henvist til psykisk helsevern for utredning av utviklingsforstyrrelser. Deltakerne var 18–47 måneder med en gjennomsnittlig alder på 37,9 måneder ($SD = 7,2$ måneder). I alt 76 % var gutter. Av disse fikk 171 barn en klinisk ASD-diagnose (barneautisme $n = 103$ og uspesifisert gjennomgripende utviklingsforstyrrelser $n = 68$). Videre fikk 67 barn påvist andre ikke-ASD-diagnoser (psykisk utviklingshemning $n = 9$, ADHD $n = 16$, språkforstyrrelser $n = 42$), og 30 barn fikk ingen diagnose. Diagnosene ble satt på grunnlag av DSM-IV-TR og var basert på all tilgjengelig informasjon, som også inkluderte ADI-R. Den nye diagnostiske algoritmens inndeling i tre utviklingsnivå ga 72 barn i ikke-verbal gruppen (12–20 måneder og 21–47 måneder), 88 barn i enkeltord-tale gruppen (21–47 måneder) og 94 barn i frasetale gruppen (21–47 måneder). Gjennomsnittlig alder for barn med ASD i ikke-verbalgruppen var 32,4 måneder ($SD = 7,0$), i enkeltordtalegruppen 36,6 måneder ($SD = 4,8$ måneder) og i frasetale gruppen 41,9 måneder ($SD = 5,2$ måneder). Gjennomsnittlig ikke-verbal IQ for barna med ASD i ikke-verbalgruppen var 67,0 ($SD = 19,0$), i enkeltordtalegruppen 73,3 ($SD = 14,0$) og i frasetalegruppen 86,8 ($SD = 94,3$). Artikkelen rapporterte samsvar mellom ADI-R og ADOS samt samsvar med klinikerdiagnose.

Zander et al. (in press) rapporterte interrater-reliabilitet for ADI-R i en naturalistisk klinisk setting. Video-opptak av ti reelle ADI-R administreringer ble vurdert av fem klinikere fra et utvalg av totalt 11 klinikere: ti psykologer og en barnelege fra åtte ulike poliklinikker innen psykisk helsevern og

pediatri i Sverige. Erfaring med ADI-R varierte fra mindre enn et år til over 20 års erfaring. Fem uavhengige klinikere vurderte ti ADI-R video-opptak, dvs. interrater reliabilitetsanalysen var basert på totalt 50 ADI-R skåringer. ADI-R administreringene var gjort for ti barn (åtte gutter og to jenter) med mistanke om ASD. Av disse hadde ni av barna en ASD diagnose (barneautisme $n = 5$, Asperger $n = 3$ og uspesifisert gjennomgripende utviklingsforstyrrelse $n = 1$). Gjennomsnittlig alder for barna med ASD var ti år ($SD = 4,6$ år, spredning 2–17 år). Gjennomsnittlig verbal og ikke-verbal IQ var henholdsvis 103,8 ($SD = 14,0$) og 107,2 ($SD = 10,5$).

Nygren et al. (2009) rapporterte ADI-R data for 57 barn og voksne som var til utredning for mistanke om ASD og som inngikk i en valideringsstudie. 30 barn og 27 voksne deltok. 83 % av barna var gutter. Barna var 2,8–14,3 år med en gjennomsnittlig alder på 7,2 år ($SD = 2,8$ år). 51 % av de voksne var menn. De voksne var i alderen 15,2–39,7 år med en gjennomsnittlig alder på 24,7 år ($SD = 7,0$ år). Av barna fikk 24 pasienter en barneautismediagnose, tre fikk atypisk autisme og tre fikk Aspergers syndrom. Ti av barna hadde gjennomsnittlig IQ, syv hadde nær gjennomsnittlig IQ, ni hadde mild psykisk utviklingshemning og fire barn hadde en alvorlig psykisk utviklingshemning. For de voksne pasientene fikk ni barneautismediagnose, syv fikk atypisk autisme og fem Aspergers syndrom. Av andre ikke-ASD-diagnoser fikk fire voksne påvist ADHD, en fikk påvist Tourettes syndrom, mens en fikk ingen diagnose. Av disse hadde ti en gjennomsnittlig IQ, tre nær gjennomsnittet, fire hadde mild mental retardasjon (IQ 50–69) og 10 alvorlig mental retardasjon (IQ < 50). Språknivået i hele utvalget ($n = 57$) varierte fra ikke-språklig eller ikke-evne til å benytte tre-ords setninger ($n = 7$) til normal verbal IQ. Diagnose ble basert på all tilgjengelig informasjon, med unntak av informasjon fra diagnostiske intervju. Artikkelen rapporterte samsvar mellom ADI-R og Diagnostic Interview for Social and Communication Disorders-10, og samsvar mellom ADI-R og klinisk diagnose.

Ekström et al. (2008) inkluderte 57 barn og ungdommer fra et barnehabiliteringsutvalg med diagnosen Dystrofia myotonika type I (DM1). 54 % av deltakerne var gutter. Barna i hele utvalget var i alderen 2,5 år–21,3 år. 20 av barna fikk påvist

barneautisme, og artikkelen rapporterer i all hovedsak psykometriske data for disse barna. En fikk Asperger, mens syv av barna fikk en autisnelignende» diagnose hvor fire eller flere, men ikke alle diagnosekriteriene for barneautisme var til stede. For barna som fikk barneautismediagnose var 65 % gutter. Av disse hadde åtte av barna alvorlig mental retardasjon (IQ 20–34), ni moderat mental retardasjon (IQ 35–49), to i nedre normalområde (IQ 70–84) og ingen normal IQ. Artikkelen rapporterte samsvar mellom ADI-R og klinikerdiagnose kun for barneautismediagnosen.

