

Predicción del inicio del tartamudeo a los 3 años de edad: estudio prospectivo, de cohorte, comunitario

Sheena Reilly, PhD^{a,b,c}, Mark Onslow, PhD^d, Ann Packman, PhD^d, Melissa Wake, MD^{a,b,c}, Edith L. Bavin, PhD^e, Margot Prior, PhD^{b,f}, Patricia Eadie, PhD^c, Eileen Cini, BAppSc^c, Catherine Bolzonello, MSpPath^c, y Obioha C. Ukoumunne, PhD^{a,c}

OBJETIVOS: Nuestros objetivos fueron documentar (1) la edad de inicio del tartamudeo y (2) si factores específicos del niño, familiares o medioambientales predicen su inicio en niños de hasta 3 años de edad.

MÉTODOS: Los participantes incluyeron una cohorte comunitaria establecida de 1.619 niños australianos de 2 años de edad, reclutados a los 8 meses de edad para estudiar el desarrollo longitudinal precoz del lenguaje. La principal variable analizada fue el informe de los progenitores por teléfono sobre el inicio del tartamudeo, verificado mediante el diagnóstico establecido por un experto en una entrevista cara a cara. Previamente al inicio, estuvieron disponibles medidas continuas del temperamento del niño (accesible/retraído) y del desarrollo del lenguaje. Se obtuvo información sobre diversas medidas pronósticas cuya asociación con el inicio del tartamudeo se formuló como hipótesis (salud mental y nivel de estudios de la madre, sexo, parto prematuro, peso al nacer, orden de nacimiento, parto gemelar, posición socioeconómica y antecedentes familiares de tartamudeo).

RESULTADOS: A los 3 años de edad, la incidencia acumulativa de inicio de tartamudeo fue del 8,5%. Con frecuencia, el inicio tuvo lugar súbitamente en el curso de 1-3 días (49,6%) y se relacionó con el uso de

combinaciones de palabras (97,1%). Los niños con tartamudeo no eran más tímidos o retraídos. El sexo masculino, parto de gemelos, mayores puntuaciones de vocabulario obtenidas a los 2 años de edad y un mayor número de años de estudio materno se asociaron con su inicio. No obstante, el modelo multivariable se caracterizó por una potencia predictiva reducida; explicó tan sólo el 3,7% de la variación total en su inicio.

CONCLUSIONES: La incidencia acumulativa de inicio del tartamudeo fue mucho mayor que la documentada previamente. En conjunto, los factores de riesgo de su inicio, formulados como hipótesis, apenas explicaron la variación de su inicio hasta los 3 años de edad. El inicio precoz no se asoció con un retraso del lenguaje, factores sociales o medioambientales o la timidez/retraimiento previos al inicio. Los profesionales sanitarios pueden tranquilizar a los padres indicándoles que su inicio es habitual hasta los 3 años de edad y parece asociarse con un aumento rápido del desarrollo del lenguaje.

El tartamudeo o disfemia se caracteriza por movimientos repetidos y posturas fijas del mecanismo del habla, asociados a conductas verbales y no verbales superfluas¹. En los casos graves, las posturas fijas pueden interrumpir la comunicación verbal, y las muecas asociadas pueden desfigurar al niño. Los niños en edad escolar que tartamudean sufren acoso y son el blanco de las burlas de sus compañeros. Más tarde en la vida, el problema puede dar lugar a ansiedad social y fobia social relacionadas con el habla, la incapacidad de alcanzar el potencial profesional y un grave deterioro de la comunicación².

Se desconoce su causa, aunque, en general, se considera que es un trastorno del procesamiento neural, que es la base del lenguaje hablado, con influencias genéticas y medioambientales³. En general, se acepta que el tartamudeo se inicia entre los 2 y 4 años de edad y coincide con los progresos en el desarrollo del lenguaje, en particular en el de las frases de dos o tres palabras. Se han postulado numerosas teorías causales, pero la mayor parte aún no se han probado⁴.

Hasta la fecha, se han efectuado dos estudios comunitarios, prospectivos, sobre la incidencia y el restablecimiento natural. La disfemia se examinó en un estudio de

^aDepartment of Paediatrics, ^bSchool of Behavioural Sciences, University of Melbourne, Melbourne, Australia; ^cRoyal Children's Hospital, Melbourne, Victoria, Australia; ^dMurdoch Children's Research Institute, Melbourne, Victoria, Australia; ^eAustralian Stuttering Research Centre, University of Sydney, Sydney, Australia; ^fSchool of Psychological Science, La Trobe University, Melbourne, Victoria, Australia.

Los doctores Reilly, Onslow, Packman, Wake, Bavin, Prior y Eadie iniciaron el proyecto. Junto con la Sra. Bolzonello fueron responsables de su gestión, incluida la obtención y análisis de los datos. El doctor Ukoumunne proporcionó consejos estadísticos y efectuó los análisis junto con la Sra. Cini. El doctor Reilly redactó el artículo junto con los doctores Onslow y Packman, y todos los autores contribuyeron a planificar, revisar y corregir el manuscrito. El doctor Reilly tuvo pleno acceso a todos los datos del estudio, asume la responsabilidad de su integridad al igual que de la precisión del análisis, y es el garante del artículo.

Correspondencia: Sheena Reilly, PhD, Royal Children's Hospital, Department of Speech Pathology, Flemington Road, Parkville, Victoria 3086, Australia.

Correo electrónico: sheena.reilly@mcri.edu.au

1.000 familias, efectuado en Newcastle-on-Tyne, Inglaterra^{5,6}, evaluándose durante una serie de años a todos los niños nacidos en esta ciudad en mayo y junio de 1947. La incidencia acumulativa hasta los 5 años de edad (es decir, la proporción de niños que experimentaron un inicio a los 5 años de edad) fue del 3,5% y 18 (42%) de 43 niños se restablecieron de forma natural a los 6 años de edad⁶. Las limitaciones de estos datos⁷ incluyen el hecho de que visitadores de salud más que logopedas identificaron el tartamudeo, y no se esclareció cuánto tiempo después de su inicio se evaluó a los niños. En 1.042 niños en edad preescolar de hasta 3 años de edad, nacidos entre 1990 y 1991 en la isla danesa de Bonholm, la incidencia acumulativa de tartamudeo fue del 5%⁸. A los 5 años de edad, se documentó que el 71% se habían restablecido de forma natural. Las limitaciones de este estudio incluyeron el hecho de que no se evaluó a los niños hasta su tercer cumpleaños, y la presencia de tartamudeo no se estableció antes de esa edad.

