2024 AG BELL GLOBAL LISTENING AND SPOKEN LANGUAGE VIRTUAL SYMPOSIUM

a.g.bell Association for the Deaf & Hard of Hearing

AMPLIFYING *Voices* WORLDWIDE

2024 AG Bell Global LSL Virtual Symposium
Amplifying Voices Worldwide

RESEARCH PROCEEDINGS

The Alexander Graham Bell Association for the Deaf and Hard of Hearing works globally to ensure that people who are deaf and hard of hearing can hear and talk. We want all families to be informed and supported, professionals to be appropriately qualified to teach and help children with hearing loss, public policy leaders to effectively address the needs of people with hearing loss, and communities to be empowered to help their neighbors with hearing loss succeed.

Research Proceedings of the 2024 Global Listening and Spoken Language Virtual Symposium

Psychosocial Skills and Quality of Life in Deaf and Hard of Hearing Children: Learning from the First Ten Years of the LOCHI Study 1
By Greg Leigh, Teresa Y. C. Ching, and Linda Cupples

Let's Play and Talk: Linking Children's Language and Pretend Play Abilities 16
By Louise Paatsch, Ph.D., Andrea Nolan, Ph.D., Natalie Robertson, Ph.D.

Fueling Spoken Language Development through Auditory Access 29
By Ryan McCreery, Ph.D.

Congenital Cytomegalovirus (CMV) Infection: A Common Yet Overlooked Cause of Hearing Loss and Neurodevelopmental Disorders 36
By Ulrika Löfkvist, Eva Karltorp, Jessica Dunn, Holly Teagle and Albert Park

PROGRAMA DE INVESTIGACIÓN SIMPOSIO GLOBAL VIRTUAL AG BELL DE ESCUCHA Y LENGUAJE HABLADO 2024 52

Research reported in this publication was supported by the National Institutes of Health under Award Number R13DC020382. The content is solely the responsibility of the authors and does not necessarily represent the official views of the National Institutes of Health.

PERMISSION TO COPY: The Alexander Graham Bell Association for the Deaf and Hard of Hearing, as copyright owner of this journal, allows single copies of an article to be made for personal use. This consent does not extend to posting on websites or other kinds of copying, such as copying for general distribution, for advertising or promotional purposes, for creating new collective works of any type, or for resale without the express written permission of the publisher. For more information, contact AG Bell at 3417 Volta Place, NW, Washington, DC 20007; email vreditor@agbell.org; or call (202) 337-5220.

ALEXANDER GRAHAM BELL ASSOCIATION FOR THE DEAF AND HARD OF HEARING

Officers of the Association: Chair, Ken Levinson (USA); **Chair-Elect,** Howard W. Francis, M.D., M.B.A. (USA); **Immediate Past Chair,** Susan Lenihan, Ph.D. (USA); **Secretary,** Ivette Cejas, Ph.D. (USA); **Treasurer,** Robert. J. Bush (USA); **Chair-AG Bell Academy,** Ulrika Lofkvist, Ph.D., M.Sc., CCC-SLP, LSLS Cert. AVEd (Sweden); **Chief Executive Officer,** Emilio Alonso-Mendoza, J.D., CFRE (USA)

Board of Directors: Mark Cronk (USA); Maria Fernanda Hinojosa Valencia, LSLS Cert. AVEd (Mexico); Sherri Fickenscher, M.S., LSLS Cert. AVEd (USA); Lilian Flores-Beltran, Ph.D., LSLS Cert. AVT (Mexico); Jane Madell, Ph.D., LSLS Cert. AVT (USA); Maria Emilia de Melo, SLP, Aud(C), CASLPO Reg., LSLS Cert. AVT (Canada); John Stanton, J.D. (USA); Mike Stanton, CFP (USA); Karen Stein, MAEd., LSLS Cert. AVEd (USA); Meredith Sugar, Esq. (USA); Carol Flexer, Ph.D., CCC-A, LSLS Cert. AVT (USA); Sara Grosvenor (USA); Karen MacIver-Lux, MA, Reg. CASLPO, Aud(C), LSLS Cert. AVT (Canada); Arlene Stredler Brown, CCC-SLP (USA)

The Volta Review

***The Volta Review* Staff: Managing Editor,** Melody Bertrand; **Chief Strategy Officer,** Gayla Guignard, M.A., CCC-A/SLP, LSLS Cert. AVT

General Information: *The Volta Review* (ISSN 2162-5158) is published electronically annually. Copyright 2024 by Alexander Graham Bell Association for the Deaf and Hard of Hearing, 3417 Volta Pl., NW, Washington, DC 20007.

The Volta Review is the peer-reviewed scholarly research journal, published annually by the Alexander Graham Bell Association for the Deaf and Hard of Hearing, a not-for-profit organization. The journal is devoted to the reporting of scholarly findings in areas related to the development of listening and spoken language by individuals who are deaf and hard of hearing.

The Volta Review is available to readers as an open access publication. Current and past issues can be found at https://agbell.org/docs-category/volta-review/.

The Volta Review is abstracted and indexed in CrossRef, ProQuest, EBSCO, Portico, ERIC, PubMed (Medline), PsycINFO, and Elsevier Scopus.

The publishing office of *The Volta Review* is located at 3417 Volta Place, NW, Washington, DC 20007-2778.

PSYCHOSOCIAL SKILLS AND QUALITY OF LIFE IN DEAF AND HARD OF HEARING CHILDREN: LEARNING FROM THE FIRST TEN YEARS OF THE LOCHI STUDY

By Greg Leigh[1,2], Teresa Y. C. Ching[1,2,3], and Linda Cupples[4]
[1] *NextSense Institute, NextSense, Sydney, Australia*
[2] *Macquarie School of Education, Macquarie University, Sydney, Australia*
[3] *School of Health and Rehabilitation Sciences, University of Queensland, Brisbane, Australia*
[4] *Department of Linguistics, Macquarie University, Sydney, Australia*

This article discusses findings from the first 10 years of the Longitudinal Outcomes of Children with Hearing Impairment (LOCHI) Study, which includes more than 450 deaf and hard of hearing Australian children whose hearing losses were identified variously through newborn hearing screening or later paths to confirmation and intervention.

The Longitudinal Outcomes of Children with Hearing Impairment (LOCHI) Study is a population-based prospective study in Australia that, since 2005, has periodically assessed a wide range of outcomes for a cohort of children who are deaf or hard of hearing (DHH) to investigate the effectiveness of early identification and early intervention and the factors that account for variability in outcomes.

Prior to the LOCHI study, research into the effect of earlier identification comprised mainly either (a) retrospective comparisons of convenience samples of children that were often drawn from single early intervention, educational, or audiological services that tended to show positive effects of earlier identification (e.g., Calderon & Naidu, 1998; Moeller, 2000; Yoshinaga-Itano et al., 1998); or (b) population based studies that tended to show no, or limited, benefits of earlier identification of hearing loss (e.g., Kennedy et al., 2006; Korver et al., 2010).

Given the widespread acceptance of Universal Newborn Hearing Screening (UNHS) and the extent to which governments around the world made commitments to its implementation, it was an anomaly that the evidence for its efficacy at the initial stages of its development was

not strong. Indeed, as late as 2008, a systematic review (Nelson et al., 2008) noted that there was only "moderate certainty that the net benefit of screening all newborn infants for hearing loss is moderate", noting the need for evidence from prospective examination of whether earlier identification of hearing loss resulted in improved developmental and educational outcomes for children born with hearing loss. It was in that context that the LOCHI study was conceived.

LOCHI STUDY DESIGN

The need for a prospective study of the efficacy of earlier identification of hearing loss presented a significant design dilemma for researchers in contexts where newborn hearing screening was already operating at population level. In such jurisdictions, random assignment of children to be either screened or not screened would not be ethical and the idea of random assignment to treatment groups (early intervention versus later intervention) would be even more ethically egregious. To overcome the need for random assignment, the LOCHI study took advantage of a window of time in Australia between 2002 and 2007 when several Australian states were implementing UNHS programs at different rates. The three most populous states—New South Wales, Victoria, and Queensland—each commenced programs within a three-year period from 2002 to 2005. New South Wales implemented UNHS across all regions of the state simultaneously, whereas in Queensland and Victoria the roll-out of the program was staged across regions over 2 years and 6 years, respectively (Leigh, 2006).

As a prospective study, all children identified with hearing loss who were born in those three states across a 5-year period from 2002 to 2007 were invited to participate, resulting in a cohort of approximately 470 children that was naturally divided into those who were identified through UNHS and those who were identified later, allowing age of identification to be a primary predictor variable in a prospective research design (Ching et al., 2013). In addition, data on numerous other predictor variables were also collected, including (a) child-related variables (i.e., birth weight, gender, age of identification/diagnosis, degree of hearing loss, age at hearing aid fitting, age at cochlear implantation, non-verbal cognitive ability presence of additional disabilities, and presence of auditory neuropathy); (b) family-related variables (i.e., parental level of education,

socio-economic status, and language/communication mode used at home); and (c) educational/early intervention variables (i.e., communication mode, changes in communication mode over time). Notably, all participating children, regardless of whether they were identified via UNHS or standard care, received the same hearing intervention service from a single national provider (Hearing Australia), at no cost to families.

A range of outcomes have been measured at multiple points in the lives of the LOCHI study participants (i.e., at 6 and 12 months after first fitting with hearing aids or cochlear implants (CIs), and then at each of 3, 5, and 9 years of age) including: receptive and expressive language, functional communication ability, speech perception and production, literacy, educational attainment, and, importantly in the context of this review, psychosocial development and quality of life (QOL).

SOCIAL AND EMOTIONAL DIFFICULTIES AND QUALITY OF LIFE

For the last three decades, researchers have increasingly considered the social and emotional development of children who are DHH. Studies have variously reported on general concepts of psychosocial functioning, often associated with the overall construct of QOL, and sometimes more specifically on mental health and psychopathology. While far from being unanimous in their findings, researchers have frequently shown an increased risk of some social and emotional difficulties associated with decreased QOL and, to a lesser extent, mental health problems (Castellanos et al., 2018; Fellinger et al., 2009; Hindley et al., 1994; Overgaard et al., 2021; Stika et al., 2021; Theunissen et al., 2014a, b).

As broadly consistent as these findings have been, it is notable that there has been considerable heterogeneity in the samples drawn from the diverse population of children and adolescents who are DHH. Multiple dimensions of difference within this population make generalized conclusions problematic. Increasingly, studies have focused on the psychosocial outcomes in subsections of this population, particularly children with CIs. A further limitation of previous research in this area is that most studies were based on cross-sectional designs, often with convenience samples and a limited range of predictor variables, making it difficult to draw conclusions regarding both generalizability and causality for any reported difficulties.

As a longitudinal population-based study, the LOCHI study provides the opportunity to consider the social and emotional development of a population of children at 3, 5, and 9 years of age, and their health-related QOL at 9 years of age. Examining these outcomes and range of independent variables longitudinally provides the opportunity to consider both the prevalence of social and emotional difficulties and possible predictors of those difficulties.

PSYCHOSOCIAL DEVELOPMENT AT 3 YEARS OF AGE

Detailed description of the findings regarding social and emotional development at the 3 year age interval of the LOCHI study were reported by Leigh et al. (2015). At that point, in addition to the usual demographic survey and the range of language and communication assessments, caregivers completed two questionnaires: the Child Development Inventory (CDI; Ireton, 2005) and the Parents' Evaluation of Aural/Oral Performance of Children (PEACH; Ching & Hill, 2007).

The CDI (Ireton, 2005) is a questionnaire-based measure that contains 300 statements that describe observable aspects of child behavior from 15 months to 6 years of age. Although there are eight subscales (Social, Self Help, Gross Motor, Fine Motor, Expressive Language, Language Comprehension, Letters, and Numbers), the two of interest here were those that address aspects of psychosocial development: (a) the Social subscale that probes social behaviors, initiative, independence, and social interaction; and (b) the Self-Help subscale that addresses independence, self-care skills, and personal responsibility. Each subscale has 40 items requiring caregivers to answer Yes or No to indicate whether they have observed a behavior in their child. The PEACH (Ching & Hill, 2007) contains 11 questions that seek caregivers' ratings of children's ability to communicate in quiet and in noise and to respond to sounds in everyday situations, and two questions that address rating their use of their sensory devices. For each question parents are asked to rate the child's ability on a five-point scale and the frequency of occurrence of behaviors observed over a week. It yields an overall functional performance score calculated from the response to the 11 questions.

The most notable finding regarding the children's performance at 3 years of age was that average scores on the two measures of psychosocial development were within the typical range for children of that age. This

was a notable contrast with much previous research that concluded DHH children were at higher risk of poorer psychosocial outcomes than their typical hearing same age peers. However, in a trend that would be observed at subsequent age intervals in the LOCHI study, standard deviations were high, with some children achieving scores well below the mean. In contrast with psychosocial scores, mean quotients for the children's language and communication ability and their standard scores on the PEACH were well below the range expected for their typically developing same age peers (Leigh et al., 2015). Further, the children's scores for receptive and expressive language ability measured by the CDI and functional communication ability as measured by the PEACH were significantly correlated with both measures of psychosocial development. Regarding the PEACH, children who were rated by caregivers as being better functional communicators tended to score higher on both social development and self-help skills—raising awareness of functional communication abilities as a predictor of psychosocial strengths.

PSYCHOSOCIAL DEVELOPMENT AT 5 YEARS OF AGE

At 5 years of age, data were available for 356 children whose parents completed at least one of the questionnaire-based assessments of their social and emotional development (Wong et al., 2017, Wong et al., 2018). Once again, assessments included the CDI (Social subscale), the Strengths and Difficulties Questionnaire (SDQ; Goodman, 1997), and the PEACH. The SDQ is a 25-item screening measure designed to identify behavioral and emotional problems in children. It comprises five subscales: conduct problems, hyperactivity, emotional symptoms, peer problems, and prosocial behavior. Each subscale consists of 5 items rated by parents on a three-point response scale from 0 = 'not true', to 1 = 'somewhat true', to 2 = 'certainly true'. Scores from the first four subscales are used to create a "total difficulties score," with higher scores indicating greater social or emotional difficulties and potential psychopathology. Higher scores on the prosocial scale indicate psychosocial strengths. Receptive and expressive language abilities at five years were assessed using the Preschool Language Scale—fourth edition (PLS-4; Zimmerman et al., 2002) and non-verbal cognitive ability was measured using the Wechsler Nonverbal Scale of Ability (WNV; Wechsler & Naglieri, 2006).

Scores for each of the measures were converted to Z-scores using the most recently published normative data. To reduce measurement error and random variation across the various subscales, a "global psychosocial score" was created by averaging the Z-scores for the SDQ total difficulties scale, SDQ prosocial scale, and the CDI social skills scale.

In a pattern of results like those at 3 years of age, the analysis of the children's global psychosocial scores at 5 years of age showed that, on average, they were within the range of typically developing children (Z-score = -0.67). Notably, however, once again there was high variability among scores (SD=1.05) and a much higher than expected proportion of children falling more than 2 SDs below the normative mean (i.e., 11.7% versus the 2.5% expected in a normal distribution). Further, in contrast with the results at 3 years of age, scores on the Social Skills scale of the CDI were on average 1.4 SDs below age expectation for typically hearing children at that age (Wong et al., 2017).

To determine the possible predictors of these highly variable outcomes, hierarchical multiple regression analyses were conducted with the global psychosocial score as the dependent variable. The factors that predicted better psychosocial functioning were higher non-verbal cognitive ability, the absence of additional disabilities, language ability, and functional communication skills (i.e., as measured by the PEACH). Regarding the latter two predictors, consistent with the findings at 3 years of age, scores on both the PLS-4 and the PEACH were highly significant predictors of global psychosocial outcomes at 5 years old. Most notably, average PEACH scores showed the strongest effect size on global psychosocial outcomes, suggesting that, even if children develop good structural (i.e., morphosyntactic) language abilities, they may experience social or emotional difficulties if they do not communicate effectively at a functional level. The influence of functional communication abilities on psychosocial functioning was an issue deemed particularly important to address at the 9 years old level of the LOCHI study.

PSYCHOSOCIAL DEVELOPMENT AT 9 YEARS OF AGE

Given the impetus to further investigate the predictive value of functional communication skills for children's psychosocial functioning, the 9 years old stage of the LOCHI study sought to expand the range of

functional communication abilities under consideration, and the range of outcomes measured. Regarding the first issue, it was apparent that functional communication ability includes the ability to be understood by others (i.e., speech intelligibility) and the ability to use language socially to manage relationships with others (i.e., pragmatic language abilities). Not only are these important components of any definition of functional language and communication skills, but they have also been shown by others to be associated with psychosocial functioning (Freeman et al., 2017; Zadman-Zait & Most, 2020). Studies that address the potential for relationship between functional communication ability and QOL, however, are less common. Therefore, the 9 years of age interval of the LOCHI study took the opportunity to consider the relationship of functional language use (including both speech intelligibility and pragmatic abilities) to both psychosocial functioning and QOL while controlling for the influence of structural language abilities (Ching et al., 2021).

At the 9 years of age interval there were 144 children for whom data points were available for each of the following predictor and dependent variables:

Predictors

- Structural language ability: Clinical Evaluation of Language Fundamentals—4th Edition (CELF-4; Semmel et al., 2003)
- Nonverbal cognitive ability: Wechsler Nonverbal Scale of Ability (WNV; Wechsler & Naglieri, 2006)
- Pragmatic use of spoken language: Children's Communication Checklist—Second Edition (CCC-2; Bishop, 2003).
- Auditory functional performance: Parents' Evaluation of Aural/Oral Performance of Children (PEACH; Ching & Hill, 2007).
- Speech intelligibility: Speech Intelligibility Rating scale (SIR; Allen et al., 2001).
- Degree of hearing loss.
- Age at intervention (age at first hearing aid fitting).

Dependent Variables

- Behaviour and emotion (psychosocial functioning): Strengths and Difficulties Questionnaire (SDQ, Goodman, 1997)
- Health-related quality of life (HRQOL): Pediatric Quality of Life

Inventory version 4.0 (PedsQL 4.0; Varni et al., 2001). This inventory comprises 23 items from four domains: physical functioning, emotional functioning, social functioning, and school functioning. Each item is rated on a 5-point Likert scale, from 0 (never a problem) to 4 (almost always a problem). Z-scores were computed for the mean scores for each scale and the total score using published norms (Varni et al., 2003).

As occurred at both the 3- and 5-year age points, the children's mean scores for the SDQ—both the total scale and all subscales—were within the normal range. However, as before, a much larger than expected proportion of children had scores that were clinically significant for psychosocial difficulties. Indeed, 4.9% had total difficulties scores more than two SDs below the mean, in contrast with the normative population where just 2.3% would be expected to fall in that range. Similarly, for the PedsQL, 6.9% of children had total scores that were more than two standard deviations below the normative expectation.

Relationships Among Measures

As expected from previous research findings, better structural language skills were correlated with better psychosocial skills, less behavioral difficulties, and better QOL. There were also significant positive correlations between pragmatic language skills and all subscale and total scores on the PedsQL and SDQ (Ching et al., 2021). Hierarchical multiple regression analyses—accounting for the effects of other variables—provided a much clearer understanding of the contributory significance of the various predictors. Table 1 shows the results of multiple regression analyses with the total difficulties, prosocial, and individual subscale scores of the SDQ and the total, psychosocial health, physical health, and individual scale scores on the PedsQL. Functional auditory abilities (PEACH) and pragmatic language abilities (GCC), together with degree of hearing loss and hearing device (i.e., CI vs hearing aid) were significant predictors of total scores for both the SDQ and the PedsQL, accounting for 33.2% of the total variance. Notably, after accounting for the effects of all other variables, neither receptive nor expressive language ability scores were significant predictors of any SDQ scores (i.e., neither total nor any of the subscale scores). For the PedsQL, functional auditory abilities and pragmatic language abilities

INSERT TABLE 1 HERE WHEN MAKING COMPOSITE PDF

were the only significant predictors of total scores, accounting for 24.9% of the total variance.

CONCLUSIONS AND IMPLICATIONS FOR INTERVENTION

The investigations of children's psychosocial functioning at each of the three age intervals in the LOCHI study reviewed here have consistently suggested a relationship between language and communication abilities and the children's abilities in the psychosocial domain (Ching et al., 2021; Leigh, et al., 2015; Wong et al., 2017; Wong et al., 2018). Recalling that the genesis of the LOCHI study lay in the question of whether developmental outcomes for DHH children are improved by earlier identification and intervention, it warrants attention that no such relationship was evident for psychosocial development in the analyses that have been reviewed in this paper. What is clear, however, is that language and communication development is affected by the age at which intervention is commenced. Ching et al. (2017) described how, at the 5 year age interval, children whose intervention commenced at 3 months had significantly better language skills than those whose intervention commenced at 12 or 24 months with the effect size increasing with the severity of hearing loss—particularly for children receiving CIs. Indeed, on average, children who received their first CI at age 24 months had average scores for language ability that were 21.4 standard score points (i.e., 1.4 standard deviations) below the average score for children who received their first CI at 6 months. Given the relationships between language abilities and psychosocial abilities, it is apparent therefore that, indirectly through improved language skills, earlier intervention does affect psychosocial development and quality of life.

What has been made clearer by the findings reported across the age intervals of the LOCHI study is the importance of functional language and communication skills in predicting psychosocial abilities and difficulties. At each of the 3-, 5- and 9 year age intervals, functional communication skills, as evidenced in children's scores on the PEACH, showed a significant positive association with psychosocial skills, and ultimately quality of life. Further, pragmatic language skills—an important indicator of functional language ability—were also shown to account for significant positive variance in children's psychosocial skills.

However, even though structural language abilities (i.e., morpho-syntactic skills, vocabulary) are foundational to the development of good functional language abilities, the relationship between the latter and children's psychosocial development has proved to be particularly robust. Indeed, at the 9 year age interval, structural language abilities were not significant predictors of SDQ or QOL scores after allowing for the effects of functional auditory performance and pragmatic language abilities.