Johansson, Gillberg og Råstam (2010) rapporterte ADI-R data fra tre studier og utvalg av pasienter med både autisme og syndromdiagnoser på henholdsvis Möbius, CHARGE og OAVS (Goldenhar syndrom og hemifacial microsomia er navn som brukes om den samme diagnosen). Dette er syndromer kjennetegnet av ulik grad av sensoriske utfall (syn og/eller hørsel). Möbius-utvalget bestod av 25 pasienter i alderen en måned til 55 år med en gjennomsnittlig alder på tolv år og fire måneder ($SD = 11$ år og 7 måneder). 72 % av utvalget var gutter. Ni av deltakerne hadde normal IQ ($IQ \geq 85$), seks hadde nær normal IQ (IQ 70–84), tre hadde IQ innenfor mild mental retardasjon (IQ 50–69), fem hadde alvorlig mental retardasjon ($IQ < 50$) og to deltakere hadde for lav alder for slik vurdering. Vedrørende grad av synssvekkelse hadde ingen av deltakerne en sannsynlig alvorlig synssvekkelse eller alvorlig synssvekkelse. Hørselssvekkelse ble påvist hos fem pasienter. I utvalget med Möbius-syndrom ble ti av deltakerne vurdert til å oppfylle diagnostiske kriterier for ASD. Seks fikk barneautismediagnose, en fikk diagnose på en autisnelignende tilstand, tre fikk på autismetrekk, tre ble vurdert til å mulig oppfylle diagnose på autismetrekk, mens åtte pasienter ikke ble vurdert å oppfylle kriterier for ASD. ADI-R ble ikke administrert for fire pasienter pga. for lav alder.

CHARGE-utvalget bestod av 31 pasienter i alderen en måned til 33 år med en gjennomsnittlig alder på åtte år og elleve måneder ($SD =$ seks år og syv måneder). 48 % av deltakerne var gutter. En av deltakerne hadde normal IQ ($IQ \geq 85$), fem hadde nær normal IQ (IQ 70–84), ti hadde IQ innenfor mild mental retardasjon (IQ 50–69), tre hadde alvorlig mental retardasjon (IQ 20–49), ni hadde

dyp mental retardasjon ($IQ < 20$) og tre deltakere hadde for lav alder for slik vurdering. Synssvekkelse forelå hos 19 deltakere. Samtlige deltakere hadde tosidig (bilateral) hørselssvekkelse. Sytten av deltakerne ble vurdert til å oppfylle diagnostiske kriterier for ASD, hvorav fem fikk barneautismediagnose, fem personer fikk diagnose på en autisnelignende tilstand, syv fikk på autismetrekk, tre ble vurdert til å mulig oppfylle diagnose på autismetrekk, mens fem pasienter ikke ble vurdert til å oppfylle kriterier for ASD. ADI-R ble ikke administrert for tre pasienter pga. for lav alder og for tre deltakere som var døvblinde.

OAVS-utvalget besto av 20 pasienter i alderen åtte måneder til 17 år med en gjennomsnittlig alder på åtte år og en måned ($SD =$ fem år og tre måneder). 60 % av deltakerne var gutter. Ni av deltakerne hadde normal IQ ($IQ \geq 85$), to hadde nær normal IQ (IQ 70–84), fire hadde IQ innenfor mild mental retardasjon (IQ 50–69), tre hadde alvorlig mental retardasjon (IQ 20–49), mens to hadde dyp mental retardasjon ($IQ < 20$). Seks av deltakerne hadde synssvekkelse. Hørselssvekkelse forelå hos 16 av deltakerne, hvorav tolv hadde en tosidig svekkelse. Åtte av deltakerne ble vurdert til å oppfylle diagnostiske kriterier for ASD, hvorav to fikk barneautismediagnose, en fikk diagnose på en autisnelignende tilstand, fem fikk på autismetrekk, tre ble vurdert til å mulig oppfylle diagnose på autismetrekk, mens åtte pasienter ble vurdert til å ikke oppfylle kriterier for ASD. ADI-R ble ikke administrert for én døvblind deltaker.

I alle de tre utvalgene ble diagnostisering av ASD gjort på bakgrunn av all tilgjengelig informasjon, også inkludert ADI-R-intervjuet. For utvalget med Möbius ble ASD-diagnoser vurdert med bakgrunn i DSM-III-R kriterier, og for CHARGE og OAVS-utvalgene ble diagnoser vurdert i henhold til både DSM-IV og DSM-III-R. Artikkelen rapporterte samsvar mellom ADI-R, Childhood Autism Rating Scale (CARS) og Autism Behavior Checklist (ABC), samt samsvar mellom ADI-R og klinikerdiagnose. Anvendbarheten av enkelte spørsmålsledd i ADI-R for personer med alvorlige sensoriske handikap belyses.

Kopp, Kelly og Gillberg (2010) rapporterte ADI-R data fra et klinisk utvalg av jenter med høytfungerende ASD ($n = 20$) sammenlignet med

en gruppe av jenter med ADHD ($n = 34$) og en frisk kontrollgruppe med jenter ($n = 57$). Jentene i ASD-gruppen var i alderen 7,2–16,3 år med en gjennomsnittlig alder på 11,6 år ($SD = 2,8$). Jentene i ADHD-gruppen var i alderen 7,7–16,8 år med en gjennomsnittlig alder på 12,7 år ($SD = 2,6$). Tilsvarende var jentene i kontrollgruppen i alderen 7,1 år til 16,9 år med en gjennomsnittlig alder på 12,1 år ($SD = 2,8$ år). ASD-gruppen og ADHD-gruppen var ikke signifikant forskjellige i IQ-skår ($M = 99$, $SD = 12,5$ versus $M = 97$, $SD = 10,7$). Den friske kontrollgruppen hadde signifikant høyere IQ enn begge de kliniske gruppene ($M = 108$, $SD = 11,0$, $p < 0,005$ og $p < 0,001$). ASD-diagnoser ble vurdert med bakgrunn i all tilgjengelig informasjon, også ADI-R skåringer og ADOS. ASD og ADHD ble diagnostisert i henhold til DSM-IV kriterier. ASD diagnoser inkluderte barneautisme, Aspergers syndrom, annen disintegrativ forstyrrelse i barndommen og uspesifisert gjennomgripende utviklingsforstyrrelser. Forekomsten av de enkelte ASD-diagnosene var ikke oppgitt for ASD-gruppen alene ($n = 20$). Det fremkom signifikant forskjell mellom alle tre gruppene mht. gjennomsnittlig antall ASD DSM-IV-diagnosekriterier som var til stede, med høyere forekomst i ASD-gruppen sammenliknet med kontrollgruppen, og med ADHD-gruppen på mellomliggende nivå (alle p -verdier $< 0,001$). 80 % av jentene i ASD gruppen hadde også en komorbid ADHD-diagnose. Artikkelen rapporterte gjennomsnittsverdier for ADI-R og signifikante gruppeforskjeller mellom ASD, ADHD og kontrollgruppen på denne variabelen.