Se considera que, en su inicio, están implicados muchos antecedentes y factores de riesgo. Suscita un debate continuado la relación entre el lenguaje y el tartamudeo⁹. Mientras que algunos estudios revelaron que las dificultades en el aprendizaje del lenguaje no se asociaron con el proceso¹⁰, otros demostraron que los niños que tartamudean se caracterizan por una menor habilidad de lenguaje que los no tartamudos¹¹. Además, se ha destacado que difieren en diversas características del temperamento¹², incluida la timidez¹³, sensibilidad¹⁴, capacidad de adaptación¹⁴ y vulnerabilidad¹⁵. Algunos investigadores han propuesto que estas características del temperamento desempeñan un papel en su etiología¹¹. Sin embargo, hasta la fecha, en ningún estudio cuya existencia conozcan los autores se han determinado variables del lenguaje o el temperamento antes de su inicio. Por esta razón, no está claro si estos factores se asocian con su inicio y, en caso afirmativo, si lo preceden o se desarrollan como consecuencia del problema.

En nuestra revisión de los estudios publicados también identificamos otras variables potenciales consideradas implicadas en su inicio. Se incluyeron factores prenatales y perinatales, orden de nacimiento, posición socioeconómica, relaciones paterno-filiales, experiencias traumáticas precoces en los primeros años de la infancia, y crecimiento y desarrollo neurológico^{5,16}.

Una vez más, pocos de estos factores se han determinado antes del inicio del tartamudeo, y, por lo tanto, las asociaciones descritas no están respaldadas adecuadamente. Identificamos una excepción, un estudio efectuado en 93 niños en Holanda¹⁷, en el que el desarrollo del lenguaje, determinado antes de que cualquier niño empezara a tartamudear, no predijo su inicio. Las únicas variables pronósticas asociadas con su inicio fueron un mayor ritmo del habla del niño y una complejidad reducida del lenguaje materno. Los niños de este estudio se seleccionaron en función de que, como mínimo, un progenitor tartamudeara, y, por esta razón, los resultados no serían generalizables al elevado número de niños con disfemia sin unos claros antecedentes familiares.

Los conocimientos existentes sobre el inicio del tartamudeo se han utilizado para poner al corriente el desarrollo de las teorías de la vía causal y para respaldar las intervenciones terapéuticas durante los años preescolares^{18,19}. Se requiere urgentemente información prospecti-

va sobre la incidencia, los antecedentes y las variables pronósticas, al igual que sobre las tasas de restablecimiento natural del tartamudeo, para poner al corriente las estrategias terapéuticas emprendidas en niños en edad preescolar. En particular, se suscita la necesidad apremiante de identificar a los niños en los que sea probable o no que persista el tartamudeo, de modo que puedan dirigirse correctamente consejos diferentes (una estrategia expectante comparado con la recomendación de un tratamiento).

El objetivo del presente artículo es empezar a abordar algunos de estos problemas metodológicos documentando prospectivamente el inicio del tartamudeo en niños de hasta 3 años de edad en una extensa cohorte comunitaria, establecida de niños australianos. Específicamente, tratamos de describir la incidencia acumulativa, la edad y las características del tartamudeo en el momento de su inicio, y determinar cualquier factor relacionado con el niño, familiar o medioambiental que pudiera predecir su inicio.

MÉTODO

Revisión del Early Language in Victoria Study

Los niños incluidos en esta investigación participaban en un estudio a mayor escala sobre desarrollo precoz del lenguaje, el Early Language in Victoria Study (ELVS), efectuado en Melbourne, Australia (población: 3,6 millones de habitantes) y descrito con detalle en otras publicaciones^{20,21}. En pocas palabras, el ELVS es un estudio prospectivo, observacional, longitudinal, que comienza a los 8 meses de edad, con un seguimiento de las variables repetidas en cada cumpleaños del niño a lo largo de los años preescolares y los de la escuela primaria. Los lactantes se reclutaron a partir de seis de las 31 áreas gubernamentales locales de Melbourne (*local government areas* [LGA]). El Disadvantage Index, derivado de los Socio-economic Indexes for Areas (SEIFA), basados en el censo²², representa las características, tales como los bajos ingresos, número reducido de años de estudios y elevado desempleo. El índice se utilizó para estratificar las 31 LGA en tres tercios, después de lo cual se seleccionaron dos LGA no contiguas de cada tercio para garantizar que, en el estudio, se obtendrían muestras de las áreas geográficas a través de todo el espectro de las clases socioeconómicas favorecidas/desfavorecidas.

Entre septiembre de 2003 y abril de 2004, se solicitó a enfermeras de salud materna e infantil que hablaran consecutivamente con los padres de todos los lactantes en su visita universal de salud del mes 8 (a la que acuden más del 80% de los lactantes de Melbourne), seguido de un proceso de reclutamiento formal. Se excluyó a los niños si eran portadores de un problema congénito evidente (p. ej., síndrome de Down) o del desarrollo (p. ej., parálisis cerebral) u otra discapacidad intelectual o física grave, diagnosticada a los 8 meses de edad. También se excluyó a los participantes si, para su reclutamiento y para completar los cuestionarios, sus padres no hablaban ni comprendían lo suficiente el inglés. La muestra final incluyó a 1.911 niños. Los padres refirieron el desarrollo precoz de la comunicación y el lenguaje en cada visita de seguimiento anual, y también se obtuvo información sobre un extenso espectro de otras variables relacionadas con el niño, la familia y medioambientales^{20,21}.

Procedimiento

Los participantes en el ELVS eran candidatos para la inclusión en este estudio sobre tartamudeo una vez hubieron devuelto los cuestionarios correspondientes a los 2 años de edad. Por lo tanto, se remitió una carta de invitación a los padres donde se explicaban los objetivos y procedimientos del ELVS Stuttering, una carta para saber si había un "cambio de opinión" y un imán para la nevera donde se definía la disfemia con ejemplos (v.

Apéndice). Cada 4 meses durante 12 meses se remitieron cartas de recuerdo a todas las familias que no cambiaron de opinión. En todas las cartas se pedía a los padres que telefonearan al equipo de investigación si su hijo manifestaba cualquiera de las conductas de tartamudeo descritas (v. Apéndice).

