

## **Titolo:** La valutazione delle Funzioni Esecutive nei bambini con Disturbo dello Spettro Autistico in età prescolare: utilità e limiti del BRIEF-P nella pratica clinica.

*Magda Di Renzo, Federico Bianchi di Castelbianco, Elena Vanadia, Massimiliano Petrillo, Lidia Racinaro, Mirko Stracqualursi, Monica Rea*  
Istituto di Ortofonia (IdO), Via Salaria, 30-00198-Rome, Italy

**Abstract:** Questo studio esamina l'ambito del funzionamento esecutivo in bambini di età prescolare con disturbo dello spettro autistico (ASDs) e verifica il grado di accordo tra compilazione del Behavior Rating Inventory of Executive Functions-Preschool Version (BRIEF-P) da parte dei genitori e dei terapeuti. A tal fine, a genitori e operatori di 46 bambini di età compresa tra 24 e 71 mesi clinicamente affetti da ASDs è stato fatto compilare il BRIEF-P per evidenziare il grado di accordo tra i due diversi valutatori e per indagare, dove possibile, le correlazioni tra la compromissione delle FE e il grado di sintomatologia autistica, di sviluppo cognitivo, l'età cronologica e il tempo di terapia. I risultati hanno mostrato che i genitori tendono a sottostimare la compromissione delle funzioni esecutive nei bambini ASD, rispetto a quanto valutato dagli operatori specializzati; dunque tra i due valutatori è stato trovato un basso grado di accordo. Inoltre, sia nei questionari compilati dai genitori che dagli operatori, la compromissione delle FE non è risultata correlata alla gravità della sintomatologia autistica, mentre sono emerse correlazioni con lo sviluppo cognitivo nelle valutazioni degli operatori, con l'età cronologica e la durata della terapia nelle valutazioni dei genitori. Questi risultati indicano che, nonostante tra le ipotesi patogenetiche dei ASDs sia stata inserita quella del deficit delle FE, quest'ultimo, quando presente, non correla con la gravità della sintomatologia autistica. In merito allo sviluppo cognitivo è invece evidente una maggior concordanza con l'impairment esecutivo.

### **Introduzione**

**Le Funzioni Esecutive** (FE) si riferiscono a una varietà di processi cognitivi responsabili del controllo, della direzione e del monitoraggio di funzioni cognitive, emotive e comportamentali superiori, caratterizzate da processi di controllo volontario e organizzate in funzione di uno scopo orientato alla risoluzione di un problema. Questi moduli funzionali della mente regolano i processi di pianificazione, controllo e coordinazione del sistema cognitivo e governano l'attivazione e la modulazione di schemi e processi cognitivi.

Welsh e Pennington (1988), hanno descritto lo sviluppo precoce delle funzioni esecutive in termini di abilità nel mantenere attivo uno schema appropriato di problem solving per realizzare obiettivi. Stuss e Benson (1986) hanno illustrato un insieme di capacità inter-correlate nel problem solving intenzionale che include anticipazione, la selezione dell'obiettivo, la pianificazione, il monitoraggio e l'uso dei feedback. Il modello gerarchico proposto dagli autori mette in evidenza importanti aspetti delle funzioni esecutive implicate a livelli cognitivi più complessi come l'anticipazione, la valutazione, la consapevolezza di sé e la presa di decisione. I sottodomini specifici che costituiscono questo insieme di funzioni di regolazione e controllo, includono la capacità di iniziare un comportamento, inibire le azioni o gli stimoli concorrenti, selezionare, pianificare e organizzare soluzioni, cambiando in maniera flessibile le strategie cognitive e comportamentali durante il controllo e la valutazione delle procedure utilizzate. È importante sottolineare che le funzioni esecutive non sono esclusive del funzionamento e del controllo cognitivo, ma implicate nella regolazione delle risposte emotive e comportamentali, per cui fondamentali nello sviluppo delle capacità di adattamento socio-cognitivo, emotivo e relazionale.

Nello sviluppo neuro-evolutivo, l'emergere e lo svilupparsi delle funzioni esecutive variano tra gli individui in termini di esordio, età e livello di sviluppo, per cui disturbi del neurosviluppo sembrerebbero definire pattern disomogenei di funzionamento in tali aree, trovati in bambini di età prescolare e adolescenti (Diamond et al., 1997; McEvoy, Rogers e Pennington, 1993). La valutazione clinica diretta delle funzioni esecutive è stata molto problematica a causa della loro variabilità e per le componenti dinamiche che le contraddistinguono, in particolar modo nell'età

prescolare per i limiti nelle competenze verbali e motorie in questa fascia di età (Epsy e Kaufmann, 2002). Per questo motivo le informazioni ricavabili dalle risposte di genitori, educatori e/o terapisti che abbiano un rapporto costante con il bambino in situazioni quotidiane, possono risultare utili per la validità ecologica, in quanto non intrusivi, e consentono l'osservazione dei comportamenti attuali e/o emergenti del bambino.

Dal momento che, secondo la letteratura, le funzioni esecutive sono determinanti nei processi di adattamento sociale, nello sviluppo cognitivo e linguistico e nella capacità relazionali e comunicative, la valutazione delle funzioni esecutive può rappresentare un elemento importante nella definizione di profili di sviluppo individuali in bambini con Disturbo dello Spettro Autistico, in cui lo sviluppo neuroevolutivo è caratterizzato da deficit socio-cognitivi, con grave compromissione della reciprocità socio-emozionale, della comunicazione, verbale e non verbale, in presenza di comportamenti ristretti e ripetitivi (DSM-5, APA, 2013). Alla luce di quanto finora illustrato, l'obiettivo della presente ricerca è stato quello di verificare il grado e l'attendibilità del rilievo della compromissione delle FE di bambini con ASD, correlando tra loro i punteggi ottenuti da genitori e operatori del Brief-P e poi confrontandoli con quelli dell'ADOS-2, con il QI, con l'età dei bambini e con i tempi della terapia, per indagare le possibili correlazioni tra lo sviluppo delle funzioni esecutive e la sintomatologia autistica, il livello di sviluppo cognitivo, l'età cronologica e il tempo di terapia.