Middelverdier og forekomster i kliniske undergrupper

Det fremgikk ikke middelverdier i Havdahl et al. (in press) sin befolkningsbaserte studie av småbarn under 4 år. Vi kontaktet derfor førsteforfatteren og fikk oppgitt middelverdier for ADI-Rs hovedskalaer for de tre gruppene med barn: ASD-diagnose, andre ikke-ASD-diagnoser og gruppen barn med normal utvikling, dvs. ingen diagnoser. Grenseverdi (cut-off verdi) for atferdsdomenet "Kvalitative avvik i gjensidig sosialt samspill" er ti. Tilsvarende er grenseverdier for atferdsdomenet "Kvalitative avvik i kommunikasjon" for verbale barn åtte og for ikke-verbale barn syv, mens grenseverdi for

atferdsdomenet "Begrensede, repetitive og stereotype atferdsmønstre" er tre.

Tabell to viser at totalskårene for alle domener med unntak av kommunikasjon som har lav skår for verbale barn, er like over definert grenseverdi. Videre hadde sammenligningsgruppene fra samme studie, dvs. småbarn med andre ikke-ASD diagnoser (språkvansker, psykisk utviklingshemning og ADHD) og småbarn med normal utvikling, betydelig lavere totalskårer for alle domene.

Tabell to gjengir middelverdiene til det kliniske normeringsutvalget på 25 barn med autisme og 25 barn med språkvansker eller mental retardasjon som er presentert i den amerikanske manualen (Lord, Rutter & Le Couteur, 1994; Rutter, Le Couteur & Lord, 2003). Gjennomsnittlig alder for barna med autisme var på 46,76 måneder ($SD = 10,73$) og for gruppen med ikke-autisme 44,72 måneder ($SD = 13,74$). Gjennomsnittlig IQ-/utviklingskvotient var for gruppen med autisme 71,88 ($SD = 21,33$) og gruppen med ikke-autisme 71,48 ($SD = 20,09$). Middelverdiene i dette kliniske utvalget ligger over middelverdiene i det befolkningsbaserte utvalget til Havdahl et al. for alle hovedskalaene og særskilt for områdene sosialt samspill og avvik i verbal kommunikasjon.

Tabell 2. ADI-R skårer for diagnostisk algoritme i et norsk befolkningsbasert utvalg og amerikanske referanseskårer.

Referanse	Utvalg/gruppe	N	Kommunikasjon			
			Sosialt samspill	Verbal	Ikke-verbal	Begrepsrepertorium
			M(SD)	M(SD)	M(SD)	M(SE)
Havdahl et al., in press ^a	Befolkningsutvalg, ASD (35,6-47,2 mnd),	66	11,06 (6,17)	4,46 (2,23)	7,74 (4,16)	3,94 (1,92)
	Befolkningsutvalg, andre-ikke ASD (36,5-47,7 mnd)	303	3,45 (3,92)	2,01 (1,92)	4,32 (3,69)	1,33 (1,09)
	Befolkningsutvalg, ingen diagnose (37,3-47,8 mnd)	294	1,45 (2,11)	0,75 (1,09)		0,65 (1,09)
Lord et al., 1994	Klinisk utvalg, barn med autisme (36-59 mnd)	25	19,00 (3,76)	16,33 (2,96)	11,62 (1,96)	4,92 (1,96)
	Språkvansker, mental retardasjon (36-59 mnd)	25	4,20 (2,88)	5,57 (3,06)	5,09 (4,28)	1,96 (1,09)

Note. ^aData fra det norske utvalget har vi fått fra Havdahl, Nasjonalt Folkehelseinstitutt. Fullskala IQ: ASD diagnoser $M = 68,76$ ($SD = 24,83$), andre ikke-ASD diagnoser $M = 86,91$ ($SD = 18,80$) og ingen diagnosegruppen $M = 103,62$ ($SD = 12,19$).

Normer

Det foreligger ikke norske, svenske eller danske normer for ADI-R. Cut-off verdier som benyttes for diagnostisk algoritme er basert på den amerikanske manualen.

Validitet

Havdahl et al. (in press) er den eneste studien som belyser validiteten til den norske ADI-R-versjonen og de nye småbarns algoritmene. Kriterievaliditet, dvs. samsvar mellom ADI-R klassifisering og klinisk diagnose ble undersøkt ved å beregne sensitivitet (andel barn med ASD-diagnose som klassifiseres som ASD) og spesifisitet (andel barn uten ASD-diagnose som klassifiseres som ikke-ASD). Ved anvendelse av den kliniske grenseverdienⁱ varierte sensitivitet fra lav til akseptabel, dvs. fra 57 %–80 %, mens spesifisitet generelt ble funnet akseptabel, fra 79 %–94 %. Tilsvarende ved anvendelse av den strengere forsknings grenseverdienⁱⁱ varierte

sensitiviteten fra lav til akseptabel, dvs. fra 31 %–73 %, mens spesifisiteten var høy, dvs. > 0,90 %.

Krav om at småbarna oppfylte ADI-R klinisk grenseverdi og ADOS klinisk grenseverdi ga svært god spesifisitet (95 %–100 %). Det mindre restriktive kravet om at barna enten skulle oppfylle grenseverdi på ADI-R eller ADOS, ga svært god sensitivitet (95 %–100 %). Blant barna med kun enkeltordtale eller mindre talespråk, var kompromisset lav spesifisitet (57 %–64 %), mens spesifisiteten var god for barna med frasetale (83 %).