The findings summarized in this review bear close attention in the determination of strategies for intervention into children's language and communication development. They suggest several critical considerations for early intervention and ongoing educational endeavors with children who are DHH, including: (a) ensuring the assessment of children's language and communication skills (especially their functional communication abilities) from the earliest possible age; (b) ensuring the use of evidence-based strategies to develop and/or to remediate delays or difficulties in both structural and functional language abilities; and (c) ensuring that appropriate assessment strategies are in place to identify children at risk of significant psychosocial or psychological difficulties so that timely referral for specialist intervention can be made to ameliorate that risk.

ACKNOWLEDGMENTS

We thank the children and their families for participation in the LOCHI study and acknowledge the contributions of Patricia Van Buynder, Laura Button, Christopher Flynn, Louise Martin, Vicky Zhang, Sanna Hou, Vivienne Marnane, Jessica Whitfield, Miriam Gunnourie, Lauren Burns, and Karen McGhie in recruitment and data collection, and Cara Wong in data analysis. We acknowledge the support of the early intervention programs, schools, and CI clinics that provided services to the children and the administrative and infrastructure support provided by the National Acoustic Laboratories and Hearing Australia.

FUNDING

This research was partly supported by the National Institute on Deafness and Other Communication Disorders of the National Institutes

of Health (NIDCD/NIH) under Award R01DC008080. The content is the responsibility of the authors and does not necessarily represent the official views of the Institute or the NIH. The project was also partly supported by the Commonwealth of Australia through the Office of Hearing Services and the HEARing Cooperative Research Centre.

REFERENCES

Allen, C., Nikolopoulos, T. P., Dyar, D., & O'Donoghue, G. M. (2001). Reliability of a rating scale for measuring speech intelligibility after pediatric cochlear implantation. *Otology and Neurotology, 22*, 631–633. https://doi.org/10.1097/00129492-200109000-00012

Bishop, D.V. (2003). *The Children's Communication Checklist: Volume 2*. London: Psychological Corporation London.

Castellanos, I., Kronenberger, W. G., & Pisoni, D. B. (2018). Psychosocial outcomes in long-term cochlear implant users. *Ear and Hearing, 39*(3), 527–539.
https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000000504

Ching, T. Y. C., Cupples, L., Leigh, G., Hou, S., & Wong, A. (2021). Predicting quality of life and behavior and emotion from functional auditory and pragmatic language abilities in 9-year-old deaf and hard-of-hearing children. *Journal of Clinical Medicine,10*(22), 5357.
https://doi.org/10.3390/jcm10225357

Ching, T. Y. C., Dillon, H., Button, L., Seeto, M., Van Buynder, P., Marnane, V., Cupples, L., & Leigh, G. (2017). Age at intervention for permanent hearing loss and 5-year language outcomes. *Pediatrics, 140*(3), e20164274. https://doi.org/10.1542/peds.2016-4274

Ching, T. Y., Leigh, G., & Dillon, H. (2013). Introduction to the Longitudinal Outcomes of Children with Hearing Impairment (LOCHI) study: Background, design, sample characteristics. *International Journal of Audiology, 52*(S2), S4–S9.
https://doi.org/10.3109/14992027.2013.866342

Ching, T. Y., & Hill, M. (2007). The Parents' Evaluation of Aural/Oral Performance of Children (PEACH) scale: Normative data. *Journal of the American Academy of Audiology, 18*, 220–235.
https://doi.org/10.3766/jaaa.18.3.4

Fellinger, J., Holzinger, D., Sattel, H., Laucht, M., & Goldberg, D. (2009). Correlates of mental health disorders among children with

hearing impairments. *Developmental Medicine and Child Neurology, 51*(8), 635–641. https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2008.03218.x

Freeman, V., Pisoni, D. B., Kronenberger, W. G., & Castellanos, I. (2017). Speech intelligibility and psychosocial functioning in deaf children and teens with cochlear implants. *Journal of Deaf Studies and Deaf Education, 22*, 278–289. https://doi.org/10.1093/deafed/enx001

Goodman, R. (1997). The Strengths and Difficulties Questionnaire. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, 38*(5), 581–586. https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.1997.tb01545.x

Hindley, P. A., Hill, P. D., McGuigan, S., & Kitson, N. (1994). Psychiatric disorder in deaf and hearing-impaired children and young people: A prevalence study. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, 35*(5), 917-34. https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.1994.tb02302.x

Ireton, H. (2005). *Child Development Inventory*. Minneapolis, MN: Child Development Review.

Kennedy, C. R., McCann, D. C., Campbell, M. J., Law, C. M., Mullee, M., Petrou, S., Watkin, P., Worsfold, S., Yuen, H. M., & Stevenson, J. (2006). Language ability after early detection of permanent childhood hearing impairment. *New England Journal of Medicine, 354*, 2131–2141. https://doi.org/10.1056/NEJMoa054915

Korver, A. M., Konings, S., Dekker, F. W., Beers, M., Wever, C. C., Frijns, J. H., Oudesluys-Murphy, A. M., & DECIBEL Collaborative Study Group. (2010). Newborn hearing screening vs. later hearing screening and developmental outcomes in children with permanent childhood hearing impairment. *Journal of the American Medical Association, 304*, 1701–1708. https://doi.org/10.1001/jama.2010.1501

Leigh, G. (2006). UNHS in Australia: We've come a long way! *Audiology Now, 27*, 49–51.

Leigh, G., Ching, T. Y., Crowe, K., Cupples, L., Marnane, V., & Seeto, M. (2015). Factors affecting psychosocial and motor development in 3-year-old children who are deaf or hard of hearing. *Journal of Deaf Studies and Deaf Education, 20*(4), 331–342. https://doi.org/10.1093/deafed/env028

Moeller, M. P. (2000). Early intervention and language development in children who are deaf and hard of hearing. *Pediatrics, 106*, 1–9. https://doi.org/10.1542/peds.106.3.e43

Nelson, H. D., Bougatsos, C., & Nygren P. (2008). Universal newborn hearing screening: Systematic review to update the 2001 US Preventive

Services Task Force recommendation. *Pediatrics, 122*, e266–276. https://doi.org/10.1542/peds.2007-1422

Overgaard, K. R., Oerbeck, B., Wagner, K., Friis, S., Ohre, B., & Zeiner, P. (2021). Youth with hearing loss: Emotional and behavioral problems and quality of life. *International Journal of Pediatric. Otorhinolaryngology, 145*, 110718. https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2021.110718

Semel, E., Wiig, E. H., Secord, W. (2003). *Clinical Evaluation of Language Fundamentals, 4th ed.; Australian Standardised Edition (CELF-4 Australian)*. Marrickville, Australia: Harcourt Assessment.

Stika, C. J., Eisenberg, L. S., Carter, A.S.; Johnson, K. C.; Hammes Ganguly, D. M., Henning, S. C., & DesJardin, J. L. (2021). Developmental outcomes in early-identified children who are hard of hearing at 2 to 3 years of age. *Ear and Hearing, 42*(5), 1238–1252. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000001012

Theunissen, S., Rieffe, C., Kouwenberg, M., De Raeve, L., Soede, W., Briaire, J. J., & Frijns, J. H. (2012). Anxiety in children with hearing aids or cochlear implants compared to normally hearing controls. *The Laryngoscope, 122*(3), 654–659. https://doi.org/10.1002/lary.22502

Theunissen, S., Rieffe, C., Kouwenberg, M., De Raeve, L. J., Soede, W., Briaire, J. J., & Frijns, J. H. (2014a). Behavioral problems in school-aged hearing-impaired children: The influence of sociodemographic, linguistic, and medical factors. *European Child and Adolescent Psychiatry, 23*(4), 187–196. https://doi.org/10.1007/s00787-013-0444-4

Theunissen, S., Rieffe, C., Netten, A. P., Briaire, J. J., Soede, W., Schoones, J. W., & Frijns, J. H. (2014b). Psychopathology and its risk and protective factors in hearing-impaired children and adolescents: A systematic review. *JAMA Pediatrics, 168*(2), 170–177. https://doi.org/10.1001/jamapediatrics.2013.3974

Varni, J. W., Seid, M., & Kurtin, P. S. (2001). PedsQL 4.0: Reliability and validity of the Pediatric Quality of Life Inventory version 4.0 generic core scales in healthy and patient populations. *Medical Care, 39*(8), 800–812. https://doi.org/10.1097/00005650-200108000-00006

Varni, J. W., Burwinkle, T.M., Seid, M., & Skarr, D. (2003). The PedsQL 4.0 as a pediatric population health measure: feasibility, reliability, and validity. *Ambulatory Pediatrics, 3*, 329-341. https://doi.org/10.1367/1539-4409(2003)003<0329:TPAAPP>2.0.CO;2

Wechsler, D., & Naglieri, J. (2006). *Wechsler Nonverbal Scale of Ability*. San Antonio, TX: Harcourt Assessment. https://doi.org/10.1037/t15176-000

Wong, C. L., Ching, T. Y. C., Cupples, L., Button, L., Leigh, G., Marnane, V., Whitfield, J., Gunnourie, M., & Martin, L. (2017). Psychosocial development in 5-year-old children with hearing loss using hearing aids or cochlear implants. *Trends in Hearing, 21*, 1–19. https://doi.org/10.1177/2331216517710373

Wong, C. L., Ching, T. Y., Leigh, G., Cupples, L., Button, L., Marnane, V., Whitfield, J., Gunnourie, M., & Martin, L. (2018). Psychosocial development of 5-year-old children with hearing loss: Risks and protective factors. *International Journal of Audiology, 57*(SUP2), S81–S92. https://doi.org/10.1080/14992027.2016.1211764

Yoshinaga-Itano, C., Sedey, A. L., Coulter, D. K. & Mehl, A. L. (1998). Language of early- and later-identified children with hearing loss. *Pediatrics, 102*, 161–1171. https://doi.org/10.1542/peds.102.5.1161

Zaidman-Zait, A., & Most, T. (2020). Pragmatics and peer relationships among deaf, hard of hearing, and hearing adolescents. *Pediatrics, 146*, S298–S303. https://doi.org/10.1542/peds.2020-0242J

Zimmerman, I. L., Steiner, V. G., & Pond, R. E. (2002). *Preschool language scale (vol. 3)*. San Antonio, TX: Psychological Corporation.

LET'S PLAY AND TALK: LINKING CHILDREN'S LANGUAGE AND PRETEND PLAY ABILITIES

By Louise Paatsch, Ph.D., Andrea Nolan, Ph.D., Natalie Robertson, Ph.D.
Deakin University School of Education, Faculty of Arts & Education

Play, while complex, is essential for children's learning and development. It is well established in the literature that there is a strong link between children's pretend play abilities and their language skills, particularly in relation to the use of language in social contexts. For many children who are deaf and hard of hearing (DHH), pretend play and language skills are often delayed, highlighting the important role of adults in supporting these skills. For many educators working with young DHH children, the focus is often centred on supporting communication and language, and less on play. We argue that play provides a rich and authentic context for supporting both language and pretend play abilities, with many educators requiring professional development to build knowledge and to implement a play-based approach to support children's language and pretend play. This paper outlines the key characteristics of pretend play and highlights the relationship between pretend play and language. Findings from several recent research studies are presented including the outcomes from a qualitative study that implemented a professional learning program that supported educators to implement a play-based approach to foster young DHH children's play and language abilities.

SPOKEN LANGUAGE ABILITIES IN CHILDREN WHO ARE DEAF AND HARD OF HEARING

Language is a complex system of symbols that are socially and culturally shared to help us convey our ideas, thoughts, needs, and desires with others in our world (Paatsch & Nolan, 2020). Language is developed through a multifaceted, dynamic process involving the mastery of the rules for combining these symbols in both the expressive and receptive forms (Creaghe, 2020; Paatsch et al., 2023, Pruden et al., 2006). Children learn language when they are exposed to frequent, rich, meaningful, and socially interactive environments, supported by more sophisticated language users such as caregivers and teachers (Beiting et

al., 2022). Strong language abilities, particularly the use of language in social contexts (known as pragmatics), are key to successful social interactions. Pragmatics play a critical role in a child's ability to take part in social settings such as home, preschool, school, and the wider community (Paul et al., 2020), and includes skills such as turn-taking, use of eye-gaze, taking the perspective of others, and the ability to be contingent on the contributions made by others in the interaction. Together, these pragmatic skills involve the complex interplay of cognitive abilities, language skills, and social awareness (Toe et al., 2019). Therefore, it is not surprising that language outcomes are strongly linked to academic success and social and emotional abilities, and have been reported to be the best predictor of school readiness and later school success (Hirsh-Pasek et al., 2015; Levine et al., 2016).

Research has shown that many children who are deaf and hard of hearing (DHH) are at risk of language delays despite early identification of hearing loss, early intervention, and greater access to spoken language through more advanced hearing technologies such as cochlear implants and hearing aids (Paatsch & Toe, 2020; Paul et al., 2020). In particular, many DHH children who use Listening and Spoken Language as their main mode of communication have delayed pragmatic skills compared with their peers who have typical hearing, and experience fewer opportunities for interaction with a wide variety of conversational partners. For example, parental ratings of the conversational skills of typical hearing and DHH children aged 12-36 months showed that on average, DHH children were greater than two standard deviations below the ratings for typical hearing children, with fewer than one-third who were within the normal range (Nicholas, 2000). Research exploring primary school-aged DHH children has also shown that their pragmatic skills often differ from those of age-matched typical hearing peers (Church et al., 2017; Paatsch et al., 2017; Paul et al., 2020). Findings from these studies showed that some DHH children were able to take-turns, request for clarification, initiate topics, and answer questions, but did not extend topics, repair conversations when there was a breakdown, or provide responses that were contingent on their conversational partner's contributions. Such findings suggest that many of these pragmatic language delays can create social challenges for many DHH children in forming friendships with peers and participating in classroom activities.

Researchers advocate for the need to provide young DHH children with abundant, rich and authentic opportunities to engage in meaningful interactions with a variety of conversational partners throughout everyday activities (Paatsch et al., 2017; Paatsch & Toe, 2020). Such opportunities provide rich environments for DHH children to collaborate with others, take turns, understand and use appropriate verbal and non-verbal cues necessary for language development, take the perspective of another person, acknowledge the contributions of others during interactions, and provide feedback to their conversational partners. We argue that a critical and naturally occurring context for supporting DHH children's language abilities is through play, particularly pretend play.

PRETEND PLAY

Defining play, while difficult and complex, has resulted in much debate and interest amongst researchers, philosophers, teachers, policymakers, and parents for centuries. However, despite the challenge of accepting one universal definition, there is growing consensus that play is an activity that is intrinsically motivated, fun, social, involves joyful discovery, and is critical for children's learning and development (Yogman et al., 2018; Zosh et al., 2018). Vygotsky (1967) theorizes that it is through play that children learn to use their imagination, to create, to experiment, and to discover, particularly when they play with others more competent at those skills. It is through play that children engage in social interactions where a zone of proximal development (ZPD) is created—the difference between children's current level of independent performance and the level where they can learn when supported by more competent peers and adults.

Yogman and colleagues (2018) reported that "play is not frivolous: it enhances brain structure and function and promotes executive function (i.e., the process of learning), which allows us to pursue goals and ignore distractions" (p. 1). There are many different types of play that children can engage in, including construction play (e.g., building a spaceship with blocks), physical or gross motor play (e.g., climbing, running), visual-perceptual play, games with rules (e.g., chasey), and pretend play (e.g., use of symbols in the play). Pretend play, also known as symbolic, imaginative, and social play, refers to "the non-literal use of objects, action or attributes…that appears to develop on a relatively fixed schedule and is present in every culture" (Creaghe et al., 2021, p. 981). Pretend play

involves many distinctive behaviours including: (1) object substitution, where children use an object for something else [e.g., a stick for a person; a block for a computer]; (2) role play, where children may enact the role of a character in play [e.g., person or animal]; (3) play sequences, where children plan a series of actions in their play that become more complex over time; (4) play scripts, where children develop stories with single or multiple problems and resolutions that may commence with reflecting what children do (e.g., pretending to have a drink) then move to more complex stories; and (5) characters in play, where children use dolls and figurines to impose emotions and show an understanding of mental states of others (Elkonin, 2005; Robertson et al., 2020; Stagnitti & Paatsch, 2018). Together these pretend play skills involve higher-order thinking, creativity, imagination, theory of mind, self-regulation, self-awareness, and problem-solving—all skills critical for learning 21st century skills (Yogman et al., 2018). Furthermore, pretend play creates a sense of safety, which reduces stress and anxiety and prepares children for learning (Hirsch-Pasek, 2024; Paatsch et al., 2023).

LINK BETWEEN PRETEND PLAY AND LANGUAGE

There is a substantial body of research that has shown a strong link between pretend play and language acquisition, leading to later literacy development, including understanding and use of narrative language (Creaghe et al., 2021; Lillard et al., 2013). Both language and play, particularly pretend play, share many conceptual similarities including the understanding and use of complex symbols and the reliance on communication within social contexts (Creaghe & Kidd, 2022; Quinn et al., 2018). In addition, both activities depend on the support and scaffolding by competent language users and players (Creaghe & Kidd, 2022; Creaghe et al., 2021; Paatsch et al., 2023; Quinn et al., 2018).

In a recent study by Stagnitti and colleagues (2020) the relationship between children's pretend play abilities and their spoken language skills were investigated in 30 typically hearing children at the commencement of their first year of formal schooling. Results showed that children who were able to substitute objects for something else, particularly those who could use many objects to create a new object or use any object for anything in their play, predicted these children's overall receptive and expressive language abilities. Similar links between pretend play and broad language skills were also reported in a study by

Kizildere et al. (2020) who found that pretend play skills of 119 preschool children at 4 years of age predicted their receptive language skills at 5 years of age. Further research with children with typical hearing has also shown the strong link between pretend play and specific language skills such as semantic development, including vocabulary, semantic problem solving, use of mental state words (Creaghe et al., 2021 Melzer & Palermo, 2016); syntax, including grammatical knowledge (Creaghe et al., 2021; Stagnitti et al., 2016); and pragmatic development, including narrative development, turn-taking, and social interaction (Creaghe et al., 2021; Fekonja et al., 2005; Holmes et al., 2022).

Similar relationships between pretend play and language abilities in DHH children have also been reported. Spencer (1996) investigated the association between pretend (symbolic) play and expressive language in three groups of 2 year olds: (1) deaf children with typical hearing parents; (2) deaf children with deaf parents; and (3) typical hearing children with typical hearing parents. Results showed a consistent pattern of association between language levels and symbolic play but not between play and hearing status, confirming the strong link between expressive language and play. Brown and colleagues (2001) investigated the relationship between pretend play and word production in 10 typical hearing and 10 DHH children at 28, 29, and 30 months of age. Results showed an association between word production and levels of pretend play for both groups, with lower levels of language and play skills evident in the group of DHH children. Similar reports of delayed pretend play and word learning were reported in a later study by Quittner et al. (2016). Specifically, children with cochlear implants who received implants after the age of 2 years were delayed in their achievement of pretend play and novel noun learning when compared to their age-matched typical hearing peers. In a recent study by Da Silva et al. (2022) investigating 12 DHH preschool children's social interactions during recess time, results showed that these children spend less time in social interactions compared to their typical hearing peers. Specifically, these children avoided pretend play and showed a high prevalence of onlooking during recess time, suggesting they may experience social isolation and challenges with forming friendships. This link between social-cognitive development, the social use of language, and pretend play abilities was also compared in a group of 82 DHH children and 91 typical hearing peers, aged between 3 and 8 years (Sidera et al., 2019).

Results showed that the group of DHH children had difficulties in understanding pretend emotions, which was strongly related to their pragmatics and expressive vocabulary skills.

Together, these findings highlight the importance of pretend play as a fertile context for supporting young children's language and communicative development, as they engage in rich meaningful interactions with others. However, the implications of these findings emphasize the need for teachers, teachers of the deaf, and allied health professionals to understand the importance of pretend play and the ways in which they can support children to develop play abilities to foster language learning. The following sections present an example of how a tailored professional learning program supported staff at a school for young DHH children to build knowledge, implement a play-based approach, and change practice.

EMBEDDING A PLAY-BASED APPROACH TO SUPPORT YOUNG DHH CHILDREN'S LANGUAGE DEVELOPMENT

Background

This three-year research project, *Teachers Deliberating Practice*, was undertaken by researchers at Deakin University, Australia (Nolan, Paatsch, and Robertson) in collaboration with staff at a school for DHH children aged birth to 7 years old. Specifically, the researchers were approached by the school leadership to support them to embed a play-based approach to teaching and learning in their school as a context for supporting DHH children's communication and language development.

Research Project Aims

This project aimed to establish a research culture within the school that supported knowledge building and led to practice change relating to a play-based approach to teaching and learning. Specifically, the project focussed on supporting teachers, teachers of the deaf, educators, support staff and allied health professionals to build knowledge about pretend play and language, as they embedded a play-based approach across the school. In addition, the project implemented the Participatory Action Research (PAR; Kemmis & McTaggart, 2005) approach in supporting teachers to research their own practice and document any practice changes as a result of implementing a play-based approach.

Context of the Study

The school offers programs for DHH and deafblind children from diagnosis to 7 years old across the state of Victoria, Australia. Programs include early intervention, early education that includes kindergarten and first year of schooling, and an inclusive 3–4-year-old community kindergarten for DHH and typical hearing children. Staff at the school include teachers, educators, teachers of the deaf, support staff, and allied health professionals including speech-language pathologists, social workers, and physiotherapists.

The Program

The research project consisted of three phases: (1) understanding and building knowledge; (2) researching practice; and (3) building capacity for a sustainable program.

The first phase focused on building staff knowledge in the areas of play and language. Specifically, the first workshop with 60 staff included content knowledge building about the types and principles of play, with a focus on pretend play, the link between play and learning, the components of language, and the interaction between language and play. The second workshop involved building staff knowledge on their role in supporting children's play and language, reflecting on their own talk patterns that facilitate language learning, and the principles of implementing a play-based approach.