In considerazione del fatto che i processi cognitivi inclusi nel dominio delle funzioni esecutive risultano essere cruciali per lo sviluppo del bambino e per un efficace adattamento all'ambiente in cui vive, il monitoraggio precoce di queste abilità può dunque essere utile per identificare bambini a rischio di sviluppare un disagio sociale e per pianificare interventi psicoeducativi adeguati a favorire la salute e il benessere dei bambini in età prescolare.

## **Metodo**

### **Partecipanti**

I partecipanti dello studio sono 46 bambini di età compresa tra i 24 e i 71 mesi ( $M = 42.74 \pm 13.4$ ). Tutti i bambini hanno ricevuto una diagnosi di disturbo dello spettro autistico (ASD) basata sia sui punteggi ADOS-2 che su una valutazione clinica basata sui criteri diagnostici del DSM 5. I bambini coinvolti nella ricerca frequentavano l'istituto in media da 5,8 mesi ( $SD = 7.7$ ; range in mesi: 0-33). In tabella 1 sono descritte le caratteristiche anagrafiche del campione.

Come previsto dalla ADOS-2, in base all'età cronologica e al livello di linguaggio espressivo, 30 dei 46 bambini sono stati valutati con il Modulo 1 dell'ADOS-2 e hanno ottenuto un punteggio medio di  $18.43 \pm 4.9$  (range 9 – 26); 2 bambini sono stati valutati con il Modulo 2 dell'ADOS-2 e hanno ottenuto un punteggio medio di  $7.50 \pm 0.7$  (range 7 – 8) e 14 bambini sono stati valutati con il Modulo Toddler dell'ADOS-2 e hanno ottenuto un punteggio medio di  $18.80 \pm 5.2$  (range 6 – 25). Si specifica che parlare di disturbi dello spettro autistico (ASDs) secondo i criteri clinici del DSM-5 è diverso da parlare di spettro autistico (SpD) come grado di sintomatologia autistica secondo l'ADOS-2.

Nel campione ci sono 36 maschi e 10 femmine, in linea con le recenti pubblicazioni sull'autismo che indicano un rapporto maschio/femmina di 3:1 (Nicholas et al. 2008)

Al momento della prima valutazione, nei bambini non era presente una forma di linguaggio verbale, per cui il loro livello cognitivo è stato valutato attraverso le scale LEITER-R.

Dei 46 bambini del campione, 28 hanno uno o più fratelli. Di questi, 10 hanno fratelli con problemi (4 bambini hanno un fratello ASD; 3 hanno un fratello con DSL; 3 hanno un fratello con Disturbo della sfera emotiva).

<b>Autismo (N = 46)</b>	
<b>Variabile</b>	
Maschi, %	82.8
Italiani, %	91.3
Asiatici, %	4.3
Est Europa, %	4.3
SES	
Basso	10.0
Medio	75.0
Alto	5.0
Età Cronologica, in mesi	
media (DS)	42.7 (13.4)
range	24 - 71
Durata della terapia, in mesi	
media (DS)	6.5 (5.7)
range	3 - 22
ADOS-2 Moduli, %	
Modulo 1	67.4
Modulo 2	4.3
Toddler	28.3

**Tabella 1. Descrizione delle caratteristiche dei 46 bambini con ASD**

## Strumenti

### *Autism Diagnostic Observation Schedule, Seconda Edizione*

L'Autism Diagnostic Observation Schedule-Second Edition (ADOS-2; Lord et al, 2012; italian edition by Colombia, Tancredi, Persico & Faggioli, 2013) è una valutazione semi-strutturata standardizzata inerente gli ambiti di comunicazione, interazione sociale, gioco, e comportamenti ripetitivi e ristretti. È considerato il gold standard nei protocolli di ricerca ed è la misura diagnostica standardizzata più comunemente utilizzata nei protocolli di ricerca. Ha forti proprietà psicometriche, tra cui una buona affidabilità e validità. L'ADOS-2 comprende cinque moduli, ma in fase di valutazione viene somministrato un solo modulo, selezionato sulla base del suo livello linguaggio espressivo e dell'età cronologica:

Modulo Toddler: Per i bambini tra i 12 ei 30 mesi di età che non utilizzano costantemente frasi nel discorso. Il modulo del bambino è progettato specificamente per i bambini che non utilizzano costantemente frasi nel discorso. Questo modulo permette di identificare con precisione i più piccoli a rischio di disturbi dello spettro autistico (ASD).

Modulo 1: Per i bambini dai 31 mesi che non usano costantemente frasi nel discorso

Modulo 2: Per i bambini di tutte le età che usano frasi nel discorso, ma non sono verbalmente fluenti

Modulo 3: Per i bambini verbalmente fluenti e giovani adolescenti

Modulo 4: Per verbalmente fluente adolescenti più grandi e negli adulti

In moduli da 1 a 4, i punteggi algoritmo sono confrontati per ottenere uno delle tre classificazioni: Autismo, dello spettro autistico, e non spettro. I cut-off per le classificazioni ADOS-2 variano in base al modulo utilizzato e al livello di linguaggio del bambino.

L'ADOS-2 oltre a fornire un punteggio generale, misura anche il dominio dell'Affetto Sociale (SA) e il dominio dei Comportamenti Ripetitivi e Ristretti (RRB). L' AS include la valutazione degli aspetti legati alla comunicazione e all'interazione sociale reciproca. Negli RRB rientrano gli interessi sensoriali insoliti, i manierismi, gli interessi e i comportamenti ripetitivi e l'utilizzo stereotipato-idiosincrasico di parole e/o vocalizzi.