Begrepsvaliditeten til ADI-R undersøkt ved grad av samsvar, dvs. korrelasjon med ADOS skårer viste tilfredsstillende samsvar, dvs. $r = 0,63$ (ADI-R småbarns algoritme: frasetale $r = 0,56$, enkeltord $r = 0,52$, ikke-verbal $r = 0,77$). Samsvar mellom ADI-R-skårer og klinisk diagnose ble analysert ved hjelp av ROC-analyser og området under ROC-kurven

(AUC). AUC-verdi, oppgitt for totalutvalget, var høy, dvs. 0,95. Det var ingen signifikant forskjell mellom ADI-Rs og ADOS' AUC-verdier. Logistisk regresjonsanalyse viste at ADI-R-skårer og ADOS-skårer bidro uavhengig av hverandre i prediksjon av ASD-diagnoser (ADOS: OR = 1,96, $p < 0,001$, ADI-R: OR = 1.42, $p < 0,001$) med uavhengige bidrag fra domene sosial kommunikasjon ($p < 0,001$) og repetitiv atferd ($p < 0,04$) fra begge instrumentene. Barn med ASD som ble feilklassifisert som andre ikke-ASD-diagnoser hadde høyere IQ ($d = 0,63$, $p = 0,02$) og språknivå ($d = 0,68$, $p < 0,01$). Videre hadde barn med andre ikke-ASD-diagnoser som ble feilklassifisert av ADI-R som ASD, lavere IQ ($d = 0,75$, $p = 0,001$), lavere språkferdigheter ($d = 0,68$, $p < 0,01$) og mer foreldrerapporterte atferdsvansker (Child Behavior Checklist, $d = 0,77$, $p < 0,001$).

Havdahl et al. fant at foreldrebekymring for ASD (operasjonalisert som at foreldre svarte positivt på spørsmål om barnet hadde autistiske trekk i screeningfasen til studien, og/eller at foreldre selv bad om henvisning eller samtykket til henvisning for utredning av mulig ASD) var assosiert med en ASD diagnose. For småbarna hvor det forelå foreldrebekymring for ASD, hadde ADI-Rs klinisk grenseverdi en høy sensitivitet på 85 % og en lavere spesifisitet på 68%. Til forskjell viste ADI-R klassifiseringene betydelig lavere sensitivitet på 57 % og høyere spesifisitet på 94% for småbarn hvor det ikke forelå foreldrebekymring for ASD. Foreldrebekymring for ASD var ikke kun assosiert med ASD-diagnose, men også høyere ADI-R skårer for småbarna som ikke fikk ASD-diagnose. Regresjonsanalyser viste at assosiasjonen mellom slik foreldrebekymring og høyere ADI-R-skårer vedvarte ($B = 2.37$, $p < 0,001$) selv etter kontroll av IQ, språkferdigheter og foreldrerapporterte atferdsvansker (alle p -verdier $< 0,01$).

Fem studier belyser validiteten til den svenske versjonen av ADI-R. Zander et al. (2015) undersøkte kriterievaliditeten for de nye småbarns algoritmene i form av samsvar mellom ADI-R-klassifisering og klinisk diagnose ved å beregne sensitivitet og spesifisitet. Ved anvendelse av den kliniske grenseverdien varierte sensitivitet fra lav til akseptabel, dvs. fra 53 % til 70 %, mens spesifisitet var akseptabel fra 69 % til 81 %. Tilsvarende ved anvendelse av den strengere

forskningsgrenseverdien var sensitiviteten generelt lav fra 44 %–52 %, mens spesifisiteten var høy > 90 %. Antall korrekte diagnostiserte småbarn varierte fra 60 %–70 % ved anvendelse av klinisk- så vel som forsknings grenseverdi. Samsvar mellom ADI-R-skårer og klinisk diagnose ble analysert ved hjelp av ROC-analyser. AUC-verdier var for alle gruppene akseptable til høye (ikke-verbal gruppen 0,79, for enkeltordtalegruppen 0,75 og for frasetalegruppen 0,74 (alle p verdier $< 0,001$).

Sammenligning av samsvar mellom ADI-R grenseverdier og klinisk diagnose i Zander et al. (2015) ga svake kappa-verdier for ikke-verbalgruppen på 0,21 ($p = 0,024$) for klinisk grenseverdi og 0,25 ($p = 0,003$) for forskningsgrenseverdien. Kappa-verdier for grad av samsvar for enkeltordtale gruppen var svake for både den klinisk grenseverdien og forskningsgrenseverdien (henholdsvis 0,37 $p = 0,001$ og 0,28 $p = 0,001$). Kappa-verdier var også svake for grad av samsvar for frasetale gruppen 0,34 ($p = 0,001$) for klinisk grenseverdi og 0,40 ($p = 0,001$) for forsknings grenseverdi. Barn med ASD som ble feilklassifisert som andre ikke-ASD-diagnoser hadde et høyere adaptiv funksjonsnivå, målt vha. Vineland totalskår, enn barn med ASD som ble korrekt klassifisert. Videre hadde barn med andre ikke-ASD-diagnoser som ble feilklassifisert som ASD, lavere alder enn korrekte klassifiserte barn med ikke-ASD-diagnoser.

For alle utviklingsgruppene (ikke-tale, enkeltordtale, frasetale) ga kombinert bruk av både ADI-R og ADOS høyere spesifisitet (88 %–100 %) enn sensitivitet (34%–64%) med korrekt klassifisering mellom 57 %–73 %.

Begrepsvaliditet undersøkt ved grad av samsvar mellom ADI-R og ADOS' klassifisering for hele utvalget, ga samlet en svak kappa-verdi på 0,23 ($p < 0,001$) for både ADI-R klinisk- og forskningsgrenseverdi og ADOS' autismespektrumgrenseverdi. Samsvar mellom ADI-R og ADOS ble også undersøkt i korrelasjonsanalyser av domene- og totalskårer for begge instrumentene. Korrelasjonskoeffisientene for ADI-R og ADOS' totalskårer var tilnærmet tilfredsstillende for ikke-verbal gruppen, dvs. 0,53 ($p < 0,001$), men utilfredsstillende for enkeltordtale gruppen og frasetalegruppen, dvs. r på henholdsvis

0,31 ($p = 0,004$) og 0,42 ($p < 0,001$). Korrelasjonskoeffisientene for Sosial affekt hovedsakalen for begge instrumentene viste samme mønster 0,50 (ikke-verbal gruppen $p < 0,001$), 0,28 (enkeltordtale gruppen, $p = 0,009$) og 0,45 (frasetale gruppen, $p < 0,001$), mens korrelasjonskoeffisientene for «Begrenset, repeterende og stereotype atferdsmønstre» var utilfredsstillende for enkeltordtale og frasetale gruppene, dvs. 0,19 ($p = 0,076$ og $p = 0,062$), og på grensen til tilfredsstillende for ikke-verbal gruppe, dvs. 0,40 ($p = 0,001$).