Phase two of the research project involved 30 staff participating in three online workshops and two full-day, face-to-face workshops. The aims of this phase were to introduce the staff to assessment of play and the four-step process of PAR (Observe, Reflect, Plan, and Act), as well as to work with them to design a research project around a case study child in their class. This included developing a research question to explore their own practice in supporting children's language with a play-based approach. Exploration included undertaking assessments, videoing their practices, collecting evidence, reflecting, and planning for implementation. Staff completed three cycles of the four-step process of PAR as part of their own research project. At the conclusion of the third cycle, staff participated in a 'Showcase of Practice' where each staff member presented their findings from their PAR to the rest of the staff.

Phase three of the project included four full-day, face-to-face workshops at the school to build capacity for sustainability of the

program for the future. The staff and researchers developed a working document that embedded the content and resources that were introduced and developed during the first two phases. Specifically, this involved co-developing a 'Play and Practice: Connecting play and language' document for the school that included research-evidence and teacher planning and assessment documents specific to play and language, as well as ways to support a play-based approach in the school. Further sections of the document included key considerations for implementing PAR, and ways of working with colleagues within a transdisciplinary practice approach.

The Outcomes

Throughout the three phases of the research project, staff constantly discussed their deepening understandings of play and language. At the end of Phase two, staff were invited to complete an online survey to share their learnings as a result of the project. Overall results showed that while "there's a lot to learn from all these workshops", staff had gained a better understanding of the ways in which young DHH children's play and language abilities can be supported through a play-based approach. In particular, staff noted that "play is an integral part of developing communication skills" and that "play opportunities are everywhere". Staff also reported on the many features of Phase two that supported their learning including the "new knowledge and putting it into practice", "the analysis process of videos and refining the research question", "having time to view videos, discuss and plan with colleagues", and "that the action research cycle allows me to reflect critically on my practice and then implement a plan that is specific to my students".

Staff also commented on the value of the "Showcase of Practice". One staff member commented that they "enjoyed hearing the perspective of my peers as to what play looks like in their individual spaces and how ongoing reflection is key to improving our programs and supporting our students." Other staff commented on how the presentations "helped to articulate our understandings", "to consolidate the learning", and to "see the students' growth in play and language", while others reported that listening to colleagues was "amazing" as "we learnt a lot" from "different perspectives".

Staff were also invited to reflect on the differences they made to their practice during participation in Phase 2. Staff saw the importance of setting up an authentic play environment to encourage children to use

language with their peers and teachers, and the need to "add play as part of their goals, not just language". Some also changed their practices to be more involved with the children. As one staff member reported, "I was more reflective about what was going on, what role I was playing, and how I could shift this to challenge the child." Another teacher commented:

> "My level of involvement in my student's play needed to increase as I discovered from watching the videos of her play, that she needed more modelling on how to extend her play from the few repetitive actions she knew for a given scenario. So instead of just setting up experiences for her to play with her peers, I would join her in play and model."

CONCLUSION

This paper has presented research relating to the key characteristics of pretend play and the relationship between pretend play and language. The findings from research have also shown that many DHH children are often delayed in their pretend play and language skills, with many researchers highlighting the need to provide professional development for those who work with these children in supporting these skills. The current research project outlined in this paper has highlighted one example of how researchers and staff in one school in Victoria, Australia, worked together to build knowledge in play and language and to implement this new knowledge into practice. Educators, teachers of the deaf, education support staff, and allied health professionals valued working across transdisciplinary teams to build their understandings, to change current practice, and to develop a sustainable program for all staff working in the school. These staff can make a difference to children's learning by taking time to build knowledge of children's pretend play abilities, the ways in which a play-based approach provides a rich context for language learning, and to reflect on their own practices from an evidence-informed perspective. However, further research is warranted to investigate the specific pretend play and language outcomes for DHH children and the relationship between these outcomes and teachers' practice when implementing a play-based approach.

REFERENCES

Beiting, M., Alper, R. M., Luo, R., & Hirsh-Pasek, K. (2022). Keep the ball rolling: Sustained multiturn conversational episodes are associated with child language ability. *American Journal of Speech-Language Pathology, 31*(5), 2186-2194. https://doi.org/10.1044/2022_AJSLP-21-00333

Brown, P. M., Rickards, F. W., & Bortoli, A. (2001). Structures underpinning pretend play and word production in young hearing children and children with hearing loss. *Journal of deaf studies and deaf education, 6*(1), 15-31. https://doi.org/10.1093/deafed/6.1.15

Church, A., Paatsch, L., & Toe, D. (2017). Some trouble with repair: Conversations between children with cochlear implants and hearing peers. *Discourse studies, 19*(1), 49-68. https://doi.org/10.1177/1461445616683592

Creaghe, N. V. (2020). Symbolic play and language acquisition: The dynamics of infant-caretaker communication during symbolic play (Doctoral dissertation, The Australian National University (Australia)).

Creaghe, N., & Kidd, E. (2022). Symbolic play as a zone of proximal development: An analysis of informational exchange. *Social Development, 31*(4), 1138-1156. https://doi.org/10.1111/sode.12592

Creaghe, N., Quinn, S., & Kidd, E. (2021). Symbolic play provides a fertile context for language development. *Infancy, 26*(6), 980-1010. https://doi.org/10.1111/infa.12422

Da Silva, B. M., Rieffe, C., Frijns, J. H., Sousa, H., Monteiro, L., & Veiga, G. (2022). Being deaf in mainstream schools: The effect of a hearing loss in children's playground behaviors. *Children, 9*(7), 1091. https://doi.org/10.3390/children9071091

Elkonin, D. B. (2005). The psychology of play. *Journal of Russian & East European Psychology, 43*(1), 11-21. https://doi.org/10.1080/10610405.2005.11059245

Fekonja, U., Umek, L. M., & Kranjc, S. (2005). Free play and other daily preschool activities as a context for child's language development. *Studia psychologica, 47*(2), 103.

Hirsh-Pasek, K., Adamson, L. B., Bakeman, R., Owen, M. T., Golinkoff, R. M., Pace, A., ... & Suma, K. (2015). The contribution of early communication quality to low-income children's language success. *Psychological science, 26*(7), 1071-1083. https://doi.org/10.1177/0956797615581493

Hirsh-Pasek, K., Winthrop, R. & Shah, S., (2024). *Why play is serious work*, Brookings Institution. United States of America. Retrieved from https://policycommons.net/artifacts/12292262/why-play-is-serious-work/13186333/ on 14 May 2024. CID: 20.500.12592/mkkwpn5.

Holmes, R. M., Kohm, K., Genise, S., Koolidge, L., Mendelson, D., Romeo, L., & Bant, C. (2022). Is there a connection between children's language skills, creativity, and play? *Early Child Development and Care, 192*(8), 1178-1189. https://doi.org/10.1080/03004430.2020.1853115

Kemmis, S., & McTaggart, R. (2005). Participatory action research: Communicative action and the public sphere. In N. K. Denzin & Y. S. Lincoln (Eds.), *The Sage handbook of qualitative research* (pp. 559–603). Sage Publications Ltd.

Kızıldere, E., Aktan-Erciyes, A., Tahiroğlu, D., & Göksun, T. (2020). A multidimensional investigation of pretend play and language competence: Concurrent and longitudinal relations in preschoolers. *Cognitive Development, 54*, 100870. https://doi.org/10.1016/j.cogdev.2020.100870

Levine, D., Strother-Garcia, K., Golinkoff, R. M., & Hirsh-Pasek, K. (2016). Language development in the first year of life: What deaf children might be missing before cochlear implantation. *Otology & Neurotology, 37*(2), e56-e62. https://doi.org/10.1097/MAO.0000000000000908

Lillard, A. S., Lerner, M. D., Hopkins, E. J., Dore, R. A., Smith, E. D., & Palmquist, C. M. (2013). The impact of pretend play on children's development: A review of the evidence. *Psychological Bulletin, 139*(1), 1. https://doi.org/10.1037/a0029321

Melzer, D. K., & Palermo, C. A. (2016). 'Mommy, You are the Princess and I am the Queen': How preschool children's initiation and language use during pretend play relate to complexity. *Infant and Child Development, 25*(2), 221-230. https://doi.org/10.1002/icd.1927

Nicholas J. G. (2000). Age differences in the use of informative/heuristic communicative functions in young children with and without hearing loss who are learning spoken language. *Journal of Speech, Language and Hearing Research, 43*(2): 380–394. https://doi.org/10.1044/jslhr.4302.380

Paatsch, L., Toe, D., & Church, A. (2017). Hearing loss and cochlear implantation. *Research in Clinical Pragmatics*, 411-439. https://doi.org/10.1007/978-3-319-47489-2_16

Paatsch, L., & Nolan, A. (2020). Supporting oral language learning in young children. In A. Kilderry & B. Raban (Eds.). *Strong Foundations: Evidence informing practice in early childhood education and care* (pp.156-169). ACER Press.
https://doi.org/10.37517/978-1-74286-555-3_11

Paatsch, L., Casey, S., Green, A., & Stagnitti, K. (2023). *Learning Through Play in the Primary School: The Why and the How for Teachers and School Leaders*. Taylor & Francis.

Paatsch, L., & Toe, D. (2020). The impact of pragmatic delays for deaf and hard of hearing students in mainstream classrooms. *Pediatrics, 146*(Supplement_3), S292-S297.
https://doi.org/10.1542/peds.2020-0242I

Paul, R., Paatsch, L., Caselli, N., Garberoglio, C. L., Goldin-Meadow, S., & Lederberg, A. (2020). Current research in pragmatic language use among deaf and hard of hearing children. *Pediatrics, 146*(Supplement_3), S237-S245. https://doi.org/10.1542/peds.2020-0242C

Pruden, S. M., Hirsh-Pasek, K., & Golinkoff, R. M. (2006). The social dimension in language development: A rich history and a new frontier. *The Development of Social Engagement: Neurobiological Perspectives*, 118-152. https://doi.org/10.1093/acprof:oso/9780195168716.003.0005

Quinn, S., Donnelly, S., & Kidd, E. (2018). The relationship between symbolic play and language acquisition: A meta-analytic review. *Developmental Review, 49*, 121-135.
https://doi.org/10.1016/j.dr.2018.05.005

Quittner, A. L., Cejas, I., Wang, N. Y., Niparko, J. K., & Barker, D. H. (2016). Symbolic play and novel noun learning in deaf and hearing children: Longitudinal effects of access to sound on early precursors of language. *PloS one, 11*(5), e0155964.
https://doi.org/10.1371/journal.pone.0155964

Robertson, N., Morrissey, A. M., & Moore, D. (2020). From boats to bushes: Environmental elements supportive of children's sociodramatic play outdoors. *Children's Geographies, 18*(2), 234-246.
https://doi.org/10.1080/14733285.2019.1630714

Sidera, F., Morgan, G. & Serrat, E. (2019). Understanding pretend emotions in children who are deaf and hard of hearing. *The Journal of Deaf Studies and Deaf Education, 25*(2), pp. 141-152.
https://doi.org/10.1093/deafed/enz040

Spencer, P. E. (1996). The association between language and symbolic play at two years: Evidence from deaf toddlers. *Child Development, 67*(3), 867-876. https://doi.org/10.2307/1131866

Stagnitti, K., & Paatsch, L. (2018). *The pretend play checklist for teachers.* Learn to Play. www.learntoplayevents.com

Stagnitti, K., Bailey, A., Hudspeth Stevenson, E., Reynolds, E., & Kidd, E. (2016). An investigation into the effect of play-based instruction on the development of play skills and oral language. *Journal of Early Childhood Research, 14*(4), 389-406.

Stagnitti, K. E., Paatsch, L., Nolan, A., & Campbell, K. (2020). Identifying play skills that predict children's language in the beginning of the first year of school. *Early Years*, 1-15. https://doi.org/10.1080/09575146.2020.1865280

Toe, D., Paatsch, L., & Szarkowski, A. (2019). Assessing pragmatic skills using checklists with children who are deaf and hard of hearing: A systematic review. *The Journal of Deaf Studies and Deaf Education, 24*(3), 189-200. https://doi.org/10.1093/deafed/enz004

Vygotsky, L. S. (1967). Play and its role in the mental development of the child. *Soviet Psychology, 5*(3), 6–18. https://doi.org/10.2753/RPO1061-040505036

Yogman, M., Garner, A., Hutchinson, J., Hirsh-Pasek, K., & Golinkoff, R. M. (2018). The power of play: A pediatric role in enhancing development in young children. *Pediatrics, 142*(3). https://doi.org/10.1542/peds.2018-2058

Zosh, J. M., Hirsh-Pasek, K., Hopkins, E. J., Jensen, H., Liu, C., Neale, D., ... & Whitebread, D. (2018). Accessing the inaccessible: Redefining play as a spectrum. *Frontiers in psychology, 9*, 1124.

FUELING SPOKEN LANGUAGE DEVELOPMENT THROUGH AUDITORY ACCESS

By Ryan McCreery, Ph.D.
Boys Town National Research Hospital

Children can only develop spoken language through consistent exposure to the acoustic cues that comprise speech and language. Until recently, hearing levels from the clinical audiogram were the primary measure used to define typical hearing and the presence or degree of a child's hearing loss. While the clinical audiogram remains an important diagnostic measure for audiologists, the degree of hearing loss from the audiogram is an inconsistent indicator of a child's functional hearing capacity, particularly once the child is fitted with hearing aids or cochlear implants. Speech audibility is an estimate of a child's access to the acoustic cues that comprise spoken language and have recently been used to accurately quantify a child's functional hearing levels with and without devices. This article will review the limitations of quantifying auditory access based on the clinical audiogram, as well as approaches for estimating speech audibility for children with hearing loss.

The audiogram is a clinical measure of hearing sensitivity based on a child's behavioral responses to narrowband or pure-tone stimuli across a frequency range that is most important for understanding speech. The audiogram can also be estimated based on neural responses to tone burst or chirp stimuli from the auditory brainstem response or auditory steady-state response in infants or children who cannot complete a behavioral hearing test. The audiogram can be divided into ranges that quantify the amount or degree of hearing loss. Figure 1 shows an audiogram of a child with mild hearing loss in both ears. The audiogram is often used to make a medical diagnosis of hearing loss. However, the audiogram also has some functional limitations, particularly for measuring the impact of hearing loss on communication.

Although the audiogram measures hearing levels related to the discrete sound frequencies that are most important for understanding speech, research has suggested that the degree of hearing loss on the audiogram is not a strong predictor of how well a child with hearing loss

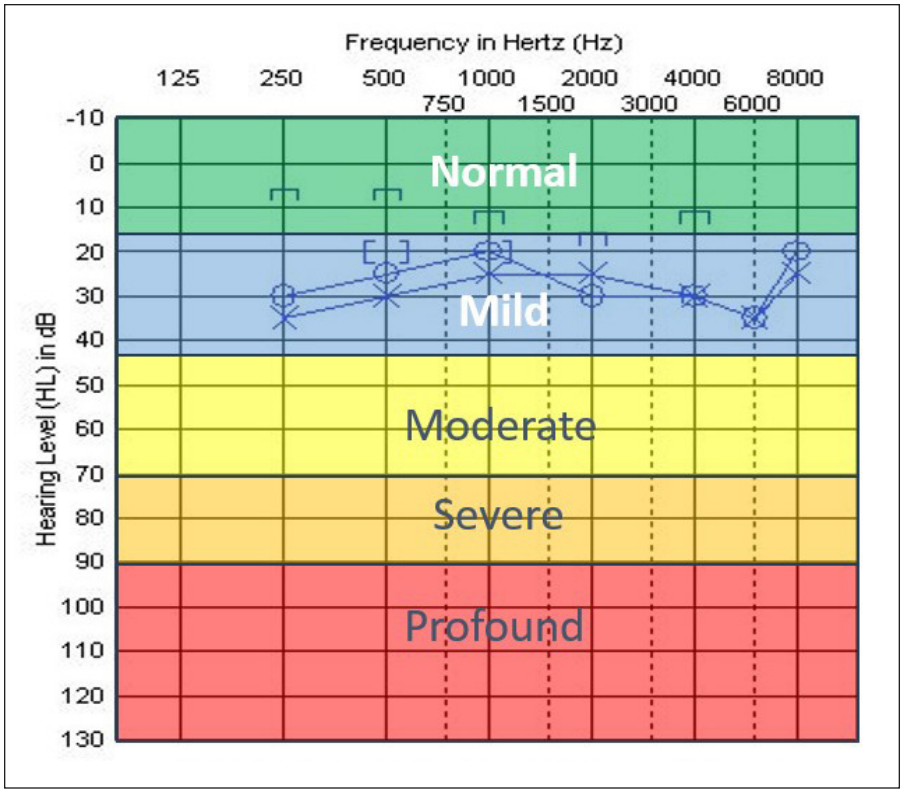

Figure 1. An audiogram for a child with mild hearing loss in both ears. Circles are hearing thresholds for the right ear, and triangles are hearing thresholds for the left ear. Brackets are bone conduction thresholds. Shaded areas represent different degrees of hearing loss: Normal = Green, Mild hearing loss = Blue, Moderate hearing loss = Yellow, Severe hearing loss =Orange, and Profound hearing loss = Red.

will develop spoken language or perform academically in school. Several studies have suggested that children with mild degrees of hearing loss may be at greater risk for delays in spoken language (Walker et al., 2020) and academic challenges (Tomblin et al., 2020) than children with moderate or greater degrees of hearing loss. The intervention that a child with hearing loss receives is much more likely to predict a child's developmental progress than the amount of hearing loss from the audiogram. For example, Walker and colleagues (2015) found that children with mild bilateral hearing loss who received and consistently used hearing aids had stronger language outcomes than children with mild bilateral hearing loss who did not use hearing aids. Likewise,

children with hearing aids that were fitted to optimize their audibility for speech had greater language growth (Tomblin et al., 2015), executive function skills (McCreery & Walker, 2022), and math and reading outcomes (Tomblin et al., 2020) than children with less audibility through their hearing aids. The degree of hearing loss from the audiogram does not reflect these differences in intervention for children with hearing loss.

Based on this research and other studies, our research team has been developing new methods to quantify auditory access that may be more useful metrics for parents and clinicians who support children with hearing loss and are more effective at predicting risk and resilience among children who use hearing aids.

UNAIDED SPEECH AUDIBILITY

Unaided speech audibility is a measure that represents the proportion of speech energy that a child can hear without a hearing aid in a specific listening situation. The most common listening situation that we use to estimate audibility is speech at an average conversational level when the talker is one meter away facing the listener, which is approximately 60 dB SPL. We can use the hearing threshold levels from the audiogram to estimate the proportion of speech at an average conversational level that a child can hear with their hearing thresholds. Figure 2 shows the unaided speech spectrum plotted with the right ear audiogram from the child with mild to moderate hearing loss from Figure 1.

We can measure the amount of the speech spectrum that falls above a child's thresholds by converting the audiogram thresholds to dB SPL to allow direct comparison to speech using a graph called the SPL-o-gram (Figure 2). The SPL-o-gram allows us to visualize how much of the speech signal is audible in the right ear for an average speech signal without a hearing aid (unaided). We can also apply a calculation known as the speech intelligibility index (SII; ANSI S3.5-2007) that numerically quantifies the weighted proportion of the speech spectrum that is audible or above the child's thresholds. In the example in Figure 2, the unaided SII for the right ear is 0.47. This means that for an average conversational level in a quiet listening situation, the child hears approximately 47% of the cues for spoken language. Visually, most of the speech cues that are audible in this example are at frequencies below 2000 Hz. Parents of children with hearing loss are often surprised to learn that mild hearing loss means that less than half of the speech spectrum is audible in quiet.

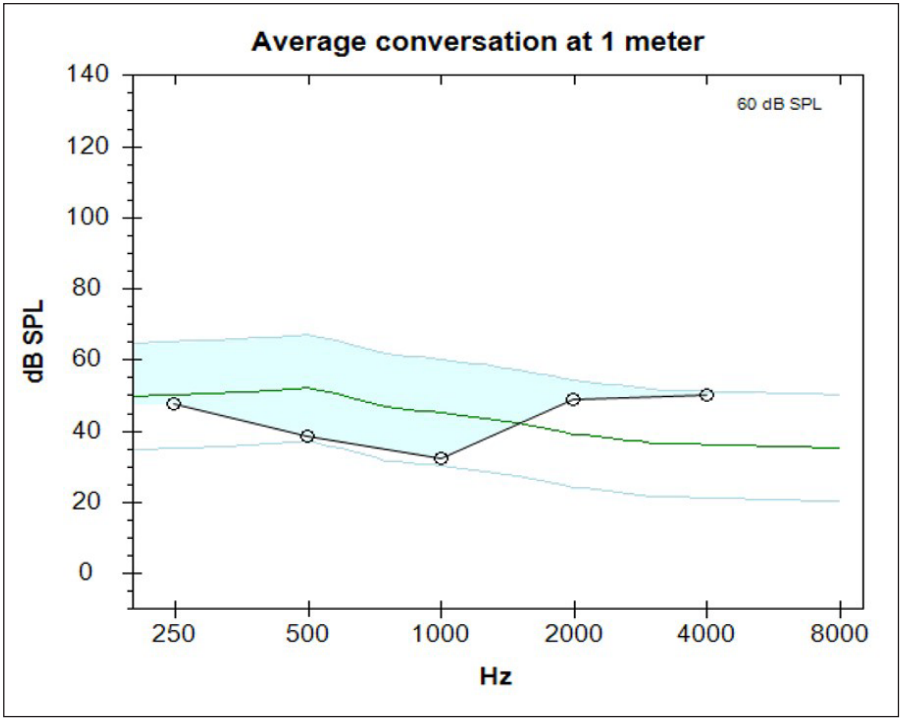

Figure 2. An SPL-o-gram for the right ear of the child with mild hearing loss from Figure 1. Note that the y-axis has typical hearing at the bottom and increasing sound levels as the y-axis increases. The frequencies from the audiogram remain on the x-axis. The circles connect with the solid black line are the hearing thresholds for the right ear converted to dB SPL. The green line represents the average level of speech at 60 dB SPL across frequency, and the blue lines represent the range of speech levels. The blue shaded area represents the portion of the speech spectrum that is audible in the right ear without hearing aids.