### *Leiter-R*

La Leiter International Performance Scale-Revised (Leiter-R; Roid & Miller, 2002; italian translation by Organizzazioni Speciali, 2002) è stata ideata per la valutazione delle funzioni intellettive di bambini e adolescenti di età compresa tra i 2 e i 20 anni. La Leiter-R è formulata per

andare incontro alla necessità clinica di valutare l'intelligenza non verbale attraverso un'analisi completa dei punti di forza e debolezza nell'ottica di una diagnosi comprensiva sia neuropsicologica che cognitiva. Le abilità cognitive non verbali non richiedono la capacità di percepire, manipolare e ragionare con parole e numeri, in modo tale che la scala può essere somministrata completamente senza l'utilizzo di linguaggio verbale, ivi comprese le istruzioni, perché non richiede risposte verbali dal soggetto. I coefficienti di validità del punteggio di QI è stato calcolato per ciascun gruppo d'età (da alfa .92 a .93). La Leiter-R ha buona evidenza di validità dagli studi sulle analisi di contenuto, con dati provenienti da un'ampia analisi, dagli studi criterio correlati, dalla precisione di classificazione di disabilità intellettiva, e da vari studi relativi al costrutto (Roid & Miller, 2002). I punteggi di QI hanno una media di 100 e una deviazione standard di 15. La disabilità intellettiva è indicata da un punteggio composto che devia due deviazioni standard o più al di sotto della media, in modo che il punteggio di 70 costituisce il valore limite.

#### *Behavior Rating Inventory of Executive Functions-Preschool Version (BRIEF-P)*

Il Behavior Rating Inventory of Executive Functions-Preschool Version (BRIEF-P; Gioia, Espy & Isquith, 2001; edizione italiana da Marano, Innocenzi, Devescovi, 2014) è un questionario formato da 63 item sulle Funzioni Esecutive (FE) osservabili in situazioni quotidiane ed è composto da cinque sottoscale. Inibizione, Shift, Controllo emotivo, Memoria di Lavoro, Pianificazione / organizzazione. Tutte le sottoscale fanno capo a tre indici: Indice di Controllo Inibitorio (ISCI), Indice di Flessibilità (FI), Indice di Metacognizione Emergente (EMI). Inibizione e Controllo emotivo sono comprese nell'Indice ISCI, Controllo emotivo e Shift sono comprese nell'Indice FI, e la Memoria di Lavoro e la Pianificazione / organizzazione sono comprese nell'Indice EMI. Le cinque sottoscale permettono di ottenere inoltre il profilo di Controllo Esecutivo generale (GEC). Nel BRIEF-P si chiede a genitori/operatori di assegnare una valutazione di "Mai", "A volte", o "Spesso" ad ogni item, a seconda di quanto spesso osservano uno specifico comportamento-problema nel loro bambino. Queste valutazioni vengono poi convertiti in punteggi su scala Likert 1, 2, o 3 ed i risultati vengono trasformati in punti T. I punteggi più alti indicano una maggiore compromissione nelle funzioni esecutive; punti  $T \geq 65$  (cioè di 1,5 deviazioni standard dalla media) indicano punteggi patologici (Gioia et al 1996;.. Isquith et al 2004).

Il BRIEF-P è stato costruito per un ampio range di bambini e bambine in età prescolare, dai 2 anni e 0 mesi ai 5 anni e 11 mesi, inclusi quelli con disabilità emergenti dell'apprendimento, disturbi dell'attenzione, disturbi del linguaggio, traumi cerebrali, disturbi dello spettro autistico e altre condizioni di sviluppo, neurologiche, psichiatriche e mediche. Vari studi hanno dimostrato l'utilità dell'uso delle scale del BRIEF-P sia per la diagnosi clinica che per le valutazioni degli esiti in un ampio range di condizioni di sviluppo atipico (Isquith, Gioia e Espy, 2003; Janusz, Gioia, Isquith e Espy, 2002; Maerlender, Isquith, Gioia e Espy, 2002).

Il BRIEF-P è attualmente il primo strumento in Italia destinato alla valutazione indiretta delle funzioni esecutive in età prescolare, e dunque è in grado di offrire al clinico un'elevata validità ecologica in quanto, oltre a non essere intrusivo, consente ai professionisti di valutare le funzioni esecutive implicate nei comportamenti osservabili in contesti naturali, a casa e a scuola. Il protocollo di registrazione del BRIEF-P è stato infatti sviluppato per essere completato sia dal genitore/caregiver del bambino sia dall'insegnante o altri professionisti che si occupano del bambino e lo conoscono bene, in modo da poter raccogliere informazioni provenienti da contesti e osservatori diversi, la cui combinazione consente di ottimizzare la descrizione del profilo comportamentale del bambino.

#### **Procedura**

I bambini con disturbo dello spettro autistico e le loro famiglie sono stati reclutati nel periodo che va da gennaio 2014 a gennaio 2016, presso l'Istituto di Ortofonia (IdO). L'IdO è accreditato presso il sistema sanitario nazionale per la presa in carico dei bambini ASD e le loro famiglie. La diagnosi di autismo dei bambini coinvolti nella ricerca è stata redatta da un gruppo di esperti (psicologi, neuropsichiatri, psicoterapeuti, logopedisti e terapeuti) ed è basata sui criteri del DSM-5 (APA, 2013) e

confermata da una valutazione con l'ADOS-2. Gli psicologi, gli psicoterapeuti e i neuropsichiatri si sono occupati delle valutazioni cliniche e dell'assessment psicodiagnostico; i genitori e i terapisti che si occupano della terapia e dell'intervento domiciliare da almeno 3 mesi hanno compilato il questionario sullo sviluppo delle funzioni esecutive. I genitori, nella fase di valutazione psicodiagnostica del bambino (da 1 a 4 settimane dal primo colloquio), vengono informati sulle caratteristiche della patologia in generale e del loro bambino nello specifico. Quando il bambino inizia il percorso terapeutico (immediatamente dopo la fase diagnostica). I genitori vengono inseriti in un programma di counseling, che prevede, a seconda delle necessità, anche incontri di gruppo con gli altri genitori o sedute di terapia insieme al loro bambino.