Cuando un padre telefonó, en primer lugar, el asistente de investigación (AI) clarificó por teléfono la naturaleza del problema del habla. Si éste verificó que las características del habla referidas parecían un tartamudeo o no estaba seguro, planificó una visita domiciliaria de 45 min lo antes posible. Todos los AI eran logopedas titulados y pasaban consulta con regularidad con dos de los autores (Dres. Onslow y Packman). En la visita domiciliaria, se entrevistó a los padres para clarificar el inicio y las características del tartamudeo y obtener los antecedentes familiares detallados del problema. Acto seguido, se desarrolló una sesión de juego grabada en vídeo. Se solicitó a los padres que jugaran con su hijo, al igual que lo harían en condiciones normales, pero que evitaran formularle demasiadas preguntas y redujeran a un mínimo las oraciones de una sola palabra. Para provocar las respuestas verbales se usaron una serie estándar de juguetes, dibujos y preguntas.

Variables analizadas

La principal variable analizada fue la presencia de tartamudeo a los 3 años de edad, confirmado por el AI. Se completó la escala de 10 puntos de Lidcombe de gravedad del tartamudeo, donde una puntuación de 1 corresponde a su ausencia y una de 10, a una disfemia muy grave²³. Cuando fue posible, las visitas domiciliarias se efectuaron en un plazo de 2 semanas del informe de los padres. Un panel de consenso consideró todos los casos para los que estuvo presente una incertidumbre acerca de la presencia o ausencia de tartamudeo. El panel, que incluyó a dos logopedas expertos en su diagnóstico y valoración (Dres. Onslow y Packman), revisó de forma independiente las sesiones de juego grabadas en vídeo y completó la escala de Lidcombe. Se determinó que estaba presente una disfemia si los padres la refirieron y el AI y los dos evaluadores con experiencia la consideraron presente (es decir, una puntuación ≥ 2 en la escala de Lidcombe).

Variables pronósticas

En su mayor parte, las variables pronósticas se extrajeron del cuestionario completado por los padres cuando los niños pasaban de los 2 años de edad. Se calcularon las puntuaciones brutas (cuantitativas) de vocabulario a partir de los MacArthur-Bates Communicative Development Inventories (MCDI), identificándose como los que hablaron de forma tardía a los niños por debajo del percentil 10 para la producción de vocabulario^{24,25}. El desarrollo de las conductas comunicativas hasta los 24 meses de edad se resumió utilizando la Communication and Symbolic Behaviour Scales (CSBS) Infant-Toddler Checklist²⁶; de acuerdo con el manual, se calcularon las puntuaciones totales estandarizadas (media normativa: 100, DE: 15). Los padres completaron la escala de 5 ítems de accesibilidad/retraimiento, una de las cinco esferas de la escala Australian Temperament Project-Short, apropiada para niños de 1-3 años de edad²⁷ (versión para niños pequeños). Cada ítem se evaluó en una escala del 1 (casi nunca) al 6 (casi siempre) y se sumaron los puntos, con lo que se obtuvo una puntuación total²⁸ (puntuación máxima: 30). Los niños tímidos/retraídos reciben puntuaciones más altas y los extrovertidos, más bajas.

La salud materna mental se determinó utilizando la Non-specific Psychological Distress Scale²⁹ (Kessler-6, o K-6), que depura puntuaciones desde un posible 0 (ausencia de ansiedad) a 24 (máxima ansiedad/angustia). El resto de variables pronósticas referidas por los padres fueron el sexo del niño, antecedentes de parto prematuro, embarazo gemelar, peso al nacer, existencia de un hermano mayor, años de estudios de la madre y antecedentes familiares de problemas del habla, lenguaje, lectura y tartamudeo. Por último, como indicador de la posición socioeconómica, se utilizó el SEIFA Index of Relative Disadvantage, basado en el código postal de los participantes, representando las puntuaciones más bajas una posición más desfavorecida²² (media de la normativa australiana: 1.000; DE: 100).

En el estudio ELVS se obtuvieron casi todos los posibles factores de riesgo identificados en la revisión efectuada de los estudios publicados y, en la mayor parte de los casos, antes del inicio del tartamudeo. El ELVS se diseñó como un estudio sobre el desarrollo precoz del lenguaje. Por esta razón, no se determinaron los datos sobre algunas variables formuladas como hipótesis con una implicación en el inicio del tartamudeo (p. ej., experiencia traumática antes de su inicio, crecimiento físico y desarrollo neurológico, y habilidades de los progenitores de crianza de sus hijos).

Análisis

Para calcular las *odds ratios* (OR) de la relación entre el inicio del tartamudeo a los 3 años de edad y las variables pronósticas especificadas previamente, se usó un análisis de regresión. Se obtuvieron estimaciones sándwich de información del error estándar³⁰ que permiten la correlación entre respuestas a partir de gemelos. Se obtuvieron OR brutas de los modelos bivariados, en los que cada factor de riesgo se usa como variable pronóstica por sí solo, y OR ajustadas a partir de los modelos multivariados, en los que todos los factores de riesgo se usan simultáneamente como variables pronósticas. Para cuantificar la variación explicada, se utilizó la correlación de Pearson al cuadrado³¹ (R^2). Antes del análisis se corrigieron para la edad las puntuaciones sobre las variables de interés para niños nacidos prematuros, definidos como < 36 semanas de edad. Todos los análisis se condujeron con el programa estadístico Stata 9.2³².

RESULTADOS

La muestra

En la figura 1 se resume el flujo de participantes entre el estudio ELVS y la investigación sobre disfemia. A los 2 años de edad, no estuvieron disponibles 57 de los 1.911 participantes en el ELVS (abandonaron el estudio, se perdió el contacto o se mudaron a otro lugar), y otros 235 padres se pusieron en contacto con nosotros y optaron por no participar en el estudio, lo que dejó 1.619 participantes (85% de la muestra original). En la tabla 1 se comparan a los participantes en el estudio con los no participantes, con mayores proporciones de niños cuyas madres habían obtenido un título universitario o una licenciatura entre los primeros que entre los segundos.