Nygren et al. (2009) undersøkte kriterievaliditeten av den opprinnelige diagnostiske ADI-R algoritmen sammenlignet med klinikerdiagnose. ADI-R ga en korrekt klassifisering av 32 av 33 mulige pasienter med barneautismediagnose. Femten individer i studien uten klinisk barneautismediagnose ble klassifisert med barneautisme av ADI-R. Åtte av disse dekket imidlertid de diagnostiske kriteriene for atypisk autisme, seks Aspergers syndrom, og en person hadde ingen klinisk diagnose. ADI-R fanget ikke opp fem pasienter med en klinisk ASD-diagnose. En anvendelse av ADI-R-grenseverdier for ASD foreslått av Risi et al. (2006), gjorde at fire av disse fem ble identifisert av ADI-R som ASD. Den opprinnelige ADI-R-algoritmen klassifiserte 47 pasienter med en barneautisme. Tilsvarende klassifiserte ADOS 44 pasienter med en barneautisme. Grad av samsvar mellom ADI-R og ADOS angis som svært god.

Kopp et al. (2010) undersøkte indirekte begrepsvaliditeten til den opprinnelige diagnostiske ADI-R-algoritmen gjennom å undersøke forskjeller i totalskårer for ulike diagnostiske grupper. Jenter med høyt fungerende ASD hadde signifikant høyere totalskår ($M = 23$, $SD = 11,3$) sammenlignet med jenter med ADHD ($M = 10$, $SD = 7,5$) og en kontrollgruppe ($M = 2$, $SD = 2,7$) (alle p -verdier $< 0,001$). Alder korrelerte ikke signifikant med ADI-R.

Ekström et al. (2008) undersøkte kriterievaliditeten til ADI-R og fant at av 20 barn og unge med muskelsykdommen DM1 og klinisk barneautismediagnose, var det kun litt over halvparten ($n = 12$, 60 %) av disse som oppfylte ADI-Rs kriterier for barneautisme. Det forelå ikke signifikante korrelasjoner mellom ADI-R-skårer og

mental retardasjon, kjønn, arvelighet eller motorisk funksjon.

I Johansson et al. (2010) ble egnetheten av ulike ADI-R spørsmålsledd forsøkt vurdert for deltakere med syndromer kjennetegnet av ulik grad av sensoriske utfall for syn og hørsel. ADI-R er ikke utformet for personer med større grad av sensoriske utfall. Spørsmålsledd forskerne vurderte som ikke-egnet for deltakere med alvorlig synshemming var ledd som f.eks. gestbruk, blikk-kontakt og gjenkjenning av ansiktsuttrykk, eller ledd som omhandler interesse for samhandling med andre, men som ikke var mulige pga. sensoriske- og andre handikap. ADI-R leddⁱⁱⁱ som ble vurdert til å ikke alltid være egnet var nummer 42, 43, 52, 64, 66, 67, 68, 68, 69, 11, 49, 51, 53, 30, 31, 32, 33, 29, 63 og 65. For Möbius-gruppen ble leddene 52 (variasjon i ansiktsuttrykk), 43 (sosialt smil) og 42 (blikk-kontakt) ekskludert hyppigst for henholdsvis 45 % ($n = 9$), 40 % ($n = 8$) og 5 % ($n = 5$) av deltakerne. Tilsvarende for CHARGE-gruppen der ledd 52 (variasjon ansiktsuttrykk), ledd 42 (blikk-kontakt) og ledd 33 (riste på hodet) ble ekskludert hyppigst for henholdsvis 29 % ($n = 8$), 21 % ($n = 6$) og 21 % ($n = 6$). For OAV gruppen var eksklusjon av enkelte spørsmålsledd nede i lavere prosentandel.

Det ble beregnet to skårer for innvirkning av ekskluderte ADI-R ledd. En vurdert skår ble basert på gjenværende ADI-R ledd i diagnostisk algoritme og en maksimal mulig skår ble basert på gjenværende ADI-R ledd og ekskluderte ledd. Døvblinde pasienter ble slått sammen til en undergruppe uavhengig av hvilken type syndrom de tilhørte, dvs. CHARGE ($n = 3$) eller OAV ($n = 1$). Deltakere angitt som verbal eller ikke-verbal ble, i henhold til ADI-R algoritmen, slått sammen til en gruppe i beregning av skåren for ADI-R "Kvalitative avvik i kommunikasjon". Det angis at forskjellen mellom vurdert gjennomsnittsskår og maksimal mulig gjennomsnittsskår for hovedskalaen "Kvalitative avvik i gjensidig sosialt samspill" var mer uttalt i Möbius gruppen ($M = 7,30$, $SD = 8,74$ versus $M = 10,50$ $SD = 9,68$) og tilskrevet eksklusjon av leddene "direkte blikk-kontakt", "sosialt smil" og "variasjon i ansiktsuttrykk brukt i kommunikasjon", sammenlignet med CHARGE ($M = 11,60$, $SD = 10,25$ versus $M = 11,96$, $SD = 10,35$) og OAV gruppene (M

= 6,89 $SD = 6,72$ versus $M = 7,89$ $SD = 7,28$). For CHARGE-gruppen angis det at forskjellen mellom vurdert gjennomsnittsskåre og maksimal mulig gjennomsnittsskåre var mest uttalt for deltakere med barneautismediagnose sammenlignet med deltakere med mildere autistiske symptomer. I Möbius og OAV- gruppene var forskjellen mellom vurdert og maksimal mulig gjennomsnittsskår jevnere fordelt mellom de ulike ASD, inkludert barneautismediagnosene.