Sono stati inclusi nella ricerca tutti i bambini che superavano il cut-off clinico ADOS-2 per la diagnosi di rischio e/o disturbo dello spettro autistico. Non sono stati inclusi i bambini con lesioni cerebrali, patologie genetiche, metaboliche, disabilità sensoriali, i bambini sopra i 72 mesi e sotto i 24 mesi.

Questa ricerca rispetta le linee guida e il codice etico APA. Tutti i soggetti hanno firmato un consenso informato in conformità con la Dichiarazione di Helsinki.

## **Data Analysis**

Le analisi sono state condotte utilizzando lo Statistical Package for Social Sciences (SPSS) versione 19. I livelli di significatività statistica si riferiscono ad alfa 0.05 (a due code). Multivariate Analysis of Variance (MANOVA) è stata usata per verificare le differenze tra genitori e operatori nelle scale del BRIEF-P. Viene riportata inoltre la dimensione dell'effetto come partial eta squared ( $\eta^2_p$ ). Un  $\eta^2_p$  di 0.02 è considerato un piccolo effetto, uno di 0.13 a è considerato un effetto medio e uno di 0.23 è considerato un grande effetto. Le analisi delle correlazioni sono state utilizzate per verificare la relazione tra i punteggi del BRIEF-P, la sintomatologia autistica misurata con l'ADOS-2, lo sviluppo cognitivo misurato con le Scale Leiter-R, l'età cronologica e la durata della terapia.

## **Obiettivi:**

Obiettivo generale di questo studio è stato quello di verificare il grado di accordo nella compilazione dello strumento BRIEF-P nella valutazione delle Funzioni Esecutive (FE) quando viene utilizzato da genitori e operatori di bambini prescolari con disturbo dello spettro autistico e l'eventuale correlazione tra grado di impairment nel FE ed altri parametri sviluppo o patologia. Gli obiettivi specifici sono:

1. Verificare se i punteggi forniti da genitori e operatori al BRIEF-P siano correlati ai punteggi ottenuti all'ADOS-2 e alle Leiter-R
2. Verificare se i punteggi forniti da genitori e operatori al BRIEF-P siano correlati all'età dei bambini e al tempo trascorso in terapia
3. Verificare se i bambini ASD presentino livelli clinicamente patologici nei diversi domini delle FE, ed in particolare se ci sono specifici domini più compromessi di altri nelle valutazioni di genitori e operatori.
4. Verificare se le valutazioni di genitori e operatori siano coerenti tra loro

## **Risultati**

### *Analisi descrittive*

I bambini del campione di ricerca possono essere suddivisi, a seconda dei cut off forniti dall'ADOS-2, in bambini AUT (N = 26; ADOS-2 range 12-26), bambini SpD (N = 7; ADOS-2 range 7-14) e bambini Risk (N = 13; ADOS-2 range 6-25).

Sono state calcolate le medie dei punteggi QI, dei punteggi ADOS-2 totale e degli Affetti Sociali (AS) e dei Comportamenti Ristretti e Ripetitivi (CRR).

Le analisi descrittive mostrano che i bambini AUT hanno un punteggio QI significativamente inferiore ai bambini degli altri due sottogruppi; i bambini AUT e RISK hanno un punteggio ADOS-2 più alto (quindi più grave) dei bambini SpD, sia per quanto riguarda il punteggio totale, che per quanto riguarda gli AS che i CRR (vedi Tabella 2).

**Tabella 2. Medie (DS) e differenze tra gruppi nei punteggi QI, ADOS-2 totale, AS e CRR**

	<b>ASD (N=46)</b>	<b>AUT (N=26)</b>	<b>SpD (N=7)</b>	<b>Risk (N=13)</b>	<i>Statistics</i>
IQ	67.5 (19.8)	60.5 (18.7)	82.9 (21.4)	73.3 (15.1)	AUT vs SpD: $P < .05$ Aut vs Risk: <i>NS</i> SpD vs Risk: <i>NS</i>
ADOS-2	18.1 (5.4)	20.3 (3.6)	9.9 (2.3)	18.1 (5.5)	AUT vs SpD: $P < .001$ Aut vs Risk: <i>NS</i> SpD vs Risk: $P < .001$
AS	14.3 (4.1)	15.8 (2.9)	8.6 (2.6)	14.4 (4.3)	AUT vs SpD: $P < .001$ Aut vs Risk: <i>NS</i> SpD vs Risk: $P < .001$
CRR	3.8 (2.1)	4.5 (1.6)	1.3 (0.8)	3.7 (2.5)	AUT vs SpD: $P < .001$ Aut vs Risk: <i>NS</i> SpD vs Risk: $P < .05$

Legend. ASD: bambini con Disturbo dello spettro autistico; AUT: bambini con autismo, SpD: bambini con spettro autistico; Risk: bambini a rischio autismo

*Report dei Genitori: la relazione tra i punteggi al BRIEF-P e i punteggi ADOS-2, Leiter-R, Età cronologica e durata della terapia*

Come riportato nella tabella 3, dall'analisi delle correlazioni tra i punteggi al BRIEF-P compilato dai genitori e i punteggi ADOS-2 emerge che solo il dominio della Metacognizione Emergente e una delle sue sottoscale, Memoria di Lavoro, correlano positivamente con il punteggio totale dell'ADOS-2 e con i punteggi dei Comportamenti Ripetitivi e degli Affetti Sociali.