A study by Sapp and colleagues (2023) compared the level of parental concern based on traditional descriptive categories of hearing loss (e.g. mild, moderate, severe, and profound) compared to audibility-based descriptions of hearing loss and hearing loss simulations. Parents felt that hearing loss simulations and audibility-based descriptions of hearing loss more accurately conveyed the functional impact of hearing loss than using terms like "mild" to describe the problem. Measures of unaided audibility can be useful counseling tools for parents of children with hearing loss or other professionals who may be involved in the child's medical or educational support.

AIDED SPEECH AUDIBILITY

Audibility can also be calculated with hearing aids based on measurements of the hearing aid output in the child's ear canal or in a coupler with appropriate correction factors, known as aided audibility. Aided audibility is based on the same SII calculation as unaided audibility, but the measures of hearing aid output are compared to the child's hearing thresholds instead of a standard unaided speech spectrum. Figure 3 shows an example of an SPL-o-gram for aided audibilty. In this example, the amplified speech spectrum is compared to the child's thresholds from the left ear on the audiogram. Without amplification, the child can hear 2% of the speech spectrum (unaided SII) and with the hearing aid, the child can hear 73% of the average speech spectrum (aided) based on the SII. As noted above, the aided SII is a useful tool for estimating how much access a child has to speech through their hearing aids. Currently, there is no standardized method for calculating the speech audibility for children who use cochlear implants, as there is no way to directly measure how much of the speech spectrum is accessible through the cochlear implant.

One of the limitations of the aided SII is that the amount of speech audibility that can be restored through a hearing aid decreases as the child's degree of hearing loss increases (McCreery et al., 2013). This means that there is no optimal SII value that can be achieved across children who have varying degrees of hearing loss. The Western Ontario Pediatric Amplification Protocol has published normative values for the aided SII as a function of the degree of hearing loss that are available for clinicians and built into many hearing aid verification systems (Bagatto et al., 2016). A recent study by Wiseman and colleagues (2023) showed that children with hearing loss who use hearing aids who had aided SII less than 50% were at risk of language delays compared to children with typical hearing, even if hearing aids were consistently used. This work suggests that an aided SII in quiet where less than half of the aided speech spectrum is audible may not provide adequate audibility to support spoken language development and may require modifications to the child's intervention, including a more powerful hearing aid or referral for cochlear implant evaluation if greater audibility cannot be achieved through acoustic hearing.

The audiogram is an important measure for diagnosis and quantification of hearing loss. However, the audiogram is known not to reflect

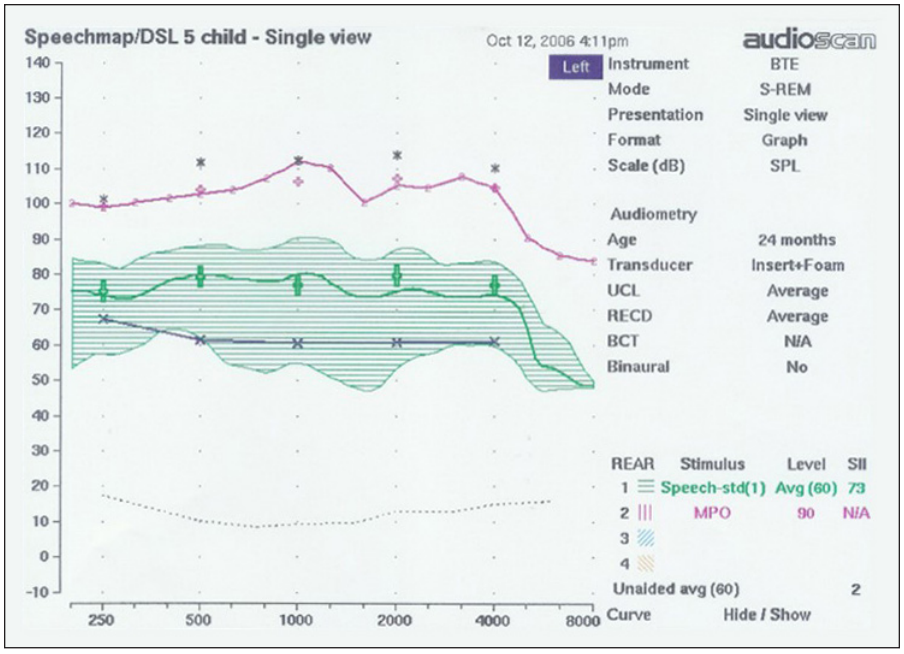

Figure 3. An SPL-o-gram showing aided audibility. The X symbols connected with the blue line represent the child's hearing thresholds from the audiogram in the left ear. The green shaded area is the speech spectrum measured through the child's hearing aid. The aided (73) and unaided (2) SII values for average speech (60 dB SPL) are shown on the bottom right side of the graph.

the functional listening challenges that children with hearing loss experience in their daily lives. Speech audibility, as measured by the SII, is a way to use the audiogram along with either unamplified or amplified speech spectra to estimate the proportion of the speech that will be audible to children in different listening situations. Clinicians can use measurements of audibility to counsel parents and caregivers of children with hearing loss who use hearing aids to help increase understanding of how hearing loss may impact communication. Parents of children with hearing loss can ask their child's audiologist or other care providers about speech audibility to help understand how much hearing aids can support a child's communication access.

REFERENCES

Bagatto, M., Moodie, S., Brown, C., Malandrino, A., Richert, F., Clench, D., & Scollie, S. (2016). Prescribing and verifying hearing aids applying

the American Academy of Audiology Pediatric Amplification Guideline: Protocols and outcomes from the Ontario Infant Hearing Program. *Journal of the American Academy of Audiology, 27*(03), 188-203. https://doi.org/10.3766/jaaa.15051

McCreery, R. W., Bentler, R. A., & Roush, P. A. (2013). Characteristics of hearing aid fittings in infants and young children. *Ear and Hearing, 34*(6), 701-710. https://doi.org/10.1097/AUD.0b013e31828f1033

McCreery, R. W., & Walker, E. A. (2022). Variation in auditory experience affects language and executive function skills in children who are hard of hearing. *Ear and hearing, 43*(2), 347-360. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000001098

Sapp, C., McCreery, R., Holte, L., Oleson, J., & Walker, E. (2023). Descriptions of hearing loss severity differentially influence parental concern about the impact of childhood hearing loss. *Ear and Hearing, 44*(2), 287-299. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000001280

Tomblin, J. B., Harrison, M., Ambrose, S. E., Walker, E. A., Oleson, J. J., & Moeller, M. P. (2015). Language outcomes in young children with mild to severe hearing loss. *Ear and Hearing, 36*, 76S-91S. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000000219

Tomblin, J. B., Oleson, J., Ambrose, S. E., Walker, E. A., McCreery, R. W., & Moeller, M. P. (2020). Aided hearing moderates the academic outcomes of children with mild to severe hearing loss. *Ear and Hearing, 41*(4), 775-789. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000000823

Walker, E. A., Holte, L., McCreery, R. W., Spratford, M., Page, T., & Moeller, M. P. (2015). The influence of hearing aid use on outcomes of children with mild hearing loss. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research, 58*(5), 1611-1625. https://doi.org/10.1044/2015_JSLHR-H-15-0043

Walker, E. A., Sapp, C., Dallapiazza, M., Spratford, M., McCreery, R. W., & Oleson, J. J. (2020). Language and reading outcomes in fourth-grade children with mild hearing loss compared to age-matched hearing peers. *Language, Speech, and Hearing Services in Schools, 51*(1), 17-28. https://doi.org/10.1044/2019_LSHSS-OCHL-19-0015

Wiseman, K. B., McCreery, R. W., & Walker, E. A. (2023). Hearing thresholds, speech recognition, and audibility as indicators for modifying intervention in children with hearing aids. *Ear and Hearing, 44*(4), 787-802. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000001328

CONGENITAL CYTOMEGALOVIRUS (CMV) INFECTION: A COMMON YET OVERLOOKED CAUSE OF HEARING LOSS AND NEURODEVELOPMENTAL DISORDERS

By Ulrika Löfkvist[1-2], Eva Karltorp[2-3], Jessica Dunn[4], Holly Teagle[5], Albert Park[6]

[1] *Department of Public Health and Caring Sciences, Uppsala University, Uppsala, Sweden*
[2] *Department of Clinical Science, Intervention and Technology, Karolinska Institute, Stockholm, Sweden*
[3] *Department of Otorhinolaryngology, Karolinska University Hospital, Stockholm, Sweden*
[4] *Faculty of Medical and Health Sciences, University of Auckland, Auckland, Auckland, New Zealand*
[5] *Department of Pediatrics, University of Calgary and Alberta Health Services, Calgary, Canada*
[6] *Department of Pediatric Otolaryngology, University of Utah, Salt Lake City, USA*

Congenital cytomegalovirus (cCMV) infection is a prevalent yet under-recognized cause of sensorineural hearing loss and neurodevelopmental disorders in children. While CMV infection is typically asymptomatic in healthy individuals, its transmission during pregnancy can result in significant and lasting health consequences for the fetus. Despite its global impact, awareness of cCMV remains low, particularly among pregnant women and healthcare professionals, contributing to the under-diagnosis and inadequate management of affected infants. This manuscript reviews the epidemiology, clinical manifestations, and long-term outcomes of cCMV infection, emphasizing the critical need for preventive measures, including increased awareness and education. The paper also discusses the role of screening programs, highlighting the potential benefits of universal or targeted approaches in early detection and intervention. Despite advances in understanding cCMV, significant gaps remain in knowledge about its long-term cognitive effects and the effectiveness of various interventions. Further research is needed to explore the lived experiences of individuals with cCMV and their caregivers, identify gaps in healthcare, and develop comprehensive, family-centered intervention strategies.

WHAT IS cCMV INFECTION?

CMV is a herpesvirus transmitted through body fluids that establishes lifelong latency after the initial infection. This means the virus can reactivate later in life, and individuals can also be reinfected with different strains of CMV. For most people, the infection is either asymptomatic or causes only mild "flu-like" symptoms and fever, without serious health issues.

However, in individuals with weakened immune systems—such as those with HIV or recent transplants—CMV can lead to severe illness (Taylor, 2003). Congenital CMV (cCMV) infection occurs when the virus is transmitted from a pregnant woman to her unborn fetus through the placenta, a process known as vertical transmission. Most pregnant women acquire the infection through contact with saliva from young children who shed CMV more readily than adults (Dollard et al., 2014). For example, sharing utensils or kissing a toddler on the mouth can lead to CMV transmission. To prevent CMV infection, pregnant women are advised to practice good hygiene routines, such as always washing hands after changing diapers or wiping a young child's nose, and avoiding the sharing of utensils, food, and beverages with others (Fowler & Boppana, 2018).

The risk of transmission is significantly higher if the mother contracts a primary CMV infection during pregnancy (32%) compared to a recurrent infection (1.4%) (Kenneson & Cannon, 2007). With an average prevalence of 0.5%, cCMV is the most common congenital virus infection in developed countries (Orb et al., 2024; Ssentongo et al., 2021) In developing regions across Africa, Asia and Latin America, prevalence rates range from 0.6% to 6.1% (Kenneson & Cannon, 2007).

Research by Fowler and colleagues (2018) has highlighted the impact of race and ethnicity on the prevalence of cCMV. They found that black infants and infants of multiracial origin might have a significantly higher risk of contracting cCMV. These findings underscore the need for preventive strategies to raise awareness of cCMV among all women of childbearing age and for healthcare professionals to recognize group differences related to race and origin (Fowler et al., 2018). Notably, no significant differences were found between races or ethnicities in the likelihood of children having symptomatic cCMV infection or associated hearing loss.

Seroprevalence refers to the proportion of adults or older children in a population who have detectable antibodies against a specific pathogen, such as CMV, in their blood. This measure increases with age, an indication of how widespread CMV is within a community or population at a given time (Fowler et al., 2022). In regions with higher seroprevalence, there are typically higher rates of cCMV infection, even though the risk of infecting unborn children is greater in cases of primary infection (De Vries et al., 2013).

Approximately 1 in 5 infants born with cCMV infection may have birth defects or long-term health issues. Congenital CMV infection has also been associated with fetal death and stillbirths in some studies (Griffiths et al., 1980; Iwasenko et al., 2011). Children born with cCMV infection are typically categorized into two groups; those with symptomatic cCMV (10%) and asymptomatic cCMV (90%) at birth (Kenneson & Cannon, 2007).

Symptomatic cCMV infection refers to cases where the individual exhibits clinical manifestations of the infection at birth. In congenital cases, these symptoms might include an enlarged liver, jaundice, rash, sensorineural hearing loss, vision problems, and neurological issues such as microcephaly, seizures, or developmental delays (Naing et al., 2016). These symptoms are often detected at birth or shortly thereafter and can lead to serious long-term health issues (Lanzieri et al., 2017).

Asymptomatic cCMV infection refers to cases where the infected individual does not show observable symptoms or signs of illness in early life (Stoyell et al., 2024) or later childhood (Lopez et al., 2017; Novelli et al., 2022). Around 90% of children with cCMV are asymptomatic during the newborn period (Gantt et al., 2017). Although these individuals may not display clinical manifestations at the time of diagnosis, they can still carry the virus and might develop late-onset hearing loss. Around 10–15% of asymptomatic infants with cCMV will develop permanent sensorineural hearing loss (Fowler & Boppana, 2018). Additionally, while visual and cognitive impairments can occur, they are less compared to those observed in symptomatic cases of cCMV (Dollard et al., 2007).

IMPACT OF cCMV INFECTION

Congenital CMV infection is a leading cause of acquired unilateral or bilateral sensorineural hearing loss in children, which can range from

mild to profound (Goderis et al., 2014). This hearing loss may be present at birth, progress over time, or develop as a late-onset condition during childhood. Due to the potential for progressive or delayed hearing loss, ongoing auditory monitoring is crucial. Timely interventions are essential to support language and communication development, ensuring that the affected children receive the necessary resources and care.

Cochlear implantation is used for children with cCMV and bilateral deafness, but it is also beneficial for those with single-sided deafness (SSD) (Aldè et al., 2023). Unilateral cochlear implantation in children with cCMV and SSD can significantly improve their ability to localize sounds and understand speech in noisy environments. Additionally, there is a considerable risk to losing hearing in the unaffected ear over time for individuals with cCMV. By promoting early cochlear implantation in children with SSD, the child can preserve as much hearing capability as possible, supporting their overall auditory and speech development (Aldè et al., 2023).

Hearing loss is a prominent neurodevelopmental disorder resulting from cCMV infection (Goderis et al., 2014), but it does not fully account for the range of cognitive difficulties observed in children with cCMV infection (Karltorp et al., 2014). Children with hearing loss and cCMV infection are at risk for various cognitive impairments, including poorer executive functioning (Löfkvist et al., 2020). In a study by Löfkvist and colleagues (2020), pragmatic skills were assessed through parent questionnaires, revealing that children with cCMV had significantly worse pragmatic skills and phonological working memory compared to well-matched controls with genetic cause of deafness. These cognitive challenges can, in turn, negatively impact academic achievement and social interactions (Löfkvist et al., 2020).

Furthermore, cCMV is also associated with vestibular problems (Dhondt et al., 2021; Karltorp et al., 2014; Kokkola et al., 2023; Shears et al., 2022). In a systematic review, Shears et al. (2022) demonstrated that even children with asymptomatic cCMV infection, including those with typical hearing, may experience vestibular dysfunction, which can be progressive. Karltorp et al. (2014) investigated comorbidities in children with hearing loss comparing those to controls with a genetic cause of deafness (connexin 26), which typically does not include cognitive issues. They found that children with cCMV had poorer balance, vision loss, unexpected eating disorders, and neuropsychiatric diagnoses such as

autism spectrum disorder and ADHD, while the controls did not exhibit these issues.

Previous studies have also shown that children with cCMV infection may have intellectual disabilities (Lanzieri et al., 2017), neuropsychiatric diagnoses like autism spectrum disorder, ADHD, and oral motor dysfunctions (Karltorp et al., 2014). A large population-based study by Pesch and colleagues (2024) found that American children with cCMV have a 2.5 times higher risk of developing autism spectrum disorder than those who were uninfected (Pesch et al., 2024). Comorbid conditions are common in children with cCMV, contributing to the high heterogeneity within this population (Karltorp et al., 2014). Some children with cCMV may exhibit no or few symptoms, while others experience multiple severe conditions. It is more likely that children with symptomatic cCMV infection will have more severe conditions (Lanzieri et al., 2017).

However, a unique long-term follow-up study by Falkenius Schmidt and colleagues (2024) found that adults with cCMV infection who had typical hearing and were asymptomatic at birth experienced deficits in word retrieval processes. This cognitive ability is assessed using word fluency tasks such as the FAS task, which requires individuals to retrieve as many words as possible beginning with the letters F, A, and S within one minute. These findings suggest that the long-term effects of cCMV infection may persist even in individuals who initially showed no symptoms, indicating potential subtle cognitive difficulties that may not be easily detected at first glance.

One limitation of the study is its small sample size (n=34), and the findings will need to be replicated in further research. However, a strength of the study was the inclusion of a control group of individuals who were uninfected at birth. When compared to Swedish normative data, 43% of participants with cCMV infection, all of whom were asymptomatic at birth, performed adequately on both FAS and verb fluency tasks, compared to 86% of the controls (Falkenius Schmidt et al., 2024).

Korndewal and colleagues (2017) investigated how daily life is affected for school-aged children with cCMV and their parents. They found that the quality of life for both the children with long-term impairments and their parents was lower compared to controls without cCMV infection. Additionally, parents of children with cCMV

reported more physical issues and problems with concentration than those of controls with children without cCMV. These results highlight that cCMV impacts the daily life experiences of both the affected children and their family members, indicating a need for a family-centered intervention approach (Korndewal et al., 2017). While individuals with symptomatic cCMV infection often have more complex needs, it is important to recognize that those with asymptomatic cCMV may also have similar needs.

PREVENTION

Currently, there are no effective CMV vaccines available. Developing such a vaccine is particularly challenging due to the complex nature of CMV immunity, which includes the potential for reactivation of a previous infection and the risk of infection with new viral strains. Although ongoing research into CMV vaccine candidates shows promise (Hu et al., 2024; Schleiss, 2016), it is unlikely that an effective vaccine will be available in the near future. Consequently, the most effective strategy for preventing maternal and congenital CMV infection remains educating pregnant women about the sources of CMV exposure and promoting behavioral interventions to reduce these risks (Calvert et al., 2021). Additionally, increasing public awareness about cCMV infection and promoting hygiene practices are essential to minimize virus transmission.

Despite the need for greater public awareness and the prevalence of cCMV infection, many pregnant women remain unaware of cCMV and its potential serious consequences, as well as preventive actions (Calvert et al., 2021). Studies indicate significant knowledge gaps, with awareness rates ranging from 13% to 60% in various countries (Binda et al., 2016; Cordier et al., 2012; Pereboom et al., 2013). Midwives, who regularly interact with pregnant women, play a crucial role in disseminating information about CMV and can help prevent its spread by educating women on protective actions. Other healthcare professionals, such as physicians, pediatricians, educational audiologists, speech-language pathologists, and early interventionists, also need to be well-informed about the impact of cCMV infection.

An informal International Congenital Cytomegalovirus Recommendations Group, established by Rawlinson et al., (2017) aimed to provide

guidelines for the prevention, diagnosis, and treatment of cCMV. The group, based on consensus discussions and review of the literature, concluded universal neonatal screening for cCMV may be considered to facilitate early detection and intervention for hearing loss and/or developmental delay. They also agreed that education and prevention strategies for pregnant women are beneficial and that recommendations should be updated as new data and knowledge become available (Rawlinson et al., 2017).

SCREENING OF cCMV INFECTION

Currently, most children born with cCMV infection worldwide remain unrecognized, resulting in a lack of necessary treatment or follow-up care. Diagnosis of cCMV is ideally made through laboratory tests performed on the infant within the first three weeks of life. If cCMV is suspected after three weeks, retrospective analysis can be conducted using dried blood spots (DBS) PCR, although this is not a highly sensitive method to diagnose cCMV. In Sweden, DBS samples are stored indefinitely, but in most countries, they are retained for only a limited time, making retrospective diagnosis more challenging.

Universal or hearing-targeted screening programs are implemented in only a few regions worldwide, leading to the detection, identification, and treatment of children with symptomatic cCMV infection. Ontario, Canada, launched the world's first universal CMV screening program in 2019, and in 2023 Minnesota became the first state in the United States to implement a universal CMV screening program. Several other U.S. states either have adopted hearing-targeted screening programs, expanded-targeted screening programs, or are campaigning for such programs.

A significant limitation of hearing-targeted screening is that the majority of all children born with cCMV infection pass the universal newborn hearing screening, but may develop progressive hearing loss later. This presents a challenge because caregivers are often unaware of cCMV or the possibility of progressive hearing loss, potentially missing critical early listening and phonological milestones crucial for language development (Blamey et al., 2001; Ching et al., 2017). Additionally, atypical brain patterns associated with cCMV may impact long-term outcomes (Lanzieri et al., 2017), and not only in those with symptomatic cCMV (Falkenius Schmidt et al., 2024).

In Utah, the targeted screening program introduced in 2013 has evolved into an *expanded targeted screening program*. This updated approach includes additional high-risk groups, such as those with abnormal head size (microcephaly), maternal CMV positivity, or infants with petechial rash or blueberry muffin rash (Suarez et al., 2023). The expanded targeted program has shown improved detection rates of symptomatic cCMV cases compared to traditional hearing targeted screening. Suarez and colleagues (2023) argue that expanded screening is a more feasible alternative to universal screening, requiring fewer tests while achieving higher detection rates.