Un total de 158 (9,8%) de 1.619 padres llamaron para referir el inicio de disfemia a los 3 años de edad. Acto seguido, durante la visita domiciliaria inicial, un asistente de investigación con experiencia confirmó su presencia en 137 niños (8,5% [intervalo de confianza -IC- del 95%: 7,2%-9,9%]). El panel decidió que había 21 niños "en los límites" en los que los informes de tartamudeo eran ambiguos, y para los análisis principales, se les clasificó como no tartamudos. La edad mediana de inicio fue de 29,9 meses (límites intercuartil [LIC]: 27,0-33,1; límites 12,0-36,9) y la de la llamada por teléfono de los padres para informar de su inicio fue de 31,8 meses (LIC: 29,0-34,9; límites: 24,0-42,4). El período mediano desde el inicio documentado hasta el contacto telefónico fue de 1,4 meses (LIC: 0,6-3,2; límites: 0,1-13,1), y entre el inicio documentado y la visita domiciliaria fue de 2,1 meses (LIC: 1,0-3,9; límites: 0,2-18,1).

En la figura 2 se representa gráficamente la proporción de la cohorte del ELVS con disfemia a cualquier edad hasta los 3 años. La pendiente constante desde los 25 meses destaca que no hubo un intervalo de edad más breve, evidente durante el que característicamente se iniciara el proceso. Los padres de 11 niños refirieron que

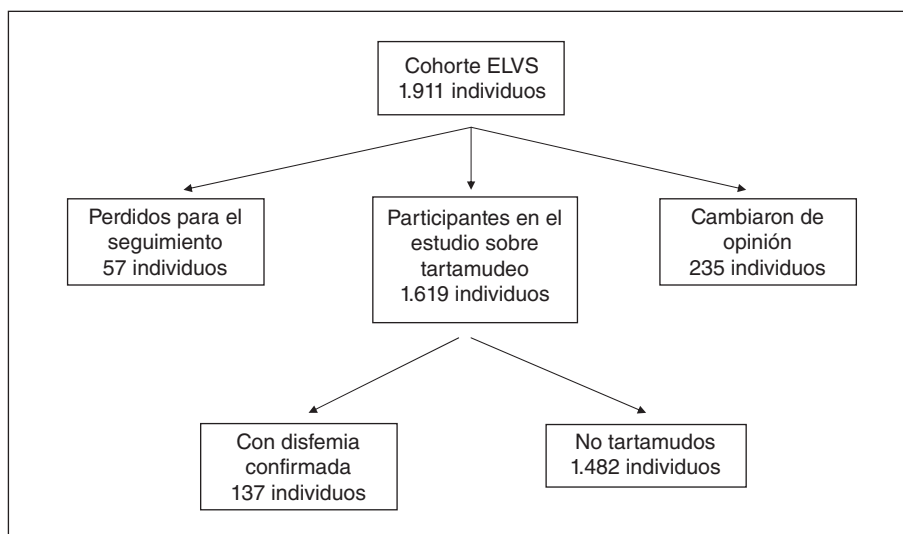


Fig. 1. Flujo de participantes en el ELVS y relación con el estudio sobre tartamudeo. ELVS: Early Language in Victoria Study.

TABLA 1. Características de los participantes comparados con los no participantes

VARIABLES	Participantes* (n = 1.619)	No participantes ^b (n = 292)
Sexo		
Varones, n (%)	824 (50,9)	142 (48,6)
Mujeres, n (%)	795 (49,1)	150 (51,4)
Gemelos, n (%)	42 (2,6)	11 (3,8)
Parto prematuro, n (%)	47 (2,9)	12 (4,1)
Peso al nacer en kilogramos, media (DE)	3,4 (0,5)	3,4 (0,6)
Orden de nacimiento		
Primogénito, n (%)	820 (50,8)	134 (46,5)
Segundo hijo o más, n (%)	795 (49,2)	154 (53,5)
Antecedentes familiares		
Sin problemas, n (%)	1.213 (74,9)	222 (76,0)
Sólo problemas del habla/ lenguaje/lectura, n (%)	312 (19,3)	60 (20,5)
Problema de tartamudeo ^c , n (%)	94 (5,8)	10 (3,4)
Puntuación obtenida en el SEIFA, media (DE)	1.037 (61)	1.033 (60)
Años de estudio de la madre		
No completó los 12 años, n (%)	359 (22,4)	72 (25,2)
Completó los 12 años, n (%)	628 (39,2)	130 (45,5)
Título universitario o licenciatura, n (%)	615 (38,4)	84 (29,4)
Puntuación materna de salud mental, media (DE)	3,2 (2,9)	3,1 (2,9)

DE: desviación estándar; SEIFA: Socio-economic Indexes for Areas.
^aEl número de participantes varió desde 1.469 hasta 1.619.
^bEl número de no participantes varió desde 242 hasta 292.
^cLos niños con antecedentes familiares de tartamudeo también podrían haberlos referido de problemas del habla/lenguaje y/o lectura.

su hijo había empezado a tartamudear antes de los 2 años de edad. La mayor parte refirió que se dieron cuenta por primera vez de que lo hacía cuando el niño hilaba dos o más vocablos (133 de 137 [97,1%]). En más de la mitad de los niños, el tartamudeo se inició súbitamente; 51 padres (37,2%) refirieron que se inició durante un período de un día y 17 (12,4%), durante 2-3 días. En algunos niños, se refirió que apareció más lentamente: 1-2 semanas (37 [27,0%]), 3-4 semanas (19 [13,9%]) y durante un período de 5 semanas en ocho niños (5,8%). Hubo cuatro progenitores que se mostraron inseguros del tiempo que tardó en aparecer (2,9%). Para un caso, se habían omitido los datos.

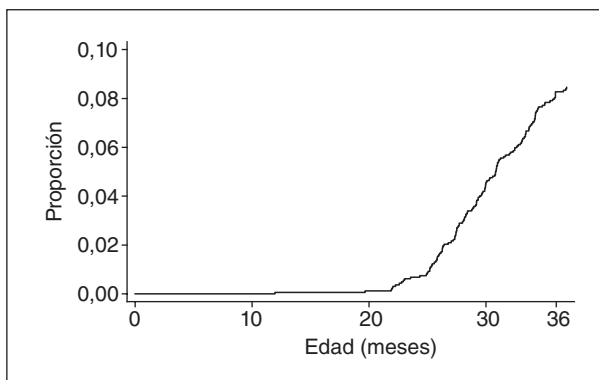


Fig. 2. Proporción de participantes en el estudio que tartamudeaban por edad dada. Datos mostrados hasta los 3 años de edad.