Per quanto riguarda la relazione con lo sviluppo cognitivo, il QI correla positivamente solo con il dominio della Metacognizione Emergente.

All'aumentare dell'età cronologica dei bambini i genitori valutano come compromesse le funzioni esecutive globali (GEC), il dominio ISCI e le sue sottoscale Inibizione e Regolazione emotiva, il dominio FI e la sua sottoscala Shift.

All'aumentare del periodo di terapia dei bambini i genitori individuano come compromessi i domini ISCI e FI e la Regolazione emotiva.

**Table 3. Correlazioni tra punteggi al BRIEF-P compilati dai Genitori e ADOS-2 totale, AS e CRR, QI, età cronologica e mesi di terapia**

	<b>ADOS</b>	<b>AS</b>	<b>CRR</b>	<b>IQ</b>	<b>Età</b>	<b>Durata Terapia \$</b>
GEC	.07	.03	.13	-.24	<b>.38**</b>	.24
ISCI	-.01	-.04	.04	-.07	<b>.51**</b>	<b>.30*</b>
FI	-.06	-.09	.01	.07	<b>.41**</b>	<b>.30*</b>
EMI	<b>.34*</b>	.27	<b>.35*</b>	<b>-.30*</b>	.08	.11
Inibizione	-.07	-.09	.01	-.18	<b>.48**</b>	.26
Shift	.00	-.01	.03	.13	<b>.32*</b>	.18
Regolaz Emotiva	-.11	-.16	.03	-.05	<b>.46**</b>	<b>.36*</b>
Memoria Lavoro	<b>.34*</b>	<b>.25*</b>	<b>.38**</b>	-.28	.10	.05
Pianific Organiz	.15	.11	.17	-.24	.16	.20

\*  $p < 0.05$ ; \*\*  $p < 0.01$

\$ La durata della terapia, espressa in mesi, ha un range di 3 -24 mesi

*Report degli Operatori: la relazione tra i punteggi al BRIEF-P e i punteggi ADOS-2, Leiter-R, Età cronologica e durata della terapia*

Come riportato nella tabella 4, dall'analisi delle correlazioni tra i punteggi al BRIEF-P compilato dagli operatori e i punteggi ADOS-2 emerge che solo il dominio Metacognizione e la sua sottoscala Pianificazione organizzativa, correlano positivamente con il punteggio totale dell'ADOS-2 e con i punteggi dei Comportamenti Ripetitivi e degli Affetti Sociali.

Inoltre, dalle analisi emerge che più bassi sono i punteggi QI dei bambini, più gli operatori valutano come compromesse le funzioni esecutive, sia nel punteggio Composito generale (GEC), sia nei Domini ISCI e FI, che nelle sottoscale Inibizione, Shift e Regolazione emotiva.

Per quanto riguarda l'età cronologica dei bambini, emerge che all'aumentare dell'età, gli operatori valutano come più compromessi i domini ISCI e FI e le aree Inibizione e Regolazione emotiva

Infine, la durata del tempo di terapia dei bambini non è correlata con i punteggi al BRIEF-P ottenuti dagli operatori.

**Table 4. Correlazioni tra punteggi al Brief-P compilato dagli Operatori e ADOS-2 totale, AS e CRR, QI, età cronologica e mesi di terapia**

	ADOS	AS	CRR	QI	Età	Durata Terapia \$
GEC	.17	.15	.13	<b>-.42**</b>	.19	.03
ISCI	.00	-.01	.02	<b>-.34*</b>	<b>.37*</b>	.18
FI	-.01	.00	.00	<b>-.30*</b>	<b>.37*</b>	.18
EMI	<b>.32*</b>	<b>.30*</b>	.24	<b>-.36*</b>	-.02	-.12
Inibizione	.00	-.01	.02	-.34*	<b>.33*</b>	.16
Shift	.03	.03	.00	-.25	.22	.07
Regolaz Emotiva	-.02	-.03	.02	-.27	<b>.46**</b>	.25
Memoria Lavoro	.26	.25	.19	<b>-.30*</b>	-.01	-.14
Pianific Organiz	<b>.38**</b>	<b>.35*</b>	<b>.30*</b>	-.46*	-.01	-.05

\* p<0.05; \*\* P<0.01

\$ La durata della terapia, espressa in mesi, ha un range di 3 -24 mesi

Poiché è stata trovata un'alta correlazione tra i punteggi ottenuti dagli operatori al BRIEF-P e i punteggi QI, è stata verificata la sensibilità e la specificità del questionario rispetto alla sua capacità di discriminare bambini sopra e sotto uno specifico cut off QI. Il punteggio cut off (punteggio QI 67) è stato scelto perché rappresenta il 50° percentile della distribuzione normale dei punteggi QI del campione della presente ricerca. Dalla analisi del GEC (punteggio generale al BRIEF-P) emerso dalle valutazioni degli operatori, è risultato che il questionario ha una buona sensibilità ma una bassa specificità nell'individuare bambini con alto e basso quoziente intellettivo (specificità 35%, sensibilità 85%).

#### *Differenze tra i punteggi al BRIEF-P ottenuti da genitori e operatori*

Dalle analisi dei dati è emerso che i genitori attribuiscono ai bambini punteggi significativamente inferiori rispetto a quelli attribuiti dagli operatori. In generale, in tutti i domini e le aree misurate dal BRIEF-P, i genitori valutano i bambini come prevalentemente adeguati nelle FE, mentre gli operatori valutano i bambini come prevalentemente patologici nelle FE (tab. 5). Inoltre, la percentuale di bambini che superano il punteggio cut off di patologia del BRIEF-P è di gran lunga superiore nelle valutazioni degli Operatori rispetto a quelle dei Genitori.