Regardless of type of cCMV screening program, providing a follow-up program for those identified with cCMV infection and their families is essential, as outlined by screening principles (WHO, 2020). Studies indicate that parents generally support cCMV screening programs, even if they must cover costs out of pocket (Diener et al., 2020), and despite initial concerns that the results may be distressing (Beaulieu et al., 2024).

In the patient-led study by Beaulieu et al. (2024), which used a Patient and Community Engagement Research (PaCER) approach encompassing focus-group discussions, interviews, and reflections, parents with lived experience expressed a strong preference to be informed about their child's health condition from the outset. They valued "knowledge as power" and believed that universal screening could reduce stigma by increasing awareness about cCMV. The study participants also highlighted the importance of having a follow-up program after screening to support families (Beaulieu et al., 2024).

FOLLOW-UP PROCEDURES, TREATMENT AND INTERVENTION OPTIONS – CURRENT BEST PRACTICE

If a child is diagnosed with cCMV infection at birth or within the first three weeks of life and exhibits moderate to severe symptoms, international guidelines recommend a six-month course of antiviral treatment with valganciclovir (Leruez-Ville et al., 2024). This treatment aims to reduce the risk of severe neurodevelopmental disorders (Rawlinson et al., 2017). However, the long-term outcomes and potential side effects of this treatment are not fully understood. Consequently, antiviral treatment is not recommended for cases with mild symptoms (Rawlinson et al., 2017). In addition to medical treatment, it is crucial to

monitor the child's hearing, vision, and overall development over time. According to Rawlinson et al. (2017), audiological testing should be conducted at six-month intervals during the first three years of life for children with cCMV, and then annually until adolescence. Early ophthalmological examinations and follow-up assessments are also recommended. Developmental assessments should be carried out for those with symptomatic cCMV and should be tailored to each individual case. There are no specific recommendations for asymptomatic cases, though ongoing developmental monitoring is advisable (Rawlinson et al., 2017).

To date, only a few studies have investigated the long-term impact of cCMV in adulthood (Falkenius Schmidt et al., 2024). Existing evidence suggests that individuals with symptomatic cCMV infection are at high risk for enduring and comorbid complications, emphasizing the necessity for early, preventive interdisciplinary interventions. However, early intervention alone may not be sufficient; many individuals with cCMV infection may require ongoing monitoring and support throughout their lives. Those who develop neurodevelopmental disorders in early childhood may also face an increased risk of neuropsychiatric conditions later in adolescence or adulthood, as seen in other populations with co-existing disorders such as autism spectrum disorder or ADHD (Gillberg, 2010). Currently, there are no established best practice guidelines specifically addressing the cognitive and comorbid aspects of cCMV intervention. Nonetheless, research and clinical experience highlight the importance of not only monitoring hearing but also identifying other potential issues, such as non-verbal cognitive difficulties, neuropsychiatric symptoms, atypical spoken language development, poor pragmatics, affected executive functions, and evaluate overall quality of life (Karltorp et al., 2014; Korndewal et al., 2017; Löfkvist et al., 2020).

Given the complexity of cCMV infection and the variability in outcomes, children should be monitored regularly by an interdisciplinary team with specialized knowledge in cCMV. It is essential that individuals with cCMV and their families are actively involved in the intervention process from the beginning. A notable example of this approach is the Hearing House in Auckland, New Zealand, where Dr. Holly Teagle and colleagues initiated a comprehensive CMV program (Raising awareness of congenital Cytomegalovirus on the local and global stage, hearinghouse.co.nz). This program includes workshops where families can engage in

education and discussion, and meet with an interdisciplinary CMV team for personalized assessment and intervention. The team comprises audiologists, speech-language pathologists, educational psychologists, occupational and physiotherapists, developmental pediatricians, ENT surgeons, early interventionists, and family members.

The CMV Aoeteara project group is actively investigating various aspects of congenital CMV (cCMV) care in New Zealand. Their research includes examining national CMV database findings, assessing healthcare professionals' knowledge and attitudes, evaluating holistic and child-centered interdisciplinary teamwork, and gathering parental perspectives on CMV screening and diagnosis. Although the program's outcomes have not yet been scientifically evaluated or published, data collection and analysis are currently in progress.

CONCLUSIONS

The global impact of cCMV infection is significant, affecting a large number of infants and often leading to long-term neurodevelopmental disorders and other health complications. With no effective vaccine currently available, preventive measures such as increasing awareness about cCMV transmission and promoting protective behaviors are critical. As the benefits of newborn screening programs—whether universal or targeted—become more evident, their implementation is likely to expand worldwide. While existing research has predominantly focused on the medical aspects of cCMV infection, there remain substantial gaps in knowledge, particularly regarding the long-term cognitive effects in broader populations and the efficacy of various intervention strategies besides antiviral medication and hearing technology. Furthermore, additional research is essential to explore the lived experiences of individuals with cCMV infection and their caregivers, to better identify healthcare gaps, and to address the comprehensive needs of those affected by the infection in clinical settings.

REFERENCES

Aldè, M., Binda, S., Primache, V., Pellegrinelli, L., Pariani, E., Pregliasco, F., Di Berardino, F., Cantarella, G., & Ambrosetti, U. (2023). Congenital cytomegalovirus and hearing loss: The state of the art. *Journal of Clinical Medicine, 12*(13), 4465. https://doi.org/10.3390/jcm12134465

Beaulieu, L., Bruce, M., Tiedemann, B., Chishti, R., Iyiola, I., Penny, S., Leroux, C., Nielssen, I., Santana, M. J., & Castillo, E. (2024). Perspectives of parents with lived experience of cytomegalovirus infection, on universal newborn screening for congenital cytomegalovirus (cCMV) in Canada: A patient-led qualitative study. *BMJ Paediatrics Open, 8*(1), e002851. https://doi.org/10.1136/bmjpo-2024-002851

Binda, S., Pellegrinelli, L., Terraneo, M., Caserini, A., Primache, V., Bubba, L., & Barbi, M. (2016). What people know about congenital CMV: An analysis of a large heterogeneous population through a web-based survey. *BMC Infectious Diseases, 16*(1), 513. https://doi.org/10.1186/s12879-016-1861-z

Blamey, P. J., Sarant, J. Z., Paatsch, L. E., Barry, J. G., Bow, C. P., Wales, R. J., Wright, M., Psarros, C., Rattigan, K., & Tooher, R. (2001). Relationships among speech perception, production, language, hearing loss, and age in children with impaired hearing. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research, 44*(2), 264–285. https://doi.org/10.1044/1092-4388(2001/022)

Calvert, A., Vandrevala, T., Parsons, R., Barber, V., Book, A., Book, G., Carrington, D., Greening, V., Griffiths, P., Hake, D., Khalil, A., Luck, S., Montague, A., Star, C., Ster, I. C., Wood, S., Heath, P. T., & Jones, C. E. (2021). Changing knowledge, attitudes and behaviours towards cytomegalovirus in pregnancy through film-based antenatal education: A feasibility randomised controlled trial of a digital educational intervention. *BMC Pregnancy and Childbirth, 21*(1), 565. https://doi.org/10.1186/s12884-021-03979-z

Ching, T. Y. C., Dillon, H., Button, L., Seeto, M., Van Buynder, P., Marnane, V., Cupples, L., & Leigh, G. (2017). Age at Intervention for Permanent Hearing Loss and 5-Year Language Outcomes. *Pediatrics, 140*(3), e20164274. https://doi.org/10.1542/peds.2016-4274

Cordier, A. G., Guitton, S., Vauloup-Fellous, C., Grangeot-Keros, L., Benachi, A., & Picone, O. (2012). Awareness and knowledge of congenital cytomegalovirus infection among health care providers in France. *Journal of Clinical Virology, 55*(2), 158–163. https://doi.org/10.1016/j.jcv.2012.06.022

De Vries, J. J. C., Van Zwet, E. W., Dekker, F. W., Kroes, A. C. M., Verkerk, P. H., & Vossen, A. C. T. M. (2013). The apparent paradox of maternal seropositivity as a risk factor for congenital cytomegalovirus infection: A population-based prediction model. *Reviews in Medical Virology, 23*(4), 241–249. https://doi.org/10.1002/rmv.1744

Dhondt, C., Maes, L., Rombaut, L., Martens, S., Vanaudenaerde, S., Van Hoecke, H., De Leenheer, E., & Dhooge, I. (2021). Vestibular function in children with a congenital cytomegalovirus infection: 3 years of follow-up. *Ear & Hearing, 42*(1), 76–86. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000000904

Diener, M. L., Shi, K., & Park, A. H. (2020). A cross-sectional study of caregiver perceptions of congenital cytomegalovirus infection: Knowledge and attitudes about screening. *The Journal of Pediatrics, 218*, 151-156. e2. https://doi.org/10.1016/j.jpeds.2019.12.005

Dollard, S. C., Grosse, S. D., & Ross, D. S. (2007). New estimates of the prevalence of neurological and sensory sequelae and mortality associated with congenital cytomegalovirus infection. *Reviews in Medical Virology, 17*(5), 355–363. https://doi.org/10.1002/rmv.544

Falkenius Schmidt, K., Nyström, A., Karltorp, E., Magnusson, M., & Löfkvist, U. (2024). Long-term linguistic outcome in adults with congenital cytomegalovirus infection. *Infectious Diseases, 56*(1), 32–41. https://doi.org/10.1080/23744235.2023.2263567

Fowler, K. B., & Boppana, S. B. (2018). Congenital cytomegalovirus infection. *Seminars in Perinatology, 42*(3), 149–154. https://doi.org/10.1053/j.semperi.2018.02.002

Fowler, K. B., Ross, S. A., Shimamura, M., Ahmed, A., Palmer, A. L., Michaels, M. G., Bernstein, D. I., Sánchez, P. J., Feja, K. N., Stewart, A., & Boppana, S. (2018). Racial and ethnic differences in the prevalence of congenital cytomegalovirus infection. *The Journal of Pediatrics, 200*, 196-201.e1. https://doi.org/10.1016/j.jpeds.2018.04.043

Fowler, K., Mucha, J., Neumann, M., Lewandowski, W., Kaczanowska, M., Grys, M., Schmidt, E., Natenshon, A., Talarico, C., Buck, P. O., & Diaz-Decaro, J. (2022). A systematic literature review of the global seroprevalence of cytomegalovirus: Possible implications for treatment, screening, and vaccine development. *BMC Public Health, 22*(1), 1659. https://doi.org/10.1186/s12889-022-13971-7

Gantt, S., Bitnun, A., Renaud, C., Kakkar, F., & Vaudry, W. (2017). Diagnosis and management of infants with congenital cytomegalovirus infection. *Paediatrics & Child Health, 22*(2), 72–74. https://doi.org/10.1093/pch/pxx002

Gillberg, C. (2010). The ESSENCE in child psychiatry: Early symptomatic syndromes eliciting neurodevelopmental clinical examinations. *Research in Developmental Disabilities, 31*(6), 1543–1551. https://doi.org/10.1016/j.ridd.2010.06.002

Goderis, J., De Leenheer, E., Smets, K., Van Hoecke, H., Keymeulen, A., & Dhooge, I. (2014). Hearing loss and congenital CMV infection: A systematic review. *Pediatrics, 134*(5), 972–982. https://doi.org/10.1542/peds.2014-1173

Griffiths, P. D., Campbell-Benzie, A., & Heath, R. B. (1980). A prospective study of primary cytomegalovirus infection in pregnant women. *BJOG: An International Journal of Obstetrics & Gynaecology, 87*(4), 308–314. https://doi.org/10.1111/j.1471-0528.1980.tb04546.x

Hu, X., Karthigeyan, K. P., Herbek, S., Valencia, S. M., Jenks, J. A., Webster, H., Miller, I. G., Connors, M., Pollara, J., Andy, C., Gerber, L. M., Walter, E. B., Edwards, K. M., Bernstein, D. I., Hou, J., Koch, M., Panther, L., Carfi, A., Wu, K., & Permar, S. R. (2024). Human cytomegalovirus mRNA-1647 vaccine candidate elicits potent and broad neutralization and higher antibody-dependent cellular cytotoxicity responses than the gB/MF59 vaccine. *The Journal of Infectious Diseases*, jiad593. https://doi.org/10.1093/infdis/jiad593

Iwasenko, J. M., Howard, J., Arbuckle, S., Graf, N., Hall, B., Craig, M. E., & Rawlinson, W. D. (2011). Human cytomegalovirus infection is detected frequently in stillbirths and is associated with fetal thrombotic vasculopathy. *The Journal of Infectious Diseases, 203*(11), 1526–1533. https://doi.org/10.1093/infdis/jir121

Karltorp, E., Löfkvist, U., Lewensohn-Fuchs, I., Lindström, K., Eriksson Westblad, M., Teär Fahnehjelm, K., Verrecchia, L., & Engman, M.-L. (2014). Impaired balance and neurodevelopmental disabilities among children with congenital cytomegalovirus infection. *Acta Paediatrica*, 103(11), 1165–1173. https://doi.org/10.1111/apa.12745

Kenneson, A., & Cannon, M. J. (2007). Review and meta-analysis of the epidemiology of congenital cytomegalovirus (CMV) infection. *Reviews in Medical Virology, 17*(4), 253–276. https://doi.org/10.1002/rmv.535

Kokkola, E., Niemensivu, R., Lappalainen, M., Palomäki, M., Nieminen, T., Boppana, S., Saxèn, H., & Puhakka, L. (2023). Long-term outcome of vestibular function and hearing in children with congenital cytomegalovirus infection: A prospective cohort study. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology, 280*(7), 3141–3147. https://doi.org/10.1007/s00405-022-07816-7

Korndewal, M. J., Oudesluys-Murphy, A. M., Kroes, A. C. M., Vossen, A. C. T. M., & De Melker, H. E. (2017). Congenital cytomegalovirus

infection: Child development, quality of life and impact on daily life. *Pediatric Infectious Disease Journal, 36*(12), 1141–1147. https://doi.org/10.1097/INF.0000000000001663

Lanzieri, T. M., Leung, J., Caviness, A. C., Chung, W., Flores, M., Blum, P., Bialek, S. R., Miller, J. A., Vinson, S. S., Turcich, M. R., Voigt, R. G., Demmler-Harrison, G., & for the Congenital Cytomegalovirus Longitudinal Study Group. (2017). Long-term outcomes of children with symptomatic congenital cytomegalovirus disease. *Journal of Perinatology, 37*(7), 875–880. https://doi.org/10.1038/jp.2017.41

Leruez-Ville, M., Chatzakis, C., Lilleri, D., Blazquez-Gamero, D., Alarcon, A., Bourgon, N., Foulon, I., Fourgeaud, J., Gonce, A., Jones, C. E., Klapper, P., Krom, A., Lazzarotto, T., Lyall, H., Paixao, P., Papaevangelou, V., Puchhammer, E., Sourvinos, G., Vallely, P., … Vossen, A. (2024). Consensus recommendation for prenatal, neonatal and postnatal management of congenital cytomegalovirus infection from the European congenital infection initiative (ECCI). *The Lancet Regional Health – Europe, 40*, 100892. https://doi.org/10.1016/j.lanepe.2024.100892

Löfkvist, U., Anmyr, L., Henricson, C., & Karltorp, E. (2020). Executive functions, pragmatic skills, and mental health in children with congenital cytomegalovirus (CMV) infection with cochlear implants: A pilot study. *Frontiers in Psychology, 10*, 2808. https://doi.org/10.3389/fpsyg.2019.02808

Lopez, A. S., Lanzieri, T. M., Claussen, A. H., Vinson, S. S., Turcich, M. R., Iovino, I. R., Voigt, R. G., Caviness, A. C., Miller, J. A., Williamson, W. D., Hales, C. M., Bialek, S. R., Demmler-Harrison, G., & on behalf of the Congenital Cytomegalovirus Longitudinal Study Group. (2017). Intelligence and academic achievement with asymptomatic congenital cytomegalovirus infection. *Pediatrics, 140*(5), e20171517. https://doi.org/10.1542/peds.2017-1517

Naing, Z. W., Scott, G. M., Shand, A., Hamilton, S. T., Van Zuylen, W. J., Basha, J., Hall, B., Craig, M. E., & Rawlinson, W. D. (2016). Congenital cytomegalovirus infection in pregnancy: A review of prevalence, clinical features, diagnosis and prevention. *Australian and New Zealand Journal of Obstetrics and Gynaecology, 56*(1), 9–18. https://doi.org/10.1111/ajo.12408

Novelli, M., Natale, F., Di Norcia, A., Boiani, A., Temofonte, S., Calandriello, F., Zitarelli, C., & Caravale, B. (2022). Early

neurodevelopmental outcomes in children with asymptomatic congenital CMV infection. *Italian Journal of Pediatrics, 48*(1), 203. https://doi.org/10.1186/s13052-022-01387-3

Orb, Q. T., Pesch, M., Allen, C. M., Wilkes, A., Ahmad, I., Alfonso, K., Antonio, S. M., Mithal, L. B., Brinkmeier, J. V., Carvalho, D., Chan, D., Cheng, A. G., Chi, D., Cohen, M., Discolo, C. M., Duran, C., Germiller, J., Gibson, L., Grunstein, E., … Park, A. H. (2024). Congenital cytomegalovirus testing outcomes from the ValEAR trial. *Otolaryngology-Head and Neck Surgery: Official Journal of American Academy of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, 170*(5), 1430–1441. https://doi.org/10.1002/ohn.670

Pereboom, M. T. R., Manniën, J., Spelten, E. R., Schellevis, F. G., & Hutton, E. K. (2013). Observational study to assess pregnant women's knowledge and behaviour to prevent toxoplasmosis, listeriosis and cytomegalovirus. *BMC Pregnancy and Childbirth, 13*(1), 98. https://doi.org/10.1186/1471-2393-13-98

Pesch, M. H., Leung, J., Lanzieri, T. M., Tinker, S. C., Rose, C. E., Danielson, M. L., Yeargin-Allsopp, M., & Grosse, S. D. (2024). Autism spectrum disorder diagnoses and congenital cytomegalovirus. *Pediatrics, 153*(6), e2023064081. https://doi.org/10.1542/peds.2023-064081

Rawlinson, W. D., Boppana, S. B., Fowler, K. B., Kimberlin, D. W., Lazzarotto, T., Alain, S., Daly, K., Doutré, S., Gibson, L., Giles, M. L., Greenlee, J., Hamilton, S. T., Harrison, G. J., Hui, L., Jones, C. A., Palasanthiran, P., Schleiss, M. R., Shand, A. W., & Van Zuylen, W. J. (2017). Congenital cytomegalovirus infection in pregnancy and the neonate: Consensus recommendations for prevention, diagnosis, and therapy. *The Lancet Infectious Diseases, 17*(6), e177–e188. https://doi.org/10.1016/S1473-3099(17)30143-3

Schleiss, M. R. (2016). Cytomegalovirus vaccines under clinical development. *Journal of Virus Eradication, 2*(4), 198–207.

Shears, A., Yan, G., Mortimer, H., Cross, E., Sapuan, S., Kadambari, S., Luck, S., Heath, P. T., Walter, S., & Fidler, K. J. (2022). Vestibular and balance dysfunction in children with congenital CMV: A systematic review. *Archives of Disease in Childhood – Fetal and Neonatal Edition, 107*(6), 630–636. https://doi.org/10.1136/archdischild-2021-323380

Ssentongo, P., Hehnly, C., Birungi, P., Roach, M. A., Spady, J., Fronterre, C., Wang, M., Murray-Kolb, L. E., Al-Shaar, L., Chinchilli, V. M., Broach, J. R., Ericson, J. E., & Schiff, S. J. (2021). Congenital cytomegalovirus infection burden and epidemiologic risk factors in

countries with universal screening: A systematic review and meta-analysis. *JAMA Network Open, 4*(8), e2120736. https://doi.org/10.1001/jamanetworkopen.2021.20736

Stoyell, S. M., Elison, J. T., Graupmann, E., Miller, N. C., Emerick, J., Ramey, E., Sandness, K., Schleiss, M. R., & Osterholm, E. A. (2024). Neurobehavioral outcomes of neonatal asymptomatic congenital cytomegalovirus infection at 12-months. *Journal of Neurodevelopmental Disorders, 16*(1), 19. https://doi.org/10.1186/s11689-024-09533-0

Suarez, D., Nielson, C., McVicar, S. B., Sidesinger, M., Ostrander, B., O'Brien, E., Ampofo, K., Ling, C. Y., Miner, L. J., & Park, A. H. (2023). Analysis of an expanded targeted early cytomegalovirus testing program. *Otolaryngology–Head and Neck Surgery, 169*(3), 670–677. https://doi.org/10.1002/ohn.320

Taylor, G. H. (2003). Cytomegalovirus. *American Family Physician, 67*(3), 519–524.

WHO. (2020). *Screening Programmes: A short guide – Increase effectiveness, maximize benefits and minimize harm*. World Health Organization. https://iris.who.int/bitstream/handle/10665/330829/9789289054782-eng.pdf

THE
VOLTA REVIEW

PROGRAMA DE INVESTIGACIÓN SIMPOSIO GLOBAL VIRTUAL AG BELL DE ESCUCHA Y LENGUAJE HABLADO 2024

HABILIDADES PSICOSOCIALES Y CALIDAD DE VIDA DE NIÑOS CON SORDERA/HIPOACUSIA: LECCIONES DE LOS PRIMEROS DIEZ AÑOS DEL ESTUDIO LOCHI

Greg Leigh[1,2], Teresa Y. C. Ching[1,2,3] y Linda Cupples[3]
[1]*NextSense Institute, NextSense, Sydney, Australia*
[2]*Macquarie School of Education, Macquarie University, Sydney, Australia*
[3]*School of Health and Rehabilitation Sciences, University of Queensland, Brisbane, Australia*
[4]*Departmento de Lingüística, Macquarie University, Sydney, Australia*

En este artículo se analizan los resultados de los 10 primeros años del estudio Longitudinal Outcomes of Children with Hearing Impairment (LOCHI), que incluye a más de 450 niños australianos con sordera/hipoacusia cuya pérdida auditiva se identificó a través del cribado auditivo neonatal o en procesos posteriores de confirmación e intervención.