Se obtuvieron los antecedentes familiares de todos los niños de la cohorte del estudio ELVS (tabla 1). Después de su inicio a partir de las familias de los niños con disfermia se obtuvieron los antecedentes familiares más detallados del problema y de los relacionados con la comunicación, lo que reveló antecedentes familiares específicos de tartamudeo en 71 (51,8%) padres de niños que habían iniciado el problema. Un 20-30% refirió antecedentes familiares de otros procesos relacionados, incluidos problemas del habla, problemas escolares, dificultades con las matemáticas, y dificultades con la lectura y/o escritura. Menos del 20% refirió problemas en una diversidad de esferas, incluida la epilepsia, deterioro intelectual, problemas del lenguaje, dificultades motoras y problemas de atención y concentración.

La mayoría de los padres describieron la naturaleza del tartamudeo de su hijo como episódica (125 [91,2%]) más que continua. La conductas de tartamudeo descritas más a menudo fueron la repetición de un vocablo (97 [71%]). En la tabla 2 se muestra que, comparado con los que no tartamudeaban, en el grupo de niños con disfermia hubo mayores proporciones que presentaron cada

TABLA 2. Comparación entre niños con disfemia y sin ella

Variables	Disfemia ^a (n = 137)	Sin disfemia ^b (n = 1.482)
Sexo masculino, n (%)	84 (61,3)	740 (49,9)
Parto prematuro (< 36 semanas), n (%)	2 (1,5)	45 (3,0)
Parto de gemelos, n (%)	7 (5,1)	35 (2,4)
Con hermanos más mayores, n (%)	62 (45,3)	733 (49,6)
Antecedentes familiares		
Sin problemas, n (%)	105 (76,6)	1.108 (74,8)
Sólo problemas del habla/lenguaje/lectura, n (%)	20 (14,6)	292 (19,7)
Problema de tartamudeo ^c , n (%)	12 (8,8)	82 (5,5)
Peso al nacer, media (DE)	3,5 (0,5)	3,4 (0,5)
Puntuación de posición socioeconómica desfavorecida en el SEIFA, media (DE)	1.047 (50)	1.036 (62)
Años de estudios de la madre		
No completó el año 12 de la escuela primaria	18 (13,3)	341 (23,2)
Completó el año 12 de la escuela primaria	38 (28,1)	590 (40,2)
Título universitario/licenciatura	79 (58,5)	536 (36,5)
Puntuación de salud mental materna a los 2 años, mediana (límites intercuartil)	3 (1, 5)	2 (1, 4)
Puntuación para el temperamento a los 2 años de edad, media (DE)	15,5 (4,6)	15,7 (5,0)
Puntuación bruta de vocabulario en la escala MCIDI a los 2 años de edad, media (DE)	299 (157)	259 (162)
Categoría del percentil en la escala MCIDI a los 2 años de edad, media (DE)	48,8 (27,6)	40,6 (28,3)
Hablador tardío (puntuación ≤ percentil 10 en MCIDI) a los 2 años	11 (8,0)	268 (20,0)
Puntuación total estandarizada en la CSBS a los 2 años de edad, media (DE)	108 (15)	104 (15)

DE: desviación estándar; CSBS: Communication and Symbolic Behaviour Scales; MCIDI: MacArthur-Bates Communicative Development Inventories; SEIFA: Socioeconomic Indexes for Areas.

^aEl tamaño de la muestra varió desde 134 hasta 137 para los tartamudos.

^bEl tamaño de la muestra varió desde 1.308 a 1.482 para los no tartamudos.

^cLos niños con antecedentes familiares de tartamudeo también podrían haber referido antecedentes familiares de problemas de habla/lenguaje/y/o lectura.

una de las características mencionadas más adelante: varones, gemelos y estudios de los padres a nivel universitario o más. En el grupo con disfemia se identificó una menor proporción de niños que hablaron tardíamente y una mayor puntuación total obtenida en las escalas CDI y CSBS a los 2 años de edad que los niños que no tartamudeaban, pero la puntuación media de timidez, el peso al nacer y las puntuaciones de salud mental materna fueron similares (tabla 2).

En la tabla 3 se resumen los resultados de los análisis de regresión logística del estado del tartamudeo sobre los factores de riesgo de interés que muestran las OR tanto brutas (bivariantes) como ajustadas (multivariantes). Por medio de la estrategia polinomial fraccional no se detectaron pruebas de falta de linealidad en la relación entre las variables pronósticas cuantitativas y el log de probabilidad de inicio del tartamudeo a los 3 años de edad³³. En el modelo ajustado, el sexo masculino, el parto de gemelos, una madre con un título universitario o una licenciatura y la obtención de una puntuación bruta elevada del vocabulario en la escala CDI a los 2 años de edad se asociaron con la disfemia. Un aumento de 100 vocablos en la puntuación de vocabulario se corresponde con un aumento del 17% en la probabilidad de empezar a tartamudear. Los hallazgos para el parto de

gemelos han de interpretarse con precaución; la estimación de la OR para esta variable podría ser inestable, porque el número de gemelos que empezó a tartamudear fue reducido. Se identificó una prueba débil de que los niños con antecedentes familiares del problema tuvieron más probabilidades de desarrollar disfemia en comparación con aquellos sin problemas o con tan sólo antecedentes de problemas generales del lenguaje/habla/lectura. En conjunto, el modelo multivariable se caracterizó por una potencia predictiva reducida, explicando sólo el 3,7% de la variación total en el inicio del tartamudeo. Un análisis de sensibilidad en el que se clasificó a los 21 casos “en los límites” como disfémicos más que no disfémicos proporcionó resultados similares a los del análisis ajustado principal.

DISCUSIÓN

La incidencia acumulativa de inicio del tartamudeo a los 3 años de edad fue del 8,5%, lo que representa casi el doble del porcentaje descrito previamente en otros estudios. Aunque confirmamos diversas de las asociaciones predictivas formuladas como hipótesis, los 12 factores de riesgo que investigamos pudieron explicar muy poca de la variación en su inicio (3,7%).

Hasta lo que conocen los autores del presente estudio, ésta es la investigación epidemiológica a mayor escala sobre inicio precoz del tartamudeo, efectuada hasta la fecha, y la primera que ha reclutado a una cohorte y determina los posibles factores de riesgo antes de su inicio e incorpora diagnósticos expertos, fiables. Algunos de los hallazgos del presente estudio confirman los de estudios previos sobre tartamudeo precoz. Por ejemplo, los niños tuvieron más probabilidades de tartamudear que las niñas. Además, confirmamos el inicio rápido documentado de la disfemia, su naturaleza episódica y la prominencia de vocablos repetidos al inicio. En coincidencia con las pruebas retrospectivas existentes, la mayoría de los padres refirieron que su inicio se produjo durante el estadio del desarrollo del lenguaje de dos o tres palabras.