**Table 5. Differenze (medie e ds) tra i punteggi al BRIEF-P compilato da genitori e insegnanti**

	GEC	EMI	FI	ISCI		Piano Org	Memo Lav	Reg Emoti	SHIFT	INIB
Genitore	61,6 (12,4)*	63,4 (12,6)*	54,6 (14,2)*	56,8 (13,3)*		59,6 (12,7)*	64,4 (12,1)*	53,5 (12,6)*	55,3 (14)*	59,7 (13,2)*
Operatore	75,3 (11,2)	73,2 (11,9)	75,7 (14,3)	69,9 (11,6)		70,8 (13,1)	72,9 (11,1)	71 (15,2)	74,4 (13,4)	66,8 (9,7)
% bambini che superano il cut off patologico del BRIEF-P										
Genitore	43,5	41,3	21,7	26,1		28,3	50,0	21,7	23,9	30,4
Operatore	76,1	78,3	80,4	69,6		71,7	80,4	67,4	82,6	65,2

\* differenze significative (P < ,001) tra genitori e operatori

#### *Correlazioni tra i punteggi al Brief-P forniti da genitori e operatori*

Dall'analisi delle correlazioni emerge che le aree in cui Genitori e Operatori risultano in accordo sono le funzioni di Inibizione, di regolazione Emotiva e di ISCI (indice di *Autocontrollo inibitorio*). Nelle altre aree non risulta correlazione. In tabella 6 vengono riportati inoltre i valori della K di Cohen, quale indice di coerenza tra le due valutazioni.

**Table 6. Correlazioni tra punteggi di genitori e operatori al BRIEF-P**

Genitori	Operatori	
	<i>r</i> Pearson	K di Cohen
GEC	.22	.01
ISCI (Autocontrollo inibitorio)	<b>.38*</b>	.03
FI (Flessibilità)	.25	
EMI (Metacognizione)	.12	.02
Inibizione	<b>.36*</b>	.02
Reg emo	<b>.38*</b>	.03
Shift (flessibilità)	.03	-.01
Mem lav	.15	.05
Pian org	.05	-.03

$p < 0.05$

**ISCI = Inibizione + Regolazione delle emozioni**

**FI = Shift + Regolazione delle emozioni**

**EMI = Memoria di Lavoro + Pianificazione Organizzativa**

## Discussione

I risultati del nostro lavoro dimostrano che sia nei BRIEF-P dei genitori che in quelli compilati dagli operatori, la mancanza di correlazione tra grado di impairment delle FE e i punteggi ADOS-2, indicativi del livello di gravità sintomatica, risulta in linea con quanto emerso in altri studi (Dawson et al., 1998; Smithson, Kenworthy, Wills, Jarret, Atmore e Yerys, 2013) che hanno evidenziato che il livello di gravità dell'autismo non corrisponde in maniera lineare a deficit nelle FE in età prescolare, così come un minor livello di gravità nell'autismo non debba necessariamente corrispondere a buone capacità di funzionamento esecutivo espresse dal bambino. Andando nello specifico il dominio del BRIEF-P che risulta maggiormente correlato con il punteggio ADOS-2 è EMI, indicativo di una maggiore rigidità (o minore flessibilità) cognitiva e dunque della tendenza alla ripetitività e alla reiterazione, di una bassa capacità di pianificazione e manipolazione delle informazioni.

Nel nostro studio, inoltre, sono risultate altamente significative le correlazioni tra QI e impairment esecutivo, quando valutate dagli operatori, e questo dimostrerebbe l'omogeneità dei due parametri, entrambi "cognitivi". Inoltre, dalle analisi, emerge che più bassi sono i punteggi QI non verbali dei bambini, più le FE risultano compromesse, sia nel punteggio Composito generale (GEC), sia nei Domini ISCI e FI, che nelle sottoscale Inibizione, Shift e Regolazione emotiva.

Viceversa i domini del BRIEF-P più sensibili rispetto al QI, ovvero ISCI e FI, denotano una minore capacità di regolazione emotiva, controllo inibitorio e shift.

Rispetto alla valutazione delle FE degli operatori, l'Indice di Metacognizione (EMI), espressione di competenze legate alla memoria di lavoro e alla capacità di iniziare, pianificare e sostenere il problem solving, correla positivamente con i Comportamenti Ristretti e Ripetitivi e con l'Affetto Sociale. Questo dato rappresenta una conferma di quanto le capacità metacognitive siano compromesse nei disturbi dello spettro autistico e dimostra quanto la presenza di manierismi, stereotipie e comportamenti di ricerca sensoriale siano connessi sia alla flessibilità delle strategie mentali, che alla comunicazione e responsabilità sociale (Di Renzo et al., 2016, 2015). Altri risultati hanno confermato la relazione tra funzionamento esecutivo e capacità metacognitive nell'autismo, seppur non attraverso l'utilizzo del BRIEF-P (Ozonoff, Pennington e Rogers, 2006), evidenziando difficoltà nelle funzioni esecutive nei disturbi del neurosviluppo (Kenworthy, Yerys, Anthony e Wallace, 2008; Vertè, Geurts, Roeyers, Oosterlaan e Sergeant, 2006), ma sottolineando l'importanza di considerare le differenze individuali e il livello di funzionamento e adattamento del bambino nelle situazioni quotidiane (Pellicano, 2012).