El estudio LOCHI (Longitudinal Outcomes of Children with Hearing Impairment, Resultados longitudinales de niños con discapacidad auditiva) es un estudio prospectivo basado en la población de Australia en el que, desde 2005, se evalúa periódicamente una amplia gama de resultados de una cohorte de niños con sordera/hipoacusia para investigar la eficacia de la identificación y la intervención tempranas, así como los factores que explican la variabilidad de los resultados.

Antes del estudio LOCHI, la investigación sobre el efecto de la identificación temprana se componía principalmente de (a) comparaciones retrospectivas de muestras de conveniencia de niños que a menudo procedían de un único servicio de intervención temprana, educativo o audiológico que tendían a mostrar los efectos positivos de los proveedores de identificación temprana (p. ej., Calderon y Naidu, 2000; Moeller, 2000; Yoshinaga-Itano et al., 1998); o (b) estudios basados en la población que tendían a mostrar los beneficios nulos o limitados de la identificación temprana de la pérdida auditiva (p. ej., Kennedy et al., 2006; Korver et al., 2010).

Dada la amplia aceptación del cribado auditivo neonatal universal y el grado en que los gobiernos de todo el mundo se comprometieron a

aplicarlo, fue una anomalía que las pruebas de su eficacia en las fases iniciales de su desarrollo no fueran sólidas. De hecho, ya en 2008, en una revisión sistemática (Nelson et al., 2008) se señalaba que solo existía «una certeza moderada de que el beneficio neto del cribado auditivo en todos los recién nacidos fuera moderado», y se destacaba la necesidad de disponer de pruebas procedentes de exámenes prospectivos sobre si la identificación temprana de la pérdida auditiva se traducía en mejores resultados educativos y de desarrollo en los niños que nacían con una pérdida auditiva. En este contexto se concibió el estudio LOCHI.

DISEÑO DEL ESTUDIO LOCHI

La necesidad de un estudio prospectivo sobre la eficacia de la identificación temprana de la pérdida auditiva planteaba un importante dilema de diseño para los investigadores en contextos en los que el cribado auditivo neonatal ya se realizaba a nivel poblacional. En tales jurisdicciones, la asignación aleatoria de los niños al cribado o no cribado no sería ética y la idea de asignarlos aleatoriamente a grupos de tratamiento (intervención temprana frente a intervención posterior) sería aún más grave desde un punto de vista ético. Para superar la necesidad de la asignación aleatoria, en el estudio LOCHI se aprovechó un periodo temporal en Australia entre 2002 y 2007, cuando varios estados australianos estaban implementando programas de cribado auditivo neonatal a diferentes ritmos. Los tres estados más poblados (Nueva Gales del Sur, Victoria y Queensland) iniciaron sus programas en un periodo de tres años, entre 2002 y 2005. Nueva Gales del Sur implantó el cribado auditivo neonatal en todas las regiones del estado simultáneamente, mientras que en Queensland y Victoria el despliegue del programa se escalonó por regiones a lo largo de 2 y 6 años, respectivamente (Leigh, 2006).

Al tratarse de un estudio prospectivo, se invitó a participar a todos los niños identificados con pérdida auditiva que habían nacido en esos tres estados durante un periodo de 5 años entre 2002 y 2007, lo que dio lugar a una cohorte de aproximadamente 470 niños que se dividió de forma natural entre los que fueron identificados a través del cribado auditivo neonatal y los que fueron identificados más tarde, lo que permitió que la edad de identificación fuera una variable predictiva principal en un diseño de investigación prospectivo. Además, también se recopilaron datos sobre otras muchas variables predictivas, como (a)

variables relacionadas con el niño(a) (es decir, peso al nacer, sexo, edad de identificación/diagnóstico, grado de pérdida auditiva, edad de adquisición del audífono, edad de implantación coclear, capacidad cognitiva no verbal, presencia de discapacidades adicionales y presencia de neuropatía auditiva); (b) variables relacionadas con la familia (es decir, nivel educativo de los padres, estatus socioeconómico y modo de lenguaje/comunicación utilizado en el hogar); y (c) variables educativas/de intervención temprana (es decir, modo de comunicación y cambios en el modo de comunicación a lo largo del tiempo). Cabe destacar que todos los niños participantes, independientemente de si habían sido identificados a través del cribado auditivo neonatal o de la atención sanitaria estándar, recibieron el mismo servicio de intervención auditiva de un único proveedor nacional (Hearing Australia), sin coste alguno para las familias.

En el estudio LOCHI se mide una serie de resultados en varios momentos de la vida de los participantes (es decir, a los 6 y 12 meses después de la primera adquisición de audífonos o implantes cocleares (IC), y posteriormente a los 3, 5 y 9 años de edad), incluyendo: lenguaje receptivo y expresivo, capacidad de comunicación funcional, percepción y producción del habla, lectoescritura, logros educativos y, lo que es más importante en el contexto de esta revisión, desarrollo psicosocial y calidad de vida (CdV).

DIFICULTADES SOCIALES Y EMOCIONALES, Y CALIDAD DE VIDA

En las últimas tres décadas se aprecia que los investigadores prestan cada vez más atención al desarrollo social y emocional de los niños con sordera/hipoacusia. Los estudios se han centrado en conceptos generales de funcionamiento psicosocial, a menudo asociados con el concepto general de CdV y, en ocasiones, más específicamente en la salud mental y la psicopatología. Si bien sus hallazgos distan de ser unánimes, los investigadores suelen destacar la presencia de un mayor riesgo en el caso de algunas dificultades sociales y emocionales asociadas con una disminución de la CdV y, en menor medida, con problemas de salud mental (Castellanos et al., 2018; Fellinger et al., 2009; Hindley et al., 1994; Overgaard et al., 2021; Stika et al., 2021; Theunissen et al., 2014a, b).

A pesar de la consistencia general de estos hallazgos, cabe destacar la existencia de una considerable heterogeneidad en las muestras extraídas

de la diversa población de niños y adolescentes con sordera/hipoacusia. Las múltiples dimensiones de la diferencia dentro de esta población significan que las conclusiones generalizadas sean problemáticas. Cada vez más, los estudios se centran en los resultados psicosociales en subsecciones de esta población, concretamente en niños con IC. Otra limitación de la investigación previa en esta área es que la mayoría de los estudios se basan en diseños transversales, a menudo con muestras de conveniencia y una gama limitada de variables predictoras, lo que dificulta la extracción de conclusiones con respecto tanto a la capacidad de generalización como a la causalidad de cualquier dificultad notificada.

Como estudio longitudinal basado en la población, el estudio LOCHI ofrece la oportunidad de considerar el desarrollo social y emocional de una población de niños a la edad de 3, 5 y 9 años, y su CdV relacionada con la salud a los 9 años. El examen longitudinal de estos resultados y de una serie de variables independientes ofrece la oportunidad de considerar tanto la prevalencia de las dificultades sociales y emocionales como los posibles factores predictivos de estas dificultades.

DESARROLLO PSICOSOCIAL A LA EDAD DE 3 AÑOS

Una descripción detallada de los hallazgos relativos al desarrollo social y emocional en el intervalo de edad de 3 años del estudio LOCHI fue aportada por Leigh et al. (2015). En ese momento, además de la encuesta demográfica habitual y la gama de evaluaciones del lenguaje y la comunicación, los progenitores cumplimentaban dos cuestionarios: Child Development Inventory (CDI, Inventario de desarrollo infantil; Ireton, 2005) y Parents' Evaluation of Aural/Oral Performance of Children (PEACH, Evaluación de los progenitores del desempeño auditivo/oral en niños; Ching y Hill, 2007).

El CDI (Ireton, 2005) es una medida basada en un cuestionario que contiene 300 enunciados que describen aspectos observables del comportamiento infantil desde los 15 meses hasta los 6 años. Aunque existan ocho subescalas (Social, Autoayuda, Motricidad gruesa, Motricidad fina, Lenguaje expresivo, Comprensión del lenguaje, Letras y Números), las dos que nos interesaron fueron las que abordaban aspectos del desarrollo psicosocial: (a) la subescala Social, que trata de los comportamientos sociales, la iniciativa, la independencia y la interacción social; y (b) la subescala Autoayuda, que aborda la independencia, las habilidades de autocuidado y la responsabilidad

personal. Cada subescala tiene 40 ítems y se requiere que los progenitores respondan Sí o No para indicar si han observado un determinado comportamiento en su hijo(a). El PEACH (Ching y Hill, 2007) incluye 11 preguntas que requieren la valoración por parte de los progenitores de la capacidad de los niños de comunicarse en silencio y en presencia de ruido, y de responder a sonidos en situaciones cotidianas, y dos preguntas que abordan la valoración del uso de sus dispositivos sensoriales. Para cada pregunta se pide a los progenitores que valoren la capacidad del niño(a) en una escala de cinco puntos y la frecuencia de aparición de determinados comportamientos observados a lo largo de una semana. Se obtiene una puntuación global del desempeño funcional calculada a partir de la respuesta a las 11 preguntas.

El hallazgo más notable en relación con el desempeño de los niños a la edad de 3 años fue que las puntuaciones medias en las dos medidas de desarrollo psicosocial estaban dentro del rango típico de los niños de esa edad. Esto contrastaba notablemente con muchas investigaciones anteriores que concluían que los niños con sordera/hipoacusia corrían un mayor riesgo de obtener peores resultados psicosociales que sus compañeros con una audición típica de la misma edad. Sin embargo, en una tendencia que se observaría en intervalos de edad posteriores en el estudio LOCHI, las desviaciones típicas (DT) fueron altas y algunos niños obtuvieron puntuaciones muy por debajo de la media. En contraste con las puntuaciones psicosociales, los cocientes medios de la capacidad lingüística y comunicativa de los niños, así como sus puntuaciones estándar en el PEACH, estaban muy por debajo del rango esperado en sus compañeros de la misma edad con un desarrollo típico (Leigh et al., 2015). Además, las puntuaciones de los niños correspondientes a la capacidad de lenguaje receptivo y expresivo medida por el CDI, así como la capacidad de comunicación funcional medida por el PEACH, se correlacionaban significativamente con ambas medidas de desarrollo psicosocial. En cuanto al PEACH, los niños que fueron puntuados por los progenitores como mejores comunicadores funcionales tendían a puntuar más alto tanto en desarrollo social como en habilidades de autoayuda, lo que plantea la cuestión de si las habilidades de comunicación funcional podrían seguir estando más asociadas con fortalezas psicosociales.

DESARROLLO PSICOSOCIAL A LA EDAD DE 5 AÑOS

A la edad de 5 años, había datos disponibles de 356 niños cuyos padres habían cumplimentado al menos una de las evaluaciones basadas en cuestionarios sobre su desarrollo social y emocional (Wong et al., 2017, Wong et al., 2018). De nuevo, en las evaluaciones se incluyeron el CDI (subescala Social), el SDQ (Strengths and Difficulties Questionnaire, Cuestionario de fortalezas y dificultades; Goodman, 1997) y el PEACH. El SDQ es una medida de cribado de 25 ítems diseñada para identificar problemas conductuales y emocionales en niños. Se compone de cinco subescalas: problemas de conducta, hiperactividad, síntomas emocionales, problemas con los compañeros y comportamiento prosocial. Cada subescala consta de 5 ítems valorados por los padres en una escala de respuesta de tres puntos: 0 = «no es cierto», 1 = «algo cierto», 2 = «totalmente cierto». Las puntuaciones de las cuatro primeras subescalas se utilizan para obtener una «puntuación de dificultades totales», indicando las puntuaciones más altas mayores dificultades sociales o emocionales y una posible psicopatología. Las puntuaciones más altas en la escala prosocial indican fortalezas psicosociales. Las capacidades relativas al lenguaje receptivo y expresivo a los cinco años se evaluaron con la Escala del lenguaje preescolar, cuarta edición (PLS-4; Zimmerman et al., 2002) y la capacidad cognitiva no verbal se midió utilizando la Escala de capacidad no verbal de Wechsler (WNV; Wechsler y Naglieri, 2006).

Las puntuaciones de cada una de las medidas se convirtieron en puntuaciones Z utilizando los datos normativos publicados más recientemente. Para reducir el error de medición y la variación aleatoria entre las distintas subescalas, se obtuvo una «puntuación psicosocial global» promediando las puntuaciones Z de la escala de dificultades totales del SDQ, la escala prosocial del SDQ y la escala de habilidades sociales del CDI.

En un patrón de resultados similares a los de los 3 años, el análisis de las puntuaciones psicosociales globales de los niños a los 5 años demostró que, en promedio, se encontraban dentro del rango de los niños con un desarrollo típico (puntuación Z = -0,67). Sin embargo, una vez más se observó una gran variabilidad entre las puntuaciones (DT=1,05) y una proporción mucho mayor de la esperada de niños que se situaban más de 2 DT por debajo de la media normativa (es decir, el 11,7 % frente al 2,5 % esperado en una distribución normal). Además, en contraste con

los resultados a los 3 años, las puntuaciones en la escala de Habilidades sociales del CDI se situaban en promedio 1,4 DT por debajo de la expectativa de edad de los niños con una audición típica (Wong et al., 2017).

Para determinar los posibles predictores de estos resultados tan variables se realizaron análisis de regresión múltiple jerárquica con la puntuación psicosocial global como variable dependiente. Los factores que predijeron un mejor funcionamiento psicosocial fueron una mayor capacidad cognitiva no verbal, la ausencia de discapacidades adicionales, la capacidad lingüística y las habilidades funcionales de comunicación (es decir, según lo medido por el PEACH). En cuanto a los dos últimos predictores, en consonancia con los hallazgos a la edad de 3 años, las puntuaciones tanto en el PLS-4 como en el PEACH fueron predictores altamente significativos de los resultados psicosociales globales a la edad de 5 años. En concreto, las puntuaciones medias del PEACH mostraron la mayor magnitud del efecto sobre los resultados psicosociales globales, lo que sugiere que, incluso si los niños desarrollan buenas capacidades lingüísticas estructurales (es decir, morfosintácticas), pueden experimentar dificultades sociales o emocionales si no se comunican eficazmente a un nivel funcional. La influencia de las capacidades comunicativas funcionales en el funcionamiento psicosocial fue una cuestión que se consideró que era especialmente importante abordar en el nivel de 9 años del estudio LOCHI.

DESARROLLO PSICOSOCIAL A LA EDAD DE 9 AÑOS

Considerando el interés de investigar más a fondo el valor predictivo de las habilidades de comunicación social en el funcionamiento psicosocial de los niños, en la fase de 9 años del estudio LOCHI se amplió el rango de capacidades de comunicación funcional consideradas y el rango de resultados medidos. En cuanto a la primera cuestión, era evidente que la capacidad de comunicación funcional incluye la capacidad de ser comprendido por los demás (es decir, la inteligibilidad del habla) y la capacidad de utilizar el lenguaje socialmente para gestionar las relaciones con los demás (es decir, las capacidades lingüísticas pragmáticas). Estos componentes no solo son importantes en cualquier definición de habilidades funcionales del lenguaje y la comunicación, sino que también otros investigadores han demostrado que están asociados con el funcionamiento psicosocial (Freeman et al.,

2017; Zadman-Zait y Most, 2020). Sin embargo, son pocos los estudios en los que se aborda la posible relación entre la capacidad de comunicación funcional y la CdV. Por lo tanto, en el intervalo de edad de 9 años del estudio LOCHI se consideró la relación del uso funcional del lenguaje (incluyendo la inteligibilidad del habla y las capacidades pragmáticas) tanto con el funcionamiento psicosocial como con la CdV mientras se controlaba la influencia de las capacidades lingüísticas estructurales (Ching et al., 2021).

En el intervalo de edad de 9 años había 144 niños de los que se disponía de puntos de datos para cada una de las siguientes variables predictoras y dependientes:

Predictores

- Capacidad de lenguaje estructural: CELF-4, 4ª edición (Clinical Evaluation of Language Fundamentals, Evaluación clínica de los fundamentos del lenguaje; Semmel et al., 2003)
- Capacidad cognitiva no verbal: WNV (Wechsler Nonverbal Scale of Ability, Escala de capacidad no verbal de Wechsler; Wechsler y Naglieri, 2006)
- Uso pragmático del lenguaje hablado: CCC-2, 2ª edición (Children's Communication Checklist, Lista de verificación de la comunicación en niños; Bishop, 2003).
- Desempeño funcional auditivo: PEACH (Parents' Evaluation of Aural/Oral Performance of Children, Evaluación de los progenitores del desempeño auditivo/oral en niños; Ching y Hill, 2007).
- Inteligibilidad del habla: SIR (Speech Intelligibility Rating scale, escala de Puntuación de inteligibilidad del habla; Allen et al., 2001).
- Grado de la pérdida auditiva.
- Edad en el momento de la intervención (edad en la primera adquisición de audífonos).

Variables dependientes

- Comportamiento y emoción (funcionamiento psicosocial): SDQ (Strengths and Difficulties Questionnaire, Cuestionario de fortalezas y dificultades; Goodman, 1997)
- Calidad de vida relacionada con la salud (CVRS): PedsQL, versión 4.0 (Pediatric Quality of Life Inventory, Inventario pediátrico de

calidad de vida; Varni et al., 2001). Este inventario se compone de 23 ítems en 4 áreas: funcionamiento físico, funcionamiento emocional, funcionamiento social y funcionamiento escolar. Cada ítem se valora en una escala Likert de 5 puntos, de 0 (nunca es un problema) a 4 (casi siempre es un problema). Se calcularon puntuaciones Z para las puntuaciones medias de cada escala y la puntuación total utilizando normas publicadas (Varni et al., 2003).

Tal como se observó a los 3 y 5 años, las puntuaciones medias de los niños en el SDQ (tanto en la escala total como en todas las subescalas) se encontraban dentro del rango normal. Sin embargo, al igual que entonces, una proporción de niños mucho mayor de la esperada presentaba puntuaciones clínicamente significativas de dificultades psicosociales. De hecho, el 4,9 % obtuvo puntuaciones de dificultades totales más de dos DT por debajo de la media, en contraste con la población normativa en la que se esperaría que solo el 2,3 % se situara en ese rango. Del mismo modo, en el PedsQL, el 6,9 % de los niños presentaba unas puntuaciones totales que situaban más de dos desviaciones típicas por debajo de la expectativa normativa.

Relaciones entre las medidas

Tal como se esperaba a partir de los resultados de investigaciones anteriores, unas mejores capacidades lingüísticas estructurales se correlacionaban con mejores habilidades psicosociales, menores dificultades conductuales y mejor CdV. También se observaron correlaciones positivas significativas entre las capacidades lingüísticas pragmáticas y todas las subescalas y puntuaciones totales en el PedsQL y el SDQ (Ching et al., 2021). Los análisis de regresión múltiple jerárquica, que tienen en cuenta los efectos de otras variables, proporcionaron una comprensión mucho más clara de la importancia de la contribución de los distintos predictores. En la Tabla 1 se muestran los resultados de los análisis de regresión múltiple con las puntuaciones de las subescalas de dificultades totales, prosocial e individual del SDQ y las puntuaciones de las escalas total, de salud psicosocial, de salud física e individual del PedsQL. Las capacidades auditivas funcionales (PEACH) y las capacidades lingüísticas pragmáticas (GCC), junto con el grado de pérdida auditiva y el dispositivo auditivo (es decir, IC frente

INSERT TABLE 1 HERE WHEN MAKING COMPOSITE PDF

a audífonos), fueron predictores significativos de las puntuaciones totales tanto del SDQ como del PedsQL, y representaron el 33,2 % de la varianza total. Cabe destacar que, tras tener en cuenta los efectos de todas las demás variables, las puntuaciones de la capacidad de lenguaje receptivo y expresivo no fueron predictores significativos de ninguna puntuación del SDQ (es decir, ni de la puntuación total ni de ninguna de las subescalas). En el caso del PedsQL, las capacidades auditivas funcionales y las capacidades lingüísticas pragmáticas fueron los únicos predictores significativos de las puntuaciones totales, representando el 24,9 % de la varianza total.

CONCLUSIONES E IMPLICACIONES PARA LA INTERVENCIÓN

Las investigaciones sobre el funcionamiento psicosocial de los niños en cada uno de los tres intervalos de edad del estudio LOCHI aquí revisadas sugieren de una manera sistemática una relación entre las capacidades lingüísticas y comunicativas y las habilidades de los niños en el área psicosocial (Ching et al., 2021; Leigh, et al., 2015; Wong et al., 2017; Wong et al., 2018). Recordando que la génesis del estudio LOCHI se basó en la cuestión de si los resultados en el desarrollo de los niños con sordera/hipoacusia mejoraban con una identificación y una intervención más tempranas, merece la pena destacar que no se evidenció tal relación en el caso del desarrollo psicosocial en los análisis revisados en este documento. Lo que está claro, sin embargo, es que el desarrollo del lenguaje y de la comunicación se ve afectado por la edad a la que se inicie la intervención. Ching et al. (2017) describen cómo, en el intervalo de edad de 5 años, los niños cuya intervención había comenzado a los 3 meses tenían unas habilidades lingüísticas significativamente mejores que aquellos cuya intervención había comenzado a los 12 o 24 meses, con una magnitud del efecto que aumentaba con la severidad de la pérdida auditiva, en concreto, en el caso de los niños que recibían IC. De hecho, en promedio, los niños que habían recibido su primer IC a los 24 meses mostraban unas puntuaciones medias de capacidad lingüística que se encontraban 21,4 puntos de puntuación estándar (es decir, 1,4 desviaciones típicas) por debajo de la puntuación media de los niños que habían recibido su primer IC a los 6 meses. Considerando las relaciones entre las capacidades lingüísticas y las capacidades psicosociales, es evidente que, indirecta-

mente a través de la mejora de las capacidades lingüísticas, la intervención temprana afecta al desarrollo psicosocial y a la calidad de vida.