For hovedskalaen "Kvalitative avvik i kommunikasjon" angis det at det ikke var forskjell mellom vurdert og maksimal mulig gjennomsnittsskåre for deltakere med barneautisme i de ulike syndromgruppene (Möbius $n = 6$, CHARGE $n = 5$, OAV $n = 2$), og heller ikke for deltakere med autisme-lignende tilstand i CHARGE gruppen ($n = 5$). For hovedskalaen "Begrensede, repetitive og stereotype atferdsmønstre" var det ingen forskjell mellom vurdert og maksimal mulig gjennomsnittsskåre uavhengig av syndromgruppe. Ingen ledd i denne hovedskalaen ble vurdert som ikke egnet. For den døvblinde gruppen ($n = 4$) var maksimal mulig gjennomsnittsskår for hovedskalaen «Kvalitative avvik i gjensidig sosialt samspill» mer enn tre ganger større enn vurdert gjennomsnittsskår ($M = 7,75$ $SD = 1,71$ versus $M = 26,25$ $SD = 1,26$) og maksimal mulig gjennomsnittsskår på «Kvalitative avvik i kommunikasjon» var mer enn fem ganger høyere enn vurdert gjennomsnittsskår ($M = 2,00$ $SD = 1,63$ versus $M = 11,50$ $SD = 1,00$).

Ved undersøkelse av begreps- og kriterievaliditeten til ADI-R for Möbius gruppen angis det fullstendig grad av samsvar mellom ADI-R, CARS og kliniker satt barneautismediagnose. For CHARGE-gruppen identifiserte ADI-R ni deltakere med barneautisme, hvorav seks av disse hadde en slik klinisk diagnose. Tre av deltakerne som ble identifisert av ADI-R algoritmen, men som ikke hadde en klinisk barneautisme diagnose, hadde likevel ASD relaterte vansker ($n = 2$ autisme-liknende tilstand og $n = 1$ autismetrekk). Fullstendig grad av samsvar i forhold til diagnosen barneautisme ble ikke påvist for noen av de diagnostiske instrumentene/kriteriene. For OAV- gruppen angis det at det var fullstendig samsvar mellom instrumentene CARS, ABC og klinikersatt barneautismediagnose, mens ADI-R over-

diagnostiserte en deltaker med barneautisme, som hadde en klinisk diagnose med autismetrekk.

Reliabilitet

Det foreligger ikke norske eller danske data på verken indre konsistens, test-retest reliabilitet, endringssensitivitet og/eller interrater reliabilitet.

Den svenske studien til Zander et al. (in press) fant for enkeltleddene innen "Kvalitative avvik i gjensidig sosialt samspill" i ADI-R algoritmen en median interrater reliabilitets koeffisient på $G(q,k)_{\text{median}} = 0,98$ (spredning $G(q,k) = 0,90-1,00$) med en prosentvis enighet (antall ledd med samsvar delt på totalt antall observasjoner) på 83 % (spredning 63-96 %). For enkeltleddene innen «Kvalitativt avvik i kommunikasjon» var interrater reliabilitets koeffisient på $G(q,k)_{\text{median}} = 0,97$ (spredning $G(q,k) = 0,91-0,98$) med en prosentvis enighet på 85 % (spredning 69-100 %). Tilsvarende for enkeltleddene innen "Begrensede, repetitive og stereotype atferdsmønstre" var interrater reliabilitets koeffisient på $G(q,k)_{\text{median}} = 0,94$ (spredning $G(q,k) = 0,88$ til $0,96$) med en prosentvis enighet på 79,5 % (spredning 71-100 %). For enkeltleddene innen domenet «Avvikende utvikling ved/før 36 måneder» var $G(q,k)_{\text{median}} = 0,96$ (spredning $G(q,k) = 0,86-1,00$). Interrater reliabiliteten til enkeltleddene var god til utmerket.

For de fire enkeltleddene innen «Kvalitative avvik i gjensidig sosialt samspill» som inngår i diagnosekriteriene (A1- A4) varierte $G(q,k)$ fra 0,96-0,99 med $G(q,k)$ på 0,99 for hele "Kvalitative avvik i gjensidig sosialt samspill"- domenet. For enkeltleddene i «Kvalitativt avvik i kommunikasjon» som inngår i diagnosekriteriene (B1, B4, B2V, B3V) varierte $G(q,k)$ fra 0,96 til 1,00 med $G(q,k)$ på 0,98 for hele domenet. Tilsvarende for enkeltleddene innen «Begrensede, repetitive og stereotype atferdsmønstre» (C1-C4) varierte $G(q,k)$ fra 0,91-0,97 med $G(q,k)$ på 0,97 for hele domenet. Interrater reliabiliteten til de diagnostiske enkeltleddene ble slik funnet å være utmerket. Diagnostisk klassifisering av autisme i

henhold til ADI-R krever at grenseverdier er nådd for alle atferdsdomenene og "Avvikende utvikling ved/før 36 måneder"-domenet. Interrater reliabilitetskoeffisienter for klassifisering av hvert

Tabell 3. Interrater reliabilitet for ADI-R domener og diagnostisk klassifisering.

	Sosialt samspill	Språk og kommunikasjon	Begrenset, repetitivt	Avvikende tidlig utvikling	Diagnostisk klassifisering
PA (%)	94	96	84	86	84
Fleiss generalized kappa	0,87	0,88	0,50	0,65	0,68
Cohen's kappa	0,93	0,94	0,76	0,83	0,83

Note. Hentet fra Zander et al. (in press). PA = prosentvis eksakt enighet.

domene og endelig diagnose fremgår av Tabell 3. Fleiss' k varierte fra 0,50 til 0,87 og Cohen's k fra 0,76–0,94. Prosentvis samsvar varierte fra 86 %–96 %. Samlet sett var interrater reliabiliteten for diagnostisk klassifisering funnet å være god til utmerket.

Diskusjon og konklusjon

Kun en norsk studie har vurdert validiteten til ADI-R (Havdahl et al., in press). Fem studier har vurdert den svenske ADI-R-versjonens validitet (Ekström et al., 2008; Johansson, Gillberg & Råstam, 2010; Kopp, Kelly & Gillberg, 2010; Nygren et al. 2009; Zander, Sturm & Bölte, 2015), mens en studie har vurdert inter-rater reliabiliteten (Zander et al., in press). Det foreligger ingen danske studier.