È emersa infine, nella maggior parte dei casi, una discrepanza tra la compilazione del Brief-P da parte di genitori e terapeuti di bambini in età prescolare affetti da ASDs. In particolare i genitori sembrano avere maggiore difficoltà nell'individuare nei bambini le aree deficitarie, e la loro accuratezza migliora all'aumentare dell'età dei bambini e parallelamente al percorso terapeutico. Questo dato può essere letto sia in funzione di una maggiore espressività clinica connessa all'aumentare dell'età con l'evidenza maggiore di comportamenti socio-cognitivi deficitari, sia come risultato di una maggiore consapevolezza associata al percorso di counseling genitoriale previsto dal progetto terapeutico.

## **Conclusioni**

Dai dati del nostro studio emerge che genitori ed operatori mostrano una diversa rappresentazione del bambino. Ciò potrebbe senz'altro dipendere dalla preparazione specifica degli operatori che li rende più accurati e obiettivi. D'altra parte è possibile che i genitori riconoscano più facilmente quelle aree deficitarie che determinano comportamenti disfunzionali ed esplosivi, ovvero regolazione emotiva e controllo inibitorio (EMI). Concordiamo con altri autori che sottolineano sia la difficoltà di valutazione delle FE in un'area patologica così complessa ed eterogenea come i Disturbi dello Spettro Autistico, sia la prospettiva di ricerca di un approccio multi-disciplinare (multi-source) che possa consentire una valutazione più accurata ed esaustiva delle FE nell'autismo (Kenworthy, Yerys, Anthony e Wallace, 2008), differenziando le caratteristiche cliniche e considerando quanto le varie componenti evolutive interagiscano per determinare lo sviluppo cognitivo e sociale.

Come già accennato nelle premesse, nonostante tra le ipotesi patogenetiche dei ASDs sia stata inserita quella del deficit delle FE, quest'ultimo, quando presente, non correla con la gravità della sintomatologia autistica e non sembra rappresentarne in ogni caso una causa specifica. Nonostante dunque le FE siano cruciali nel funzionamento socio-relazionale, quando questo è primariamente compromesso, come nei ASD, il grado di deficit socio-relazionale non dipende direttamente dal livello di impairment esecutivo.

I diversi livelli di funzionamento e adattamento socio-cognitivo, nell'autismo, sono infatti connessi alla capacità di integrare le abilità possedute e di utilizzarle per il raggiungimento di uno scopo; pertanto, anche laddove si riscontrino buone competenze in domini specifici, è possibile che il funzionamento globale risulti disarmonico e dunque disadattivo.

L'inibizione, la flessibilità e la regolazione emotiva e attentiva, rappresentano capacità che permettono al bambino l'espressione di un potenziale cognitivo che nei disturbi dello Spettro Autistico può risultare bloccato e inibito dalla gravità dei sintomi e dai comportamenti ristretti e ripetitivi (Di Renzo et al., 2015, Di Renzo et al., 2016a, 2016b). Altri studi hanno sottolineato deficit in tali aree delle FE, seppur considerando anche bambini con struttura frasale e linguaggio fluente (Smithson, Kenworthy, Wills, Jarret, Atmore e Yerys, 2013), aspetti che indicano un diverso livello di gravità rispetto al campione non verbale valutato nella presente ricerca e inoltre, non hanno riscontrato correlazioni tra il funzionamento e il controllo esecutivo e i comportamenti ristretti e ripetitivi. Tale dato diverge dai nostri risultati e può essere spiegato dall'utilizzo della prima versione dell'ADOS, che considera, ma non codifica nel punteggio globale tali comportamenti. I più aggiornati criteri diagnostici dell'ADOS-2, utilizzati nella nostra ricerca, permettono una più accurata valutazione di tali comportamenti e un più affidabile inquadramento dei livelli di gravità nel punteggio globale.

Finora sono stati condotti pochi studi sull'impairment esecutivo in età prescolare in bambini con ASDs, tra i quali quello di Smithson et al. (2013) che, sebbene con un differente disegno di ricerca, giunge alla stessa conclusione che sia presente un grado di compromissione esecutiva nei soggetti con ASD (nel nostro studio se il Brief-P è compilato dagli operatori) ma che non ci sia una correlazione significativa tra grado di sintomatologia autistica ed impairment esecutivo. A nostra conoscenza non sono state condotte analisi sul grado di concordanza tra genitori e terapeuti, mentre diversi tra genitori e insegnanti.

Inoltre mentre molte ricerche, avendo un campione di controllo, basano i risultati sul confronto tra bambini ASD e normotipici o con altri disordini più lievi dello sviluppo (Granader et al. 2014; Kimhi et al. 2014) riscontrando un maggior grado di impairment negli autistici, il nostro obiettivo è stato quello di analizzare le correlazioni tra alterato funzionamento esecutivo ed altri livelli disfunzionali in un gruppo con stessa diagnosi clinica. Ci sembra comunque significativo, in accordo con Granader e Kimhi, i domini maggiormente compromessi nei soggetti ASD risultano shift/flessibilità cognitiva e metacognizione emergente.

Il fatto che non esista, nella letteratura italiana, una ricerca sul BRIEF-P applicata all'autismo, rappresenta per noi un punto di partenza importante per ulteriori studi. La recente pubblicazione in Italia del BAFE per la valutazione delle FE può risultare utile per garantire un contesto di assessment più oggettivo e valido per ottenere un profilo accurato del funzionamento esecutivo del bambino e valutare le traiettorie di sviluppo delle singole competenze e la loro integrazione, sempre in età pre-scolare. Valutare direttamente il funzionamento esecutivo attraverso prove di performance consentirà di integrare i risultati della valutazione con le informazioni derivate da fonti indirette come i BRIEF-P compilati da genitori e/o operatori.