Lo que queda más claro con los resultados obtenidos en los intervalos de edad del estudio LOCHI es la importancia de las habilidades funcionales del lenguaje y de la comunicación para predecir las capacidades y las dificultades psicosociales. En cada uno de los intervalos de edad de 3, 5 y 9 años, las habilidades comunicativas funcionales, tal y como se evidencian en las puntuaciones de los niños en el PEACH, mostraron una asociación positiva significativa con las habilidades psicosociales y, en última instancia, con la calidad de vida. Además, se demostró que las capacidades lingüísticas pragmáticas (un indicador importante de la capacidad lingüística funcional) también explican una varianza positiva significativa en las habilidades psicosociales de los niños. No obstante, si bien las capacidades lingüísticas estructurales (es decir, las habilidades morfosintácticas y el vocabulario) son fundamentales para el desarrollo de buenas capacidades lingüísticas funcionales, la relación entre estas últimas y el desarrollo psicosocial de los niños ha demostrado ser especialmente sólida. De hecho, en el intervalo de edad de 9 años, las capacidades lingüísticas estructurales no fueron predictores significativos de las puntuaciones en el SDQ o en la CdV después de tener en cuenta los efectos del desempeño auditivo funcional y las capacidades lingüísticas pragmáticas.

Los hallazgos resumidos en esta revisión merecen una atención especial a la hora de determinar las estrategias de intervención en el desarrollo del lenguaje y la comunicación de los niños. Sugieren varias consideraciones críticas para la intervención temprana y los esfuerzos educativos continuos con niños con sordera/hipoacusia, entre ellas: (a) realizar una evaluación de las habilidades lingüísticas y comunicativas de los niños (especialmente sus capacidades comunicativas funcionales) a una edad lo más temprana posible; (b) utilizar estrategias basadas en la evidencia para desarrollar y/o paliar los retrasos o dificultades tanto en las capacidades lingüísticas estructurales como en las funcionales; y (c) garantizar que existan estrategias de evaluación apropiadas para identificar a los niños en riesgo de experimentar dificultades psicosociales o psicológicas significativas, de modo que se pueda realizar una derivación oportuna para la intervención de especialistas y mitigar este riesgo.

AGRADECIMIENTOS

Damos las gracias a los niños y a sus familias por su participación en el estudio LOCHI y agradecemos las contribuciones de Patricia Van Buynder, Laura Button, Christopher Flynn, Louise Martin, Vicky Zhang, Sanna Hou, Vivienne Marnane, Jessica Whitfield, Miriam Gunnourie, Lauren Burns y Karen McGhie en el reclutamiento y en la recopilación de los datos, y de Cara Wong en el análisis de los datos. Agradecemos el apoyo de los programas de intervención temprana, las escuelas y las clínicas de IC que proporcionaron servicios a los niños, así como el apoyo administrativo y de infraestructuras proporcionado por los National Acoustic Laboratories y Hearing Australia.

FINANCIACIÓN

Esta investigación ha sido financiada en parte por el National Institute on Deafness and Other Communication Disorders of the National Institutes of Health (NIDCD/NIH) con la subvención R01DC008080. El contenido es responsabilidad de los autores y no representa necesariamente las opiniones oficiales del Instituto o de los NIH. El proyecto también contó con el apoyo parcial de la Commonwealth de Australia a través de la Office of Hearing Services y el HEARing Cooperative Research Centre.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

Allen, C., Nikolopoulos, T. P., Dyar, D., & O'Donoghue, G. M. (2001). Reliability of a rating scale for measuring speech intelligibility after pediatric cochlear implantation. *Otology and Neurotology, 22*, 631–633. https://doi.org/10.1097/00129492-200109000-00012

Bishop, D.V. (2003). *The Children's Communication Checklist: Volume 2*. London: Psychological Corporation London.

Castellanos, I., Kronenberger, W. G., & Pisoni, D. B. (2018). Psychosocial outcomes in long-term cochlear implant users. *Ear and Hearing, 39*(3), 527–539.
https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000000504

Ching, T. Y. C., Cupples, L., Leigh, G., Hou, S., & Wong, A. (2021). Predicting quality of life and behavior and emotion from functional auditory and pragmatic language abilities in 9-year-old deaf and hard-of-hearing children. *Journal of Clinical Medicine,10*(22), 5357.
https://doi.org/10.3390/jcm10225357

Ching, T. Y. C., Dillon, H., Button, L., Seeto, M., Van Buynder, P., Marnane, V., Cupples, L., & Leigh, G. (2017). Age at intervention for permanent hearing loss and 5-year language outcomes. *Pediatrics, 140*(3), e20164274. https://doi.org/10.1542/peds.2016-4274

Ching, T. Y., Leigh, G., & Dillon, H. (2013). Introduction to the Longitudinal Outcomes of Children with Hearing Impairment (LOCHI) study: Background, design, sample characteristics. *International Journal of Audiology, 52*(S2), S4–S9.
https://doi.org/10.3109/14992027.2013.866342

Ching, T. Y., & Hill, M. (2007). The Parents' Evaluation of Aural/Oral Performance of Children (PEACH) scale: Normative data. *Journal of the American Academy of Audiology, 18*, 220–235.
https://doi.org/10.3766/jaaa.18.3.4

Fellinger, J., Holzinger, D., Sattel, H., & Laucht, M. (2008). Mental health and quality of life in deaf pupils. *European Child and Adolescent Psychiatry, 17*(7), 414–423.
https://doi.org/10.1007/s00787-008-0683-y.

Fellinger, J., Holzinger, D., Sattel, H., Laucht, M., & Goldberg, D. (2009). Correlates of mental health disorders among children with hearing impairments. *Developmental Medicine and Child Neurology, 51*(8), 635–641. https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2008.03218.x

Freeman, V., Pisoni, D. B., Kronenberger, W. G., & Castellanos, I. (2017). Speech intelligibility and psychosocial functioning in deaf children and teens with cochlear implants. *Journal of Deaf Studies and Deaf Education, 22*, 278–289. https://doi.org/10.1093/deafed/enx001

Goodman, R. (1997). The Strengths and Difficulties Questionnaire. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, 38*(5), 581–586.
https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.1997.tb01545.x

Hindley, P. A., Hill, P. D., McGuigan, S., & Kitson, N. (1994). Psychiatric disorder in deaf and hearing-impaired children and young people: A prevalence study. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, 35*(5), 917-34. https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.1994.tb02302.x

Ireton, H. (2005). *Child Development Inventory*. Minneapolis, MN: Child Development Review.

Kennedy, C. R., McCann, D. C., Campbell, M. J., Law, C. M., Mullee, M., Petrou, S., Watkin, P., Worsfold, S., Yuen, H. M., & Stevenson, J. (2006). Language ability after early detection of permanent childhood hearing impairment. *New England Journal of Medicine, 354*, 2131–2141.
https://doi.org/10.1056/NEJMoa054915

Korver, A. M., Konings, S., Dekker, F. W., Beers, M., Wever, C. C., Frijns, J. H., Oudesluys-Murphy, A. M., & DECIBEL Collaborative Study Group. (2010). Newborn hearing screening vs. later hearing screening and developmental outcomes in children with permanent childhood hearing impairment. *Journal of the American Medical Association, 304*, 1701–1708. https://doi.org/10.1001/jama.2010.1501

Leigh, G. (2006). UNHS in Australia: We've come a long way! *Audiology Now, 27*, 49–51.

Leigh, G., Ching, T. Y., Crowe, K., Cupples, L., Marnane, V., & Seeto, M. (2015). Factors affecting psychosocial and motor development in 3-year-old children who are deaf or hard of hearing. *Journal of Deaf Studies and Deaf Education, 20*(4), 331–342. https://doi.org/10.1093/deafed/env028

Moeller, M. P. (2000). Early intervention and language development in children who are deaf and hard of hearing. *Pediatrics, 106*, 1–9. https://doi.org/10.1542/peds.106.3.e43

Nelson, H. D., Bougatsos, C., & Nygren P. (2008). Universal newborn hearing screening: Systematic review to update the 2001 US Preventive Services Task Force recommendation. *Pediatrics, 122*, e266–276. https://doi.org/10.1542/peds.2007-1422

Overgaard, K. R., Oerbeck, B., Wagner, K., Friis, S., Ohre, B., & Zeiner, P. (2021). Youth with hearing loss: Emotional and behavioral problems and quality of life. *International Journal of Pediatric. Otorhinolaryngology, 145*, 110718. https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2021.110718

Semel, E., Wiig, E. H., Secord, W. (2003). *Clinical Evaluation of Language Fundamentals, 4th ed.; Australian Standardised Edition (CELF-4 Australian)*. Marrickville, Australia: Harcourt Assessment.

Stika, C. J., Eisenberg, L. S., Carter, A.S.; Johnson, K. C.; Hammes Ganguly, D. M., Henning, S. C., & DesJardin, J. L. (2021). Developmental outcomes in early-identified children who are hard of hearing at 2 to 3 years of age. *Ear and Hearing, 42*(5), 1238–1252. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000001012

Theunissen, S., Rieffe, C., Kouwenberg, M., De Raeve, L., Soede, W., Briaire, J. J., & Frijns, J. H. (2012). Anxiety in children with hearing aids or cochlear implants compared to normally hearing controls. *The Laryngoscope, 122*(3), 654–659. https://doi.org/10.1002/lary.22502

Theunissen, S., Rieffe, C., Kouwenberg, M., De Raeve, L. J., Soede, W.,

Briaire, J. J., & Frijns, J. H. (2014a). Behavioral problems in school-aged hearing-impaired children: The influence of sociodemographic, linguistic, and medical factors. *European Child and Adolescent Psychiatry, 23*(4), 187–196. https://doi.org/10.1007/s00787-013-0444-4

Theunissen, S., Rieffe, C., Netten, A. P., Briaire, J. J., Soede, W., Schoones, J. W., & Frijns, J. H. (2014b). Psychopathology and its risk and protective factors in hearing-impaired children and adolescents: A systematic review. *JAMA Pediatrics, 168*(2), 170–177. https://doi.org/10.1001/jamapediatrics.2013.3974

Varni, J. W., Seid, M., & Kurtin, P. S. (2001). PedsQL 4.0: Reliability and validity of the Pediatric Quality of Life Inventory version 4.0 generic core scales in healthy and patient populations. *Medical Care, 39*(8), 800–812. https://doi.org/10.1097/00005650-200108000-00006

Varni, J. W., Burwinkle, T.M., Seid, M., & Skarr, D. (2003). The PedsQL 4.0 as a pediatric population health measure: feasibility, reliability, and validity. *Ambulatory Pediatrics, 3*, 329-341. https://doi.org/10.1367/1539-4409(2003)003<0329:TPAAPP>2.0.CO;2

Wechsler, D., & Naglieri, J. (2006). *Wechsler Nonverbal Scale of Ability*. San Antonio, TX: Harcourt Assessment. https://doi.org/10.1037/t15176-000

Wong, C. L., Ching, T. Y. C., Cupples, L., Button, L., Leigh, G., Marnane, V., Whitfield, J., Gunnourie, M., & Martin, L. (2017). Psychosocial development in 5-year-old children with hearing loss using hearing aids or cochlear implants. *Trends in Hearing, 21*, 1–19. https://doi.org/10.1177/2331216517710373

Wong, C. L., Ching, T. Y., Leigh, G., Cupples, L., Button, L., Marnane, V., Whitfield, J., Gunnourie, M., & Martin, L. (2018). Psychosocial development of 5-year-old children with hearing loss: Risks and protective factors. *International Journal of Audiology, 57*(SUP2), S81–S92. https://doi.org/10.1080/14992027.2016.1211764

Yoshinaga-Itano, C., Sedey, A. L., Coulter, D. K. & Mehl, A. L. (1998). Language of early- and later-identified children with hearing loss. *Pediatrics, 102*, 161–1171. https://doi.org/10.1542/peds.102.5.1161

Zaidman-Zait, A., & Most, T. (2020). Pragmatics and peer relationships among deaf, hard of hearing, and hearing adolescents. *Pediatrics, 146*, S298–S303. https://doi.org/10.1542/peds.2020-0242J

Zimmerman, I. L., Steiner, V. G., & Pond, R. E. (2002). *Preschool language scale (vol. 3)*. San Antonio, TX: Psychological Corporation.

JUGUEMOS Y HABLEMOS: VINCULACIÓN DE LAS CAPACIDADES LINGÜÍSTICAS Y DEL JUEGO SIMBÓLICO DE LOS NIÑOS

Louise Paatsch, Ph.D., Andrea Nolan, Ph.D. y Natalie Robertson, Ph.D.
Deakin University School of Education, Faculty of Arts & Education

El juego, aunque sea complejo, es esencial para el aprendizaje y el desarrollo de los niños. Está bien establecido en la literatura la existencia de un gran vínculo entre las capacidades del juego simbólico o de simulación de los niños y sus habilidades lingüísticas, especialmente en relación con el uso del lenguaje en contextos sociales. En el caso de muchos niños con sordera/hipoacusia, las capacidades lingüísticas y del juego de simulación suelen sufrir un retraso, lo que pone de relieve el importante papel de los adultos a la hora de apoyar estas habilidades. Para muchos educadores que trabajan con niños pequeños con sordera/hipoacusia, la atención se suele centrar más en apoyar la comunicación y el lenguaje, y menos en el juego. Sostenemos que el juego proporciona un contexto propicio y auténtico que refuerza tanto las capacidades lingüísticas como las del juego de simulación, y que muchos educadores necesitan una formación profesional que les permita adquirir conocimientos e implementar un enfoque basado en el juego para apoyar el lenguaje y el juego de simulación de los niños. En este artículo se esbozan las características clave del juego de simulación y se destaca la relación entre el juego de simulación y el lenguaje. Asimismo, se presentan los hallazgos de varios estudios de investigación recientes, incluidos los resultados de un estudio cualitativo en el que se puso en práctica un programa de aprendizaje profesional de apoyo a los educadores para implementar un enfoque basado en el juego y destinado a fomentar las capacidades de juego y lingüísticas de los niños pequeños con sordera/hipoacusia.

CAPACIDADES DE LENGUAJE HABLADO DE LOS NIÑOS CON SORDERA/HIPOACUSIA

El lenguaje es un sistema complejo de símbolos que se comparten social y culturalmente para ayudarnos a transmitir nuestras ideas, pen-

samientos, necesidades y deseos con otras personas en nuestro mundo (Paatsch y Nolan, 2020). El lenguaje se desarrolla a través de un proceso multifacético y dinámico que implica el dominio de las reglas de combinación de estos símbolos, tanto en la forma expresiva como en la receptiva (Creaghe, 2020; Paatsch et al., 2023, Pruden et al., 2006). Los niños aprenden el lenguaje cuando están expuestos a entornos frecuentes, propicios, significativos y socialmente interactivos, con el apoyo de usuarios del lenguaje más sofisticados, como son los cuidadores y los maestros (Beiting et al., 2022). Unas capacidades lingüísticas sólidas, en especial el uso del lenguaje en contextos sociales (lo que se conoce como pragmática), son fundamentales para el éxito en las interacciones sociales. La pragmática desempeña un papel fundamental en la capacidad del niño para participar en contextos sociales como el hogar, el preescolar, la escuela y la comunidad en general (Paul et al., 2020), e incluye habilidades como la toma de turnos, el uso de la mirada, la adopción de la perspectiva de los demás y la capacidad de tener en cuenta las contribuciones realizadas por otras personas en la interacción. En conjunto, estas habilidades pragmáticas implican la interacción compleja de capacidades cognitivas, habilidades lingüísticas y conciencia social (Toe et al., 2019). Por lo tanto, no es sorprendente que los resultados del lenguaje tengan una gran vinculación con el éxito académico y las capacidades sociales y emocionales, y se reconoce que son el mejor predictor de la preparación escolar y el éxito académico posterior (Hirsh-Pasek et al., 2015; Levine et al., 2016).

En los estudios de investigación se demuestra que muchos niños con sordera/hipoacusia corren el riesgo de sufrir retrasos en el lenguaje a pesar de la identificación temprana de la pérdida auditiva, la intervención temprana y el mayor acceso al lenguaje hablado a través de tecnologías auditivas más avanzadas, como los implantes cocleares y los audífonos (Paatsch y Toe, 2020; Paul et al., 2020). En concreto, muchos niños con sordera/hipoacusia que utilizan la Escucha y el Lenguaje Hablado como su principal modo de comunicación muestran un retraso en las habilidades pragmáticas, en comparación con sus compañeros con una audición normal, y tienen menos oportunidades de interacción con una amplia variedad de interlocutores conversacionales. Por ejemplo, las puntuaciones de los padres con respecto a las habilidades conversacionales de niños con audición normal y niños con sordera/hipoacusia de entre 12 y 36 meses señalan que, en promedio, las puntuaciones de los niños con sordera/

hipoacusia tienen más de dos desviaciones típicas por debajo de las puntuaciones de los niños con audición normal, con menos de un tercio dentro del rango normal (Nicholas, 2000). En los estudios de investigación en los que se estudia a niños con sordera/hipoacusia en la etapa escolar primaria también se destaca que sus habilidades pragmáticas a menudo difieren de las de sus compañeros con audición normal emparejados por edades (Church et al., 2017; Paatsch et al., 2017; Paul et al., 2020). En los hallazgos de estos estudios se muestra que algunos niños con sordera/hipoacusia son capaces de tomar turnos, solicitar aclaraciones, iniciar temas y responder a preguntas, pero no amplían los temas, retoman las conversaciones cuando existe una interrupción ni proporcionan respuestas que tengan en cuenta las contribuciones del interlocutor. Estos hallazgos sugieren que los retrasos en el lenguaje pragmático de muchos niños con sordera/hipoacusia pueden dar lugar a dificultades sociales a la hora de entablar amistad con sus compañeros y participar en las actividades del aula.

Los investigadores defienden la necesidad de proporcionar a los niños pequeños con sordera/hipoacusia oportunidades abundantes, propicias y auténticas de participar en interacciones significativas con una variedad de interlocutores durante las actividades cotidianas (Paatsch et al., 2017; Paatsch y Toe, 2020). Estas oportunidades proporcionan entornos propicios para que los niños con sordera/hipoacusia colaboren con los demás, tomen turnos, comprendan y utilicen las señales verbales y no verbales apropiadas y necesarias para el desarrollo del lenguaje, adopten la perspectiva de otras personas, reconozcan las contribuciones de los demás durante las interacciones y faciliten respuestas a sus interlocutores. Sostenemos que un contexto crítico y natural para apoyar las capacidades lingüísticas de los niños con sordera/hipoacusia es el juego, especialmente el juego de simulación.

JUEGO DE SIMULACIÓN

La definición del juego, tan difícil como compleja, ha suscitado un gran debate e interés entre investigadores, filósofos, maestros, legisladores y progenitores durante siglos. No obstante, a pesar de la dificultad de aceptar una definición universal, existe un consenso creciente de que el juego es una actividad intrínsecamente motivada, divertida y social, que implica un descubrimiento gozoso y es fundamental para el aprendizaje y el desarrollo de los niños (Yogman et al.,

2018; Zosh et al., 2028). Vygotsky (1967) teoriza que es a través del juego que los niños aprenden a usar su imaginación, a crear, a experimentar y a descubrir, especialmente cuando juegan con otros más competentes en estas habilidades. De esta manera, los niños participan en interacciones sociales donde se crea una zona de desarrollo próximo (ZDP), que es la diferencia entre el nivel actual de su desempeño independiente y el nivel en el que pueden aprender cuando reciben el apoyo de compañeros y adultos más competentes.

Yogman y colaboradores (2018) opinan que «el juego no es frívolo, sino que mejora la estructura y la función cerebrales, y fomenta la función ejecutiva (es decir, el proceso de aprendizaje), lo que nos permite perseguir metas e ignorar distracciones» (pág. 1). Existen numerosos tipos diferentes de juegos en los que los niños pueden participar, como los juegos de construcción (p. ej., construir una nave espacial con bloques), los juegos motores físicos o gruesos (p. ej., trepar y correr), los juegos visuales-perceptivos, los juegos con reglas (p. ej., el pillapilla) y los juegos de simulación (p. ej., el uso de símbolos en el juego). El juego de simulación, también conocido como juego simbólico, imaginativo y social, se refiere al «uso no literal de objetos, acciones o atributos... que parece desarrollarse según un programa relativamente fijo y está presente en todas las culturas» (Creaghe et al., 2021, pág. 981). El juego de simulación implica muchos comportamientos distintivos de los niños que incluyen: (1) la sustitución de objetos, en la que utilizan un objeto por otro [p. ej., un palo por una persona; un bloque por una computadora]; (2) el juego de roles, en el que pueden representar el papel de un personaje en el juego [p. ej., una persona o un animal]; (3) las secuencias de juego, en las planifican una serie de acciones en su juego que se vuelven más complejas con el tiempo; (4) los guiones de juego, en los que desarrollan historias con uno o varios problemas y resoluciones que pueden comenzar reflejando lo que hacen (p. ej., simular que se toman una bebida) para luego pasar a historias más complejas; y (5) personajes en el juego, donde utilizan muñecas y figuras para expresar emociones y mostrar una comprensión de los estados mentales de otras personas (Elkonin, 2005; Robertson et al., 2020; Stagnitti y Paatsch, 2018). En conjunto, estas habilidades de juego de simulación implican pensamiento de orden superior, creatividad, imaginación, teoría de la mente, autorregulación, autoconciencia y resolución de problemas, todas ellas habilidades fundamentales para el aprendizaje de las habilidades del

siglo XXI (Yogman et al., 2018). Además, el juego de simulación crea una sensación de seguridad, lo que reduce el estrés y la ansiedad, y prepara a los niños para el aprendizaje (Hirsch-Pasek, 2024; Paatsch et al., 2023).