De nye diagnostiske småbarns algoritmenes grenseverdier har lavere sensitivitet og høyere spesifisitet i et norsk befolkningsutvalg sammenlignet med de originale valideringsstudiene fra USA gjort i kliniske utvalg (Havdahl et al., in press; Kim & Lord, 2012a). Det betyr at de diagnostiske algoritmene for dette utvalget i Norge i noe mindre grad klarte å fange opp barn som hadde autisme sammenlignet med originalstudiene. På den annen side evnet imidlertid algoritmene som ble anvendt i Norge i noe større grad å skille ut barn som ikke oppfylte diagnostiske kriterier for autisme. Det fremkom godt samsvar mellom de kontinuerlige ADI-R-skårene og klinisk diagnose satt i klinikken. Strukturert observasjon av barnet ved hjelp av

ADOS og ADI-R ga uavhengige bidrag i prediksjon av klinisk ASD-diagnose. Det anbefales derfor bruk av både direkte observasjon og kartlegging av omsorgsgivers erfaringer med barnet i diagnostikk av ASD (Havdahl et al in press; Kim & Lord, 2012a; Zander et al., 2015). Kjennetegn hos barn med ASD som ikke ble fanget opp av ADI-R var høyere intellektuell funksjon og bedre språkferdigheter. Det motsatte var tilfellet for barn uten autisme som ADI-R feilklassifiserte med autisme, i tillegg til at disse barnas foreldre oppga atferdsvansker som ikke er spesifikke for ASD som hyperaktivitet, irritabilitet og angst.

Foreldrebekymring for at barnet skulle ha ASD var forbundet med høyere ADI-R-skårer selv etter kontroll for IQ, språkferdigheter og atferdsvansker. Fravær av foreldrebekymring for ASD påvirket ADI-R klassifisering. ADI-R småbarns algoritmer viste redusert sensitivitet og økt spesifisitet for småbarn uten slik foreldrebekymring. Nesten halvparten av småbarna med ASD hvor foreldrene ikke hadde uttrykt bekymring ble ikke fanget opp av ADI-R.

Validiteten til de nye diagnostiske småbarns algoritmene er også undersøkt i en svensk studie. Zander et al. (2015) fant betydelig lavere sensitivitet enn spesifisitet for den svenske ADI-R-versjonen sammenlignet med de opprinnelige amerikanske valideringsstudiene (Kim & Lord, 2012b; Kim, Thurm, Shumway & Lord, 2013). Kjennetegn hos barn med ASD som ikke ble fanget opp av ADI-R, var bedre adaptive hverdagsferdigheter. Dette funnet var i tråd med resultatene fra de opprinnelige amerikanske

utvalgene (Kim & Lord, 2012a). I motsetning til opprinnelige studier, fant den svenske studien at barn uten autisme som ADI-R feilklassifiserte med autisme, hadde lavere alder enn korrekte klassifiserte barn som hadde andre diagnoser enn ASD. Funn fra den svenske ADI-R-versjonen viste også varierende grad av samsvar mellom ADI-R og ADOS både for instrumentenes kontinuerlige skårer og kategorisk enighet i diagnostiseringen. I overenstemmelse med de norske funnene fra Havdahl et al. (in press), utfylte ADI-R og ADOS hverandre med korrekt identifisering av barn med ASD og barn som hadde andre diagnoser enn ASD.

De øvrige svenske studiene som undersøkte validiteten til den opprinnelige ADI-R-algoritmen, er alle basert på for små utvalgsstørrelser til å kunne trekke sikre konklusjoner (Ekstrøm et al., 2008; Johansson et al., 2010; Kopp et al. 2010; Nygren et al. 2009). De foreløpige funnene viste at ADI-R evner å skille adekvat mellom personer med autisme versus personer med andre vansker som f.eks. psykisk utviklingshemning eller språkførstyrrelser. For personer med syndromdiagnosene Möbius, CHARGE og OVAS, som også innebærer ulik grad av sensoriske utfall i syn/og eller hørsel er egnetheten av ADI-R mer usikker. Dette gjelder spesielt for døvblinde personer ettersom flere spørsmålsledd i ADI-R forutsetter adekvat syn og hørsel.

Det foreligger ikke studier på den norske ADI-R versjonens reliabilitet eller normgrunnlag. Sistnevnte gjelder også for den svenske ADI-R versjonen. Inter-rater reliabiliteten, dvs. samsvar mellom ratere i skåring av ADI-R, er undersøkt i en svensk studie. Det fremkom her godt samsvar mellom ratere i skåringen av de enkelte spørsmålsleddene, og svært godt samsvar for leddene som inngår i den diagnostiske algoritmen. Samsvar mellom ratere i diagnostisk klassifisering av autisme var også, i all hovedsak, god. Siden utvalgsstørrelsen og sammensetningen av utvalget var begrenset, kan generaliserbarheten av funnene være usikker.

Middelverdier for de ulike hovedskalaene i normeringsutvalget for førskolebarn, i den amerikanske manualen, ligger over middelverdiene til det norske befolkningsbaserte utvalget til Havdahl et al. (in press) (se tabell 2). Dette kan nok

i stor grad tilskrives utvalgsforskjeller da det over 20 år gamle originalutvalget besto av få barn ($N = 25$), og var et klinisk høyrisikoutvalg av pasienter med mistanke om barneautisme. Til forskjell anvendte det norske befolkningsutvalget en bred definisjon av autisme som også inkluderte autismspekterforstyrrelser som uspesifisert gjennomgripende utviklingsforstyrrelser og Asperger. Dersom de amerikanske normene brukes er det viktig å være klar over dette.

Oppsummert gir de få psykometriske studiene i all hovedsak tilfredsstillende støtte for ADI-R-målets småbarns algoritmer når en komplementerer diagnostikken av ASD ved hjelp av direkte observasjon ved bruk av ADOS. Det er behov for studier av validiteten til de ordinære diagnostiske algoritmene, men også for instrumentets reliabilitet i tillegg til normeringsstudier. Det er også behov for mer dokumentasjon av hvordan faktorer som barnets alder, intellektuelle kapasitet, atferds- og emosjonelle vansker samt foreldrebekymring kan påvirke instrumentets diagnostiske klassifisering.