L'utilità del questionario BRIEF-P risiede a nostro avviso nella possibilità di ottenere informazioni in contesti quotidiani e conoscere effettivamente la rappresentazione che i genitori hanno delle competenze espresse dai propri bambini autistici. Nonostante l'attendibilità non sia sempre adeguata per la definizione di un profilo di sviluppo, risulta importante nel percorso terapeutico come misura della loro consapevolezza del disfunzionamento esecutivo del figlio e della valutazione di potenzialità, avendo come parametro di comparazione quello compilato dall'operatore. L'implicazione clinica di tale dato suggerisce l'importanza sostenere anche i genitori dei bambini con ASD in un percorso che li porti ad una maggiore consapevolezza riguardo le potenzialità e le fragilità dei loro bambini, allo scopo di creare una maggiore compliance nel progetto terapeutico.

Nella nostra esperienza il BRIEF-P compilato dagli operatori risulta uno strumento utile nella definizione del profilo di sviluppo individuale in età prescolare, ma non indicativo del livello di gravità della sintomatologia autistica. Nell'inquadramento dei ASDs potrebbe dunque essere utilizzato per definire lo "specificatore" del funzionamento esecutivo, in linea con quanto suggerito dal DSM 5.

Da queste considerazioni si desume che la valutazione delle FE non può essere affidata unicamente alla compilazione di un questionario come il BRIEF P, anche se compilato da un operatore, ma deve essere suffragata da un inquadramento clinico realizzato da professionisti esperti in una équipe multidisciplinare.

## Bibliografia

- American Psychiatric Association (2013) Diagnostic and statistical manual of mental disorders (DSM–V). Washington, DC : Author
- Dawson G., Meltzo A.N., Osterling J. & Rinaldi J. (1998) Neuropsychological correlates of early symptoms of autism. *Child Development*, 69, 1276–1285.
- Diamond A., Prevor M.B., Callendar G. & Druin D.P (1997) Prefrontal cortex cognitive deficits in children treated early and continuously for PKU. *Monogr. Soc. Res. Child Dev.*,62, 1-208.
- Di Renzo M., Bianchi di Castelbianco F., Petrillo M., Racinaro L. & Rea M. (2015) Assessment of a long-term developmental relationship-based approach in children with autism spectrum disorder. *Psychological Reports: Disability & Trauma*, 117, 1, 26-49.
- Di Renzo M., Bianchi di Castelbianco F., Vanadia E., Petrillo M., Racinaro L. & Rea M. (2016a) From the Emotional Integration to the Cognitive Construction: The Developmental Approach of Turtle Project in Children with Autism Spectrum Disorder. *Autism-Open Access*, 6, 160-169.
- Di Renzo M., Bianchi di Castelbianco F., Petrillo M., Donaera F., Racinaro L. & Rea M. (2016b) The emotional contagion in children with Autism Spectrum Disorder. *Autism Journal of Autism & Related Disabilities*, 2, 2, 1-7.
- Espy K.A., Kaufman P.M., Glisky M.L. & McDiarmid M.D. (2001) New procedures to assess executive functions in preschool children. *Clinical Neuropsychologist*, 15, 46–58.
- Gioia G., Espy K.A.. & Isquith P.K., (2002) *BRIEF-P - Behavior Rating Inventory of Executive Function, Preschool Version*. Odessa, FL: Psychological Assessment Resources.
- Isquith P.K., Gioia G. & Espy K.A. (2003) Executive function in preschool children: examination through everyday behavior. *Developmental Neuropsychology*, 26, 403-422.
- Janusz J., Gioia G.A., Isquith P.K. & Espy K.A. (2002). Clinical validity of the BRIEF--Preschool version. *The Clinical Neuropsychologist*, 16, 205.
- Kenworthy L.E., Yerys B.E., Anthony L.G. & Wallace G.L. (2008) Understanding executive control in autism spectrum disorders in the lab and in the real world. *Neuropsychological Review*, 18, 320–338.
- Lord C., Rutter M., Di Lavore P. C., Risi S., Gotham K. & Bishop S. (2012) *Autism diagnostic observation schedule, second edition*. Torrance, CA: Western Psychological Services.
- Maerlender A., Isquith P.K., Gioia G.A. & Espy K.A. (2002). Behavioral assessment of executive function and attentional disorders in preschool children. *Journal of the International Neuropsychological Society*, 8, 310.
- McEvoy R., Rogers S. & Pennington B. (1993) Executive function and social communication deficits in young autistic children. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 34, 563-578.
- Ozonoff S., Pennington B.F. & Rogers S.J. (2006) Executive function deficits in high-functioning autistic individuals: relationship to theory of mind. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 32, 1081–1105.

Pellicano E., Rhodes G. & Calder A.J. (2013) Reduced gaze aftereffects are related to difficulties categorising gaze direction in children with autism. *Neuropsychologia*, 51, 1504 -1509.

Roid G.H. & Miller L.J. (2002) Leiter–R: Leiter International Performance Scale–Revised. Florence: O.S. Organizzazioni Speciali.

Smithson P.E., Kenworthy L., Wills M.C., Jarrett M., Atmore K., & Yerys B.E. (2013) Real world executive control impairments in preschoolers with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43, 1967–1975.

Stuss D.T. & Benson D.F. (1986) *The frontal lobes*. New York: Raven Press.

Vanadia E., Di Renzo M., Trapolino E., Racinaro L., & Rea M. (2016) The relationship between Regulation Disorders of Sensory Processing (RDSP) and white matter abnormalities. *Journal of Neurology and Neuroscience*, 7, 3, 1-7.

Vertè S., Geurts M., Roeyers H., Oosterlaan J. & Sergeant J.A. (2006) The relationship of working memory, inhibition, and response variability in child psychopathology. *Journal of Neuroscience Methods*, 151, 5-14.

Welsh M.C. & Pennington B.F. (1988) Assessing frontal lobe functioning in children: Views from developmental psychology. *Developmental Neuropsychology*, 4, 199-230.