Los informes de antecedentes familiares de tartamudeo variaron de acuerdo con cuándo se obtuvo la información. Antes de su inicio, 12 (8,8%) de 137 familias con niños que tartamudeaban refirieron antecedentes familiares. Cuando los datos de éstos se obtuvieron después de su inicio, un número mucho mayor de estas familias recordó antecedentes familiares (71 de 137 [51,8%]). Hallazgos similares se han descrito en estudios sobre el cribado del deterioro de la audición³⁴, y los hallazgos simplemente podrían reflejar que los padres no tienen concienciación del factor de riesgo en el momento de responder al cuestionario (p. ej., antes del inicio). Sin embargo, el hallazgo suscita preocupación acerca del uso de un posible factor de riesgo, como los antecedentes familiares para identificar a los niños que corren un riesgo de inicio de disfemia.

La elevada incidencia acumulativa del 8,5% de inicio a los 3 años de edad puede parecer sorprendente. La estimación es fiable porque los IC del 95% fueron estrechos (7,2-9,9%). La tasa de respuesta fue alta (el 85% de los padres de la cohorte original del ELVS), y los expertos verificaron rigurosamente el tartamudeo utilizando criterios estrictos, de modo que podemos tener una confianza razonable de que se identificó a la mayoría de los niños

TABLA 3. Regresión logística de la situación de "disfemia" (disfemia comparado con su ausencia)

Variable	Brutas			Ajustadas		
	OR	IC del 95%	Valor de p	OR	IC del 95%	Valor de p
Sexo masculino	1,59	1,10-2,29	0,01	1,64	1,10-2,45	0,02
Parto prematuro (< 36 semanas)	0,47	0,11-1,98	0,31	0,54	0,12-2,45	0,43
Parto de gemelos	2,23	0,81-6,09	0,12	3,28	1,20-8,99	0,02
Peso al nacer (kg)	1,21	0,86-1,70	0,28	1,08	0,72-1,63	0,71
Tiene hermanos más mayores	0,84	0,59-1,19	0,33	0,89	0,60-1,32	0,56
Antecedentes familiares			0,14			0,06
Sin problemas	Referencia			Referencia		
Sólo problemas del habla/lenguaje/lectura	0,72	0,44-1,19		0,82	0,48-1,41	
Problema de tartamudeo*	1,54	0,81-2,93		2,15	1,06-4,37	
Puntuación de la posición socioeconómica desfavorecida en el SEIFA (por incremento de 100 unidades)	1,45	1,05-2,00	0,03	1,10	0,78-1,54	0,59
Años de estudios de la madre			< 0,001			< 0,001
No completó el año 12 de la escuela primaria	Referencia			Referencia		
Completó el año 12 de la escuela primaria	1,22	0,69-2,17		1,06	0,58-1,95	
Título universitario/licenciatura	2,79	1,64-4,74		2,17	1,23-3,81	
Puntuación de salud mental materna a los 2 años	0,99	0,93-1,05	0,81	1,02	0,95-1,09	0,67
Puntuación de temperamento a los 2 años de edad	0,99	0,96-1,03	0,70	1,01	0,97-1,04	0,64
Puntuación total estandarizada en CSBS a los 2 años (por incremento de 15 unidades)	1,30	1,08-1,56	0,005	1,17	0,93-1,48	0,19
Puntuación bruta de vocabulario en la MCDI a los 2 años de edad (por incremento de 100 unidades)	1,16	1,05-1,29	0,005	1,17	1,02-1,34	0,02

CSBS: Communication and Symbolic Behaviour Scales; IC: intervalo de confianza; MCDI: MacArthur-Bates Communicative Development Inventories; OR: *odds ratio*; SEIFA: Socio-economic Indexes for Areas.

El número varía desde 1.442 a 1.619 para los análisis no ajustados y es de 1.335 para los análisis ajustados.

*Los niños con antecedentes familiares de tartamudeo también podrían haber referido antecedentes familiares de problemas del habla/lenguaje y/o lectura.

de la población que empezaron a tartamudear antes de los 3 años de edad y que la elevada tasa no se debió a falsos positivos. Por último, la elevada incidencia es verosímil: es probable que hayamos identificado el tartamudeo que habría pasado desapercibido en los estudios previos, porque fue de carácter leve o de breve duración. Por ejemplo, en el estudio efectuado en Newcastle-on-Tyne⁵, en ocasiones el tartamudeo sólo pareció durar unos meses.

Siempre que un estudio a gran escala describa un hallazgo más "extremo" que la investigación previa, debe considerarse la posibilidad de un sesgo. Reconocemos que la estimación de la incidencia acumulativa podría estar en cierto modo inflada porque los padres y lactantes de grupos más desfavorecidos no estuvieron representados lo suficiente en esta cohorte (una limitación habitual en los estudios de población longitudinales), mientras que los niños cuyas madres refirieron un elevado nivel de estudios tuvieron tanto más probabilidades de tartamudear como de ser incluidos en el estudio. No obstante, esto no altera nuestras conclusiones. Los datos del censo australiano sobre madres de niños nacidos en 2001 indican que el 43,8% no completaron la enseñanza primaria, comparado con tan sólo el 22,4% de la presente investigación sobre disfemia. Cuando aplicamos los valores de probabilidad inversa acordes como comprobación de la sensibilidad, la incidencia acumulativa estimada disminuyó desde el 8,5% al 7,5% (IC del 95%: 6,2%-8,8%), lo que es una cifra considerablemente más alta que la descrita previamente. Otros factores de contribución a un sesgo de selección parecen poco probables: la cohorte ELVS no se reclutó originalmente en un estudio sobre tartamudeo, el reclutamiento tuvo lugar mucho antes de que pudiera haber surgido cualquier preocupación sobre disfemia, y los hallazgos indican que la gran mayoría de los niños con antecedentes familiares de tartamudeo los desconocían (es decir, ésta no habría sido la razón de una autoselección en el estudio ELVS o

la investigación sobre tartamudeo). Por último, el estudio captó satisfactoriamente a las familias a través de todo el espectro socioeconómico para cuantificar la relación interna variable pronóstica, para la que no es esencial una muestra representativa.