Referanser

- American Psychiatric Association (1994). *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, Fourth Edition*, Washington D.C.
- American Psychiatric Association (2013). *Diagnostic and Statical Manual of Mental Disorders, Fifth Edition*. Arlington, VA
- Cohen, I.L. (2003). Criterion-related validity of the PDD Behavior Inventory. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 33, 47–53.
- Constantino, J.N., Davis, S.A., Todd, R.D., Schindler, M.K., Gross, M.M., Brophy, S.L. et al. (2003). Validation of a brief qualitative measure of autistic traits: Comparison of the social responsiveness scale with the Autism Diagnosis Interview-Revised. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 33, 427–433.
- Ekström, A.-B., Hakenäs-Plate, L., Samuelsson, L., Tulinius, M. & Wentz, E. (2008). Autism spectrum conditions in myotonic dystrophy type 1: A study on 57 individuals with congenital and childhood forms. *American Journal of Medical Genetics Part B*, 147B, 918–926.

European Federation of Psychologists' Association (EFPA). (2013). EFPA Review model for the description and evaluation of psychological tests: Test review form and notes for reviewers, v 4.2.6: EFPA.

Gillberg, I.C. & Gillberg, C. (1989). Asperger syndrome –Some epidemiological considerations: A research note. *Journal of Child Psychology & Psychiatry*, 30, 631–638.

Havdahl, K.A., Bal, V.A., Huerta, M., Pickles, A., Øyen, A-S., Stoltenberg, C. & Lord, C. (2016). Multidimensional influences on autism symptom measures: Implications for use in etiological research. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 55, 1054–1063.

Havdahl, K.A., Bishop, S.L., Surén, P., Øyen, A., Lord, C., Pickles, A. et al. (in press). The influence of parental concern on the utility of autism diagnostic instruments.

Johansson, M., Gillberg, C. & Råstam, M. (2010). Autism spectrum conditions in individuals with Möbius sequence, CHARGE syndrome and oculo-auriculo-vertebral spectrum: Diagnostic aspects. *Research in Developmental Disabilities*, 31, 9–24.

Kim, S.H. & Lord, C. (2012a). Combining information from multiple sources for the diagnosis of autism spectrum disorders for toddlers and young preschoolers from 12 to 47 months of age. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 53, 143–151.

Kim, S.H. & Lord, C. (2012b). New autism diagnostic interview-revised algorithms for toddlers and young preschoolers from 12 to 47 months of age. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 42, 82–93.

Kim, S.H., Thurm, A., Shumway, S. & Lord, C. (2013). Multisite study of New Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R) Algorithms for toddlers and young preschoolers. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43, 1527–1538.

Kopp, S., Kelly K.B. & Gillberg, C. (2010). Girls with social and/or attention deficits: A descriptive study of 100 clinic attenders. *Journal of Attention Disorders*, 14, 167–181.

Le Couteur, A., Rutter, M., Lord, C. Rios, P., Robertson, S., Holdgrafer, M., & McLennan, J.D. (1989). Autism Diagnostic Interview: A semistructured interview for parents and caregivers of autistic persons. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 19, 363–387.

Lord, C. & Jones, R.M. (2012). Annual research review: Re-thinking the classification of autism spectrum disorders. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 53 (3): 490–509.

Lord, C., Rutter, M. & Le Couteur, A. (1994). Autism Diagnostic Interview-Revised: A revised version of a diagnostic interview for caregivers of individuals with possible pervasive developmental disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 24(5): 659–685.

Lord, C. et al., (2000). The Autism Diagnostic Observation Schedule- Generic: A standardized measure of social and communication deficits associated with the spectrum of autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 30(3): 205–223.

Lord, C. et al., (2012). A multisite study of the clinical diagnosis of different autism spectrum disorders. *Arch gen Psychiatry*, 69 (3): 306–313.

Matson, J.M., Nebel-Schwalm, M. & Matson, M.L. (2007). A review of methodological issues in the differential diagnosis of autism spectrum disorders in children. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 1, 38–54.

Norris, M., Lecavier, L. & Edwards, M.C. (2012). The structure of autism symptoms as measured by the autism diagnostic observation schedule. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 42(6):1075–86.

Nygren, G., Hagberg, B., Billstedt, E., Skoglund, Å., Gillberg, C. & Johansson, M. (2009). The Swedish version of the diagnostic interview for social and communication disorders (DISCO-10). Psychometric properties. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39, 730–741.

Rutter, M., Lecouteur, A. & Lord, C. (2003). *The Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R)*. Los Angeles, CA, Western psychological Services.

Rutter's Child and Adolescent Psychiatry (2015). Redaktører: Thapar, A. & Pine, D.A., Leckman, J.F., Scott, S., Snowling, M.J, Taylor, E. Sixth edition, John Wiley and sons, ltd.

Schjøllberg, S. (2015). Autism Diagnostic Interview og Autism Diagnostic Observation Schedule i Norge. *Autisme i dag*, 42, (3): 92–97.

World Health Organisation (1993) *The ICD-10 classification of mental and behavioural disorders: diagnostic criteria for research*. Geneva, Switzerland: WHO; 1993

Zander, E., Strum, H. & Bölte, S. (2015). The added value of the combined use of the autism diagnostic interview-revised and the autism diagnostic observation schedule: Diagnostic validity in a clinical swedish sample of toddlers and young preschoolers. *Autism*, 19, 187–199.

Zander, E., Willfors, C., Berggren, S., Coco, C., Holm, A., Jifält, I. et al. (in press). The interrater reliability of the Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R) in clinical settings. *Psychopathology*.

ⁱ Det ble gjort et oppdatert søk i 2017 for tidsperioden 2015-2017. Det fremkom 66 treff. Etter gjennomgang av sammendragene ble ingen artikler vurdert å oppfylle inklusjonskriterier.

ⁱⁱ ADI-R klinisk grenseverdi: ikke-verbal =11, enkeltord tale = 8 og frasetale = 13.

ⁱⁱ ADI-R forsknings grenseverdi: Ikke-verbal =13, enkeltord tale = 13 og frasetale = 16.

ⁱⁱⁱ I oppdaterte ADI-R protokoll (Rutter, Le Couteur & Lord, 2003) har spørsmålsledd som Johansson et al. (2010) refererer til fått annen nummerering. F.eks. variasjon ansiktsuttrykk = ledd 57. Sosialt smil = ledd 51. Blikk-kontakt = ledd 50. Riste på hodet = ledd 44.