VÍNCULO ENTRE EL JUEGO DE SIMULACIÓN Y EL LENGUAJE

Existe un importante corpus de investigación en el que se muestra la existencia de un vínculo estrecho entre el juego de simulación y la adquisición del lenguaje, que conducirá al desarrollo posterior de la lectoescritura, que incluye la comprensión y el uso del lenguaje narrativo (Creaghe et al., 2021; Lillard et al., 2013). Tanto el lenguaje como el juego, en concreto el juego de simulación, comparten numerosas similitudes conceptuales, entre ellas la comprensión y el uso de símbolos complejos, y la dependencia de la comunicación dentro de contextos sociales (Creaghe y Kidd, 2022; Quinn et al., 2018). Además, ambas actividades dependen del apoyo y el «andamiaje» de usuarios y actores competentes del lenguaje (Creaghe y Kidd, 2022; Creaghe et al., 2021; Paatsch et al., 2023; Quinn et al., 2018).

En un estudio reciente de Stagnitti y colaboradores (2020) se investigó la relación entre las habilidades en el juego de simulación y las habilidades del lenguaje hablado de 30 niños con audición normal al comienzo de su primer año de escolarización formal. Los resultados muestran que el hecho de ser capaces de sustituir objetos por otra cosa, en concreto utilizar muchos objetos para crear un objeto nuevo o utilizar cualquier objeto para cualquier cosa en el juego, predecía las capacidades generales del lenguaje receptivo y expresivo de los niños. En un estudio realizado por Kizildere et al. (2020) se observaron vínculos similares entre el juego de simulación y las habilidades lingüísticas generales, y se descubrió que las habilidades en el juego de simulación de 119 niños a los 4 años predecían sus habilidades de lenguaje receptivo a los 5 años (en la etapa de preescolar). En otros estudios de investigación realizados con niños con audición normal también se observa el vínculo estrecho entre el juego de simulación y habilidades lingüísticas específicas como el desarrollo semántico, incluyendo el vocabulario, la resolución de problemas semánticos y el uso de palabras de estado mental (Creaghe et al., 2021; Melzer y Palermo, 2016); la sintaxis, incluido el conocimiento gramatical (Creaghe et al., 2021; Stagnitti et al., 2016); y el desarrollo pragmático, incluyendo el desarrollo narrativo, la toma de turnos y la

interacción social (Creaghe et al., 2021; Fekonja et al., 2005; Holmes et al., 2022).

También se han notificado relaciones similares entre el juego de simulación y las habilidades lingüísticas en niños con sordera/hipoacusia. Spencer (1996) investigó la asociación entre el juego de simulación (simbólico) y el lenguaje expresivo en tres grupos de niños de 2 años: (1) niños con sordera y padres con audición normal; (2) niños con sordera y padres con sordera; y (3) niños con audición normal y padres con audición normal. Los resultados mostraron un patrón sistemático de asociación entre los niveles del lenguaje y el juego simbólico, pero no entre el juego y el estado de audición, lo que confirma el vínculo estrecho entre el lenguaje expresivo y el juego. Brown y colaboradores (2001) investigaron la relación entre el juego de simulación y la producción de palabras en 10 niños con audición normal y 10 niños con sordera/hipoacusia a la edad de 28, 29 y 30 meses. Los resultados mostraron una asociación entre la producción de palabras y los niveles de juego de simulación en ambos grupos, con niveles más bajos de lenguaje y habilidades de juego evidentes en el grupo de niños con sordera/hipoacusia. Conclusiones similares de retraso en el juego de simulación y el aprendizaje de palabras se notificaron en un estudio posterior de Quittner et al. (2016). Específicamente, los niños con implantes cocleares que recibieron los implantes después de los 2 años mostraban un retraso en el logro del juego de simulación y el aprendizaje de sustantivos nuevos en comparación con otros niños con audición normal de la misma edad. En un estudio reciente de Da Silva et al. (2022) en el que se investigaron las interacciones sociales de 12 preescolares con sordera/hipoacusia durante el recreo, los resultados mostraron que estos niños pasaban menos tiempo en interacciones sociales en comparación con sus compañeros con audición normal. En concreto, estos niños evitaban los juegos de simulación y mostraban una elevada prevalencia de quedarse mirando durante el recreo, lo que sugiere que pueden experimentar aislamiento social y dificultades para entablar amistades. Este vínculo entre el desarrollo sociocognitivo, el uso social del lenguaje y las habilidades del juego de simulación también se comparó en un grupo de 82 niños con sordera/hipoacusia y 91 compañeros con audición normal, con edades comprendidas entre los 3 y los 8 años (Sidera et al., 2019). Los resultados mostraron que el grupo de niños con sordera/hipoacusia tenía dificultades para comprender las emociones fingidas, lo que

estaba estrechamente relacionado con sus habilidades pragmáticas y de vocabulario expresivo.

En conjunto, estos hallazgos destacan la importancia del juego de simulación como un contexto fértil para apoyar el desarrollo lingüístico y comunicativo de los niños pequeños, ya que participan en amplias interacciones significativas con los demás. No obstante, las implicaciones de estos hallazgos enfatizan la necesidad de que los maestros, los profesores de sordos y los profesionales de la salud relacionados comprendan la importancia del juego de simulación y las formas en que pueden ayudar a los niños a desarrollar habilidades de juego que fomenten el aprendizaje del lenguaje. En las siguientes secciones se presenta un ejemplo de cómo un programa de aprendizaje profesional adaptado ayudó al personal de una escuela para niños pequeños con sordera/hipoacusia a adquirir conocimientos, aplicar un enfoque basado en el juego y cambiar la práctica.

INCORPORACIÓN DE UN ENFOQUE BASADO EN EL JUEGO PARA APOYAR EL DESARROLLO DEL LENGUAJE DE LOS NIÑOS PEQUEÑOS CON SORDERA/HIPOACUSIA

Antecedentes

Este proyecto de investigación de tres años, *Teachers Deliberating Practice (Maestros deliberando sobre la práctica)*, lo realizaron investigadores de la Deakin University, Australia, (Nolan, Paatsch y Robertson) en colaboración con el personal de una escuela para niños con sordera/hipoacusia con edades comprendidas entre el nacimiento y los 7 años. En concreto, la dirección del centro se puso en contacto con los investigadores para ayudarles a integrar en su centro un enfoque de la enseñanza y el aprendizaje basado en el juego como contexto para apoyar el desarrollo de la comunicación y el lenguaje de los niños con sordera/hipoacusia.

Objetivos del proyecto de investigación

El objetivo de este proyecto era establecer una cultura de investigación en la escuela que apoyara la adquisición de conocimientos y condujera a un cambio de prácticas en relación con un enfoque lúdico de la enseñanza y el aprendizaje. En concreto, el proyecto se centró en apoyar a los

maestros, los profesores de sordos, los educadores, el personal de apoyo y los profesionales de la salud asociados para que adquirieran conocimientos sobre el juego de simulación y el lenguaje, ya que habían incorporado un enfoque basado en el juego en toda la escuela. Además, en el proyecto se aplicó el enfoque de Investigación-acción participativa (IAP; Kemmis y McTaggart, 2005) para ayudar a los maestros a investigar su propia práctica y documentar cualquier cambio en la misma como resultado de la aplicación de un enfoque basado en el juego.

Contexto del estudio

La escuela ofrece programas para niños con sordera/hipoacusia y sordociegos desde el diagnóstico hasta los 7 años en todo el estado de Victoria, Australia. Los programas incluyen intervención temprana, educación temprana que incluye jardín de infancia y primer año de escolarización, y un jardín de infancia comunitario inclusivo de 3-4 años para niños con sordera/hipoacusia y audición normal. El personal de la escuela incluye maestros, educadores, profesores de sordos, personal de apoyo y profesionales sanitarios asociados, como fonoaudiólogos, trabajadores sociales y fisioterapeutas.

El programa

El proyecto de investigación constaba de tres fases: (1) comprensión y adquisición de conocimientos; (2) práctica de investigación; y (3) adquisición de capacidades para un programa sostenible.

La primera fase se centró en la adquisición de conocimientos por parte del personal en las áreas de juego y lenguaje. En concreto, el primer taller, en el que participaron 60 miembros del personal, incluyó la adquisición de conocimientos sobre los tipos y principios del juego, centrándose en el juego de simulación, la relación entre el juego y el aprendizaje, los componentes del lenguaje y la interacción entre el lenguaje y el juego. El segundo taller consistió en la adquisición de conocimientos por parte del personal sobre su papel en el apoyo al juego y el lenguaje de los niños, la reflexión sobre sus propios patrones de habla que facilitan el aprendizaje del lenguaje y los principios de la aplicación de un enfoque basado en el juego.

En la segunda fase del proyecto de investigación participaron 30 miembros del personal en tres talleres online y dos talleres presenciales de un día de duración. Los objetivos de esta fase eran dar a conocer al

personal la evaluación del juego y el proceso de cuatro pasos del enfoque de IAP (observar, reflexionar, planificar y actuar), así como trabajar con ellos para diseñar un proyecto de investigación en torno a un estudio de caso de un niño de su clase. Se incluyó el desarrollo de una pregunta de investigación para explorar su propia práctica en el apoyo al lenguaje de los niños con un enfoque basado en el juego. La exploración incluyó la realización de evaluaciones, la grabación en video de sus prácticas, la recopilación de pruebas, la reflexión y la planificación de la implementación. El personal completó tres ciclos del proceso de cuatro pasos del enfoque de IAP como parte de su propio proyecto de investigación. Al final del tercer ciclo, el personal participó en una «Muestra de prácticas» en la que cada miembro del personal presentó al resto del personal los resultados de su IAP.

La tercera fase del proyecto incluyó cuatro talleres presenciales de un día de duración en la escuela para desarrollar la capacidad de sostenibilidad del programa en el futuro. El personal y los investigadores elaboraron un documento de trabajo que incorporaba el contenido y los recursos introducidos y desarrollados durante las dos primeras fases. En concreto, se elaboró conjuntamente un documento titulado «Juego y práctica: conectando el juego y el lenguaje» para la escuela, que incluía pruebas de investigación y documentos de planificación y evaluación del profesorado específicos para el juego y el lenguaje, así como formas de apoyar un enfoque basado en el juego en la escuela. Otras secciones del documento incluían consideraciones clave para la implementación del IAP y formas de trabajar con colegas en el marco de un enfoque de práctica transdisciplinar.

Los resultados

A lo largo de las tres fases del proyecto de investigación, el personal debatía constantemente su creciente comprensión del juego y el lenguaje. Al final de la segunda fase, se invitó al personal a cumplimentar una encuesta online con el fin de compartir sus aprendizajes como resultado del proyecto. Los resultados generales mostraron que, si bien «había mucho que aprender de todos estos talleres», el personal había adquirido una mayor comprensión de las formas en que se pueden apoyar las capacidades de juego y lenguaje de los niños con sordera/hipoacusia a través de un enfoque basado en el juego. En concreto, el personal señaló que «el juego es una parte integral del desarrollo de las habilidades

comunicativas» y que «las oportunidades de juego están en todas partes». El personal también destacó los numerosos elementos de la fase dos que apoyaron su aprendizaje, incluyendo el «nuevo conocimiento y su puesta en práctica», «el proceso de análisis de videos y la redefinición de la pregunta de investigación», «disponer de tiempo para ver videos, debatir y planificar con colegas», y «que el ciclo de investigación-acción me permite reflexionar críticamente sobre mi práctica y, a continuación, implementar un plan que sea específico para mis alumnos».

El personal también comentó el valor de la «Muestra de prácticas». Un miembro del personal comentó que «me encantó conocer las perspectivas de mis compañeros sobre cómo es el juego en sus espacios individuales y cómo la reflexión continua es clave para mejorar nuestros programas y apoyar a nuestros alumnos». Otros miembros del personal comentaron que las presentaciones les ayudaron a «articular lo que entendíamos», a «consolidar el aprendizaje» y a «apreciar el desarrollo de los alumnos en el juego y el lenguaje», mientras que otros afirmaron que escuchar a los colegas fue «interesantísimo», ya que «aprendimos mucho» a partir de «perspectivas diferentes».

También se invitó al personal a reflexionar sobre las diferencias que habían introducido en su práctica durante su participación en la fase 2. El personal apreció la importancia de crear un entorno de juego auténtico para animar a los niños a utilizar el lenguaje con sus compañeros y maestros, y la necesidad de «añadir el juego como parte de sus objetivos, no solo el lenguaje». Algunos también cambiaron sus prácticas para implicarse más con los niños. Como informó un miembro del personal: «reflexioné más sobre lo que estaba pasando, qué papel estaba desempeñando y cómo podía modificarlo para ayudar a los niños». Otro maestro comentó:

> «Era preciso que mi nivel de implicación en el juego de una alumna aumentase, ya que descubrí, al ver los videos de su juego, que necesitaba más modelado para ampliar su juego más allá de las escasas acciones repetitivas que conocía para un escenario determinado. De esta manera, en lugar de limitarme a preparar experiencias para que jugara con sus compañeros, me unía a ella en el juego y el modelado».

CONCLUSIÓN

En este documento se ha presentado la investigación relativa a las características clave del juego de simulación y la relación entre el juego de simulación y el lenguaje. Los hallazgos de la investigación también demuestran que muchos niños con sordera/hipoacusia a menudo presentan retrasos en sus habilidades de juego de simulación y lenguaje, y un gran número de investigadores destaca la necesidad de facilitar desarrollo profesional a las personas que trabajan con estos niños para apoyar estas habilidades. El presente proyecto de investigación que se describe en este documento pone de relieve un ejemplo de cómo los investigadores y el personal de una escuela de Victoria, Australia, trabajaron conjuntamente para adquirir conocimientos sobre el juego y el lenguaje, e implementarlos en la práctica. Los educadores, los profesores de sordos, el personal de apoyo educativo y los profesionales de la salud asociados valoraron el trabajo en equipo transdisciplinar para adquirir sus conocimientos, modificar la práctica actual y desarrollar un programa sostenible para todo el personal que trabajaba en la escuela. Este personal puede marcar la diferencia en el aprendizaje de los niños dedicando tiempo a adquirir conocimientos sobre las capacidades de los niños en el juego de simulación y las formas en que un enfoque basado en el juego proporciona un contexto propicio para el aprendizaje del lenguaje, y a reflexionar sobre sus propias prácticas desde una perspectiva basada en la evidencia. No obstante, es necesario seguir investigando los resultados específicos del juego de simulación y del lenguaje para los niños con sordera/hipoacusia y la relación entre estos resultados y la práctica de los maestros a la hora de implementar un enfoque basado en el juego.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

Beiting, M., Alper, R. M., Luo, R., & Hirsh-Pasek, K. (2022). Keep the ball rolling: Sustained multiturn conversational episodes are associated with child language ability. *American Journal of Speech-Language Pathology, 31*(5), 2186-2194. https://doi.org/10.1044/2022_AJSLP-21-00333

Brown, P. M., Rickards, F. W., & Bortoli, A. (2001). Structures underpinning pretend play and word production in young hearing children and children with hearing loss. *Journal of deaf studies and deaf education, 6*(1), 15-31. https://doi.org/10.1093/deafed/6.1.15

Church, A., Paatsch, L., & Toe, D. (2017). Some trouble with repair: Conversations between children with cochlear implants and hearing peers. *Discourse studies, 19*(1), 49-68. https://doi.org/10.1177/1461445616683592

Creaghe, N., & Kidd, E. (2022). Symbolic play as a zone of proximal development: An analysis of informational exchange. *Social Development, 31*(4), 1138-1156. https://doi.org/10.1111/sode.12592

Creaghe, N., Quinn, S., & Kidd, E. (2021). Symbolic play provides a fertile context for language development. *Infancy, 26*(6), 980-1010. https://doi.org/10.1111/infa.12422

DeLuzio, J. & Girolametto, L. (2011). Peer interactions of preschool children with and without hearing loss. *Journal of Speech, Language and Hearing Research, 54*(4):1197–1210. https://doi.org/10.1044/leader.FTR3.16112011.22

Da Silva, B. M., Rieffe, C., Frijns, J. H., Sousa, H., Monteiro, L., & Veiga, G. (2022). Being deaf in mainstream schools: The effect of a hearing loss in children's playground behaviors. *Children, 9*(7), 1091. https://doi.org/10.3390/children9071091

Elkonin, D. B. (2005). The psychology of play. *Journal of Russian & East European Psychology, 43*(1), 11-21. https://doi.org/10.1080/10610405.2005.11059245

Fekonja, U., Umek, L. M., & Kranjc, S. (2005). Free play and other daily preschool activities as a context for child's language development. *Studia psychologica, 47*(2), 103.

Hirsh-Pasek, K., Adamson, L. B., Bakeman, R., Owen, M. T., Golinkoff, R. M., Pace, A., ... & Suma, K. (2015). The contribution of early communication quality to low-income children's language success. *Psychological science, 26*(7), 1071-1083. https://doi.org/10.1177/0956797615581493

Hirsh-Pasek, K., Winthrop, R. & Shah, S., (2024). *Why play is serious work*, Brookings Institution. United States of America. Retrieved from https://policycommons.net/artifacts/12292262/why-play-is-serious-work/13186333/ on 14 May 2024. CID: 20.500.12592/mkkwpn5.

Holmes, R. M., Kohm, K., Genise, S., Koolidge, L., Mendelson, D., Romeo, L., & Bant, C. (2022). Is there a connection between children's language skills, creativity, and play? *Early Child Development and Care, 192*(8), 1178-1189. https://doi.org/10.1080/03004430.2020.1853115

Kemmis, S., & McTaggart, R. (2005). Participatory action research: Communicative action and the public sphere. In N. K. Denzin & Y. S.

Lincoln (Eds.), *The Sage handbook of qualitative research* (pp. 559–603). Sage Publications Ltd.

Kızıldere, E., Aktan-Erciyes, A., Tahiroğlu, D., & Göksun, T. (2020). A multidimensional investigation of pretend play and language competence: Concurrent and longitudinal relations in preschoolers. *Cognitive Development, 54*, 100870. https://doi.org/10.1016/j.cogdev.2020.100870

Levine, D., Strother-Garcia, K., Golinkoff, R. M., & Hirsh-Pasek, K. (2016). Language development in the first year of life: What deaf children might be missing before cochlear implantation. *Otology & Neurotology, 37*(2), e56-e62. https://doi.org/10.1097/MAO.0000000000000908

Lillard, A. S., Lerner, M. D., Hopkins, E. J., Dore, R. A., Smith, E. D., & Palmquist, C. M. (2013). The impact of pretend play on children's development: A review of the evidence. *Psychological Bulletin, 139*(1), 1. https://doi.org/10.1037/a0029321

Melzer, D. K., & Palermo, C. A. (2016). 'Mommy, You are the Princess and I am the Queen': How preschool children's initiation and language use during pretend play relate to complexity. *Infant and Child Development, 25*(2), 221-230. https://doi.org/10.1002/icd.1927

Nicholas J. G. (2000). Age differences in the use of informative/heuristic communicative functions in young children with and without hearing loss who are learning spoken language. *Journal of Speech, Language and Hearing Research, 43*(2): 380–394. https://doi.org/10.1044/jslhr.4302.380

Paatsch, L., Toe, D., & Church, A. (2017). Hearing loss and cochlear implantation. *Research in Clinical Pragmatics*, 411-439. https://doi.org/10.1007/978-3-319-47489-2_16

Paatsch, L., & Nolan, A. (2020). Supporting oral language learning in young children. In A. Kilderry & B. Raban (Eds.). *Strong Foundations: Evidence informing practice in early childhood education and care* (pp.156-169). ACER Press. https://doi.org/10.37517/978-1-74286-555-3_11

Paatsch, L., Casey, S., Green, A., & Stagnitti, K. (2023). *Learning Through Play in the Primary School: The Why and the How for Teachers and School Leaders*. Taylor & Francis.

Paatsch, L., & Toe, D. (2020). The impact of pragmatic delays for deaf and hard of hearing students in mainstream classrooms. *Pediatrics, 146* (Supplement_3), S292-S297. https://doi.org/10.1542/peds.2020-0242I

Paul, R., Paatsch, L., Caselli, N., Garberoglio, C. L., Goldin-Meadow, S., & Lederberg, A. (2020). Current research in pragmatic language use among deaf and hard of hearing children. *Pediatrics, 146*(Supplement_3), S237-S245. https://doi.org/10.1542/peds.2020-0242C

Pruden, S. M., Hirsh-Pasek, K., & Golinkoff, R. M. (2006). The social dimension in language development: A rich history and a new frontier. *The Development of Social Engagement: Neurobiological Perspectives*, 118-152. https://doi.org/10.1093/acprof:oso/9780195168716.003.0005

Quinn, S., Donnelly, S., & Kidd, E. (2018). The relationship between symbolic play and language acquisition: A meta-analytic review. *Developmental Review, 49*, 121-135. https://doi.org/10.1016/j.dr.2018.05.005

Quittner, A. L., Cejas, I., Wang, N. Y., Niparko, J. K., & Barker, D. H. (2016). Symbolic play and novel noun learning in deaf and hearing children: Longitudinal effects of access to sound on early precursors of language. *PloS one, 11*(5), e0155964. https://doi.org/10.1371/journal.pone.0155964

Robertson, N., Morrissey, A. M., & Moore, D. (2020). From boats to bushes: Environmental elements supportive of children's sociodramatic play outdoors. *Children's Geographies, 18*(2), 234-246. https://doi.org/10.1080/14733285.2019.1630714

Schirmer, B. R. (1989). Relationship between imaginative play and language development in hearing-impaired children. *American Annals of the Deaf 134*(3), 219-222. https://doi.org/10.1353/aad.2012.0609

Sidera, F., Morgan, G. & Serrat, E. (2019). Understanding pretend emotions in children who are deaf and hard of hearing. *The Journal of Deaf Studies and Deaf Education, 25*(2), pp. 141-152. https://doi.org/10.1093/deafed/enz040

Spencer, P. E. (1996). The association between language and symbolic play at two years: Evidence from deaf toddlers. *Child Development, 67*(3), 867-876. https://doi.org/10.2307/1131866

Stagnitti