El presente informe sólo incluye el inicio hasta los 3 años de edad. La incidencia acumulativa del inicio del tartamudeo a los 4 años será mayor. Podríamos haber pasado por alto algunos casos porque los padres decidieron no llamar o porque la duración del tartamudeo fue tan breve que no dio lugar a un informe de los padres. A medida que continuemos la presente observación de la cohorte en los años preescolares, podremos determinar cualquier caso omitido de tartamudeo persistente no notificado por los padres.

Cuatro factores se asociaron significativamente con el inicio del tartamudeo a nivel del 5%. La asociación con el sexo es el factor mejor reconocido en los estudios publicados, pero las asociaciones con el parto de gemelos y el nivel de estudios maternos fueron sorprendentes y, como se ha mencionado previamente, han de interpretarse con precaución. Las madres con un título universitario o una licenciatura tuvieron más probabilidades de tener un hijo con disfemia a los 3 años de edad. Es posible que las madres con un nivel elevado de estudios tuvieran más probabilidades de ser conscientes del inicio del tartamudeo (y, por lo tanto, de referirlo). También es posible que la asociación con el número de estudios maternos sea un artefacto; típicamente, su inicio tiene lugar con el desarrollo de las combinaciones de tres palabras, y dichas combinaciones simplemente pueden producirse antes en los hijos de mujeres con más años de estudios. Como argumento en contra de esto, las puntuaciones de vocabulario a los 2 años de edad se asociaron significativamente con el inicio del tartamudeo pero *no* con los años de estudios maternos²¹, y claramente esta asociación inesperada requiere una dilucidación adicional a

medida que los niños maduren. Los resultados del presente estudio no respaldan la premisa de que los problemas del lenguaje se asocien con el inicio del tartamudeo sino que las habilidades de comunicación y el vocabulario están más desarrollados en niños que empiezan a tartamudear a los 3 años de edad.

Suscita interés clínico y teórico el hallazgo del presente estudio de que la esfera del temperamento que determinamos no predijo su inicio, es decir, los niños que empezaron a tartamudear no eran más tímidos ni más extrovertidos que los no disfémicos. Y lo que es más importante todavía, obtuvimos las variables antes del inicio del tartamudeo utilizando un instrumento validado para el informe de los padres, normativo para niños australianos²⁷. Se considera que el temperamento es un rasgo relativamente estable pero, no obstante, receptivo a las experiencias medioambientales^{27,35,36}. Es posible que, cuando el niño empieza a tartamudear, se vuelva más vigilante y más reservado, según lo descrito por Anderson et al¹². Por otra parte, es posible que los padres, que son los que completan los cuestionarios sobre temperamento, tengan este concepto de sus hijos simplemente porque tartamudean. Sin embargo, los resultados del presente estudio no sugieren que la “timidez” natural desempeñe un papel causal en el tartamudeo.

El estudio adicional de esta cohorte permitirá la estimación de la incidencia acumulativa del inicio del tartamudeo durante los años preescolares e identificará si aparecen variables pronósticas más potentes con un inicio después de los 3 años de edad. También podremos estimar la tasa de restablecimiento natural durante los años preescolares y proporcionaremos una base de evidencias muy necesarias sobre las agrupaciones de síntomas que es probable que persistan y se resuelvan con el tiempo. El estudio no identificó factores de riesgo o antecedentes que puedan usar los profesionales sanitarios en la historia clínica para predecir de manera fiable los niños que corren un riesgo de inicio de disfemia. En adultos la prevalencia conocida de tartamudeo es de alrededor del 1%³⁷, de modo que una implicación significativa de la elevada incidencia detectada en el presente estudio es que el restablecimiento natural podría ser mucho mayor de lo que se ha considerado previamente. Es preciso tranquilizar a los padres que se presentan a los profesionales sanitarios con preocupaciones sobre el inicio del tartamudeo acerca de los aspectos siguientes: en primer lugar, su inicio es frecuente en niños de hasta 3 años de edad. En segundo lugar, su inicio se asoció con un aumento rápido del desarrollo del lenguaje, en particular la combinación de vocablos en frases y oraciones cortas. En tercer lugar, los niños que empiezan a tartamudear no parecen ser más tímidos o retraídos que los de la misma edad que no lo hacen. Por último, debe tranquilizarse a los padres indicándoles que no se dispone de pruebas potentes de que los factores sociales y medioambientales determinados en el presente estudio se relacionen con su inicio.

APÉNDICE: INFORMACIÓN PROPORCIONADA A LOS PADRES SOBRE EL INICIO DEL TARTAMUDEO O DISFEMIA

Los niños que tartamudean tienen problemas para hablar con fluidez. Se considera que está presente una disfemia o tartamudeo cuando un niño:

- Repite una y otra vez palabras, sonidos o sílabas (p. ej., “pueeedo-pueeedo-pueeedo-ir), en particular de vocablos monosilábicos (p. ej., “yo, yo, yo, le veo”).
- Efectúa prolongaciones de sonidos (p. ej., “pueooooooooo ir”, “paaaaan”).
- Hace pausas en el habla (bloques audibles o silenciosos) cuando no “le salen” los sonidos.
- El tartamudeo puede empezar de forma súbita o gradualmente en el curso de días, semanas o meses.
- Si creen que su hijo tartamudea, les rogamos que se pongan en contacto con el equipo del ELVS tan pronto como se den cuenta.

AGRADECIMIENTOS

El presente estudio se financió con la beca DP0557291 del Australian Research Council. El Early Language in Victoria Study se financió con la beca 237106 del Australian National Health and Medical Research Council (NHMRC). La financiación de los estudios se complementó con una beca del programa NHMRC para los profesores Onslow y Packman (402763) y becas adicionales del Murdoch Children’s Research Institute y la Faculty of Healthy Sciences de La Trobe University. Los doctores Onslow y Wake recibieron financiación a través de una NHMRC Research Fellowship 302101 y una NHMRC Population Health Career Development Award 284556, respectivamente. El cargo posdoctoral del doctor Okoumunne está financiado con la NHMRC Population Health Capacity Building Grant 436914. Se obtuvo la aprobación de los comités de investigación del Royal Children’s Hospital Melbourne (23018) y La Trobe University (03-32).

Deseamos expresar nuestro sincero agradecimiento a todos los niños y padres participantes.

BIBLIOGRAFÍA

1. Teesson K, Packman A, Onslow M. The Lidcombe Behavioral Data Language of stuttering. *J Speech Lang Hear Res.* 2003;46(4):1009-15.
2. Messenger M, Onslow M, Packman A, Menzies R. Social anxiety in stuttering: measuring negative social expectancies. *J Fluency Disord.* 2004;29(3):201-12.
3. Buchel C, Sommer M. What causes stuttering? *PLoS Biol.* 2004;2(2):E46.
4. Packman A, Attanasio JS. *Theoretical Issues in Stuttering.* Londres, Inglaterra: Psychology Press; 2004.
5. Andrews G. The epidemiology of stuttering. En: Curlee RF, Perkins WH, editores. *Nature and Treatment of Stuttering: New Directions.* San Diego, CA: College-Hill Press; 1985. p. 1-12.
6. Andrews G, Harris M. *The Syndrome of Stuttering.* Londres, Inglaterra: Heinemann; 1964.
7. Ingham RJ. Onset, prevalence, and recovery from stuttering: a reassessment of findings from the Andrews and Harris study. *J Speech Hear Disord.* 1976;41(2):280-1.
8. Mansson H. Childhood stuttering: incidence and development. *J Fluency Disord.* 2000;25(1):45-57.
9. Nippold MA. Concomitant speech and language disorders in stuttering children: a critique of the literature. *J Speech Hear Disord.* 1990;55(1):51-60.
10. Watkins RV, Yairi E, Ambrose NG. Early childhood stuttering III: initial status of expressive language abilities. *J Speech Lang Hear Res.* 1999;42(5):1125-35.
11. Anderson JD, Wagovich S, Hall NE. Nonword repetition skills in young children who do and do not stutter. *J Fluency Disord.* 2006;31(3):177-99.
12. Anderson JD, Pellowski MW, Conture EG, Kelly EM. Temperamental characteristics of young children who stutter. *J Speech Lang Hear Res.* 2003;46(5):1221-33.
13. Guitar B. *Stuttering: An Integrated Approach to its Nature and Treatment*, 2.ª ed. Baltimore, MD: Williams and Wilkins; 1998.

14. Riley G, Riley J. A revised component model for diagnosing and treating children who stutter. *Contemp Issues Commun Sci Disord*. 2000;27(2):188-9.
15. Oyler M. Vulnerability in stuttering children. *Diss Abstr Int*. 1996;56 (UMI N.º 9602431):3374.
16. Yairi E, Ambrose NG, Niermann R. The early months of stuttering: a developmental study. *Journal of Speech and Hearing Research*. 1993;36(3):521-8.
17. Kloth S, Janssen P, Kraaimaat F, Brutton GJ. Child and mother variables in the development of stuttering among high-risk children: a longitudinal study. *J Fluency Disord*. 1998;23(4):217-30.
18. Onslow M, Harrison L, Rousseau I, editores. *The Lidcombe Program 2007: Clinical Tales and Clinical Trials*. 3.ª ed. Nueva York, NY: Thieme; 2007.
19. Jones M, Onslow M, Packman A, et al. A randomised controlled trial of the Lidcombe Program for early stuttering intervention. *BMJ*. 2005;331(7518):659-61.
20. Reilly S, Eadie P, Bavin EL, et al. Growth of infant communication between 8 and 12 months: a population study. *J Paediatr Child Health*. 2006;42(12):764-70.
21. Reilly S, Wake M, Bavin EL, et al. Predicting language at 2 years of age: A prospective community study. *Pediatrics*. 2007; 120(6). Disponible en: www.pediatrics.org/cgi/content/full/120/6/e1441
22. Australian Bureau of Statistics. *Socio-economic Indexes for Areas*. Canberra, Australia: Australian Bureau of Statistics; 2001.
23. Onslow M, Packman A, Harrison E, editores. *Lidcombe Program for Early Stuttering Intervention: Clinician's Guide*. Austin, TX: Pro-Ed; 2003.
24. Fenson L, Dale PS, Reznick JS. *The MacArthur Communicative Development Inventories: User's Guide and Technical Manual*. San Diego, CA: Singular Publishing Group; 1993.
25. Fenson L, Pethick SJ, Renda C, Cox JL, Dale PS, Reznick JS. Short-form versions of the MacArthur Communicative Development Inventories. *Appl Psycholinguistics*. 2000; 21(1):95-116.
26. Wetherby A, Prizant B. *Communication and Symbolic Behaviour Scales*. Baltimore, MD: Paul H. Brookes Publishing Co; 2002.
27. Prior M, Sanson A, Oberklaid F. The Australian Temperament Project. In: Kohnstamm GA, Bates JE, Rothbart MK, editores. *Temperament in Childhood*. Chichester, Sussex, Reino Unido: Wiley; 1989. p. 537-54.
28. Prior M, Sanson A, Smart D, Oberklaid F. *Pathways From Infancy to Adolescence: Australian Temperament Project 1983-2000*. Melbourne, Australia: Australian Institute of Family Studies; 2000.
29. Kessler R, Mroczek D. Final Version of Our Non-specific Psychological Distress Scale [memorandum]. Ann Arbor, MI: Institute for Social Research; 1994.
30. Hanley JA, Negassa A, Edwards MD, Forrester JE. Statistical analysis of correlated data using Generalized Estimating Equations: an orientation. *Am J Epidemiol*. 2003; 157(4):364-75.
31. Hosmer D, Lemeshow S. *Applied Logistic Regression*. Nueva York, NY: Wiley; 2000.
32. Stata Corporation. *Stata Statistical Software [programa de ordenador]*. Release 9.2. College Station, TX: Stata Corporation; 2005.
33. Royston P, Ambler G, Sauerbrei W. The use of fractional polynomials to model continuous risk variables in epidemiology. *Int J Epidemiol*. 1999;28(5):964-74.
34. Russ R, Rickards F, Poulaki Z, Barke M, Saunders K, Wake M. Six year effectiveness of a population based two tier infant hearing screening programme. *Arch Dis Child*. 2002;86(4):245-50.
35. Sanson A, Hemphill S, Smart D. Connections between temperament and social development: a review. *Soc Dev*. 2004; 13(1): 142-70.
36. Van den Boom D. Do first-year intervention effects endure? Follow-up during toddlerhood of a sample of Dutch irritable infants. *Child Dev*. 1995;66(6):1798-816.
37. Craig A, Hancock K, Tran Y, Craig M, Peters K. Epidemiology of stuttering in the community across the entire life span. *J Speech Lang Hear Res*. 2002;45(6):1097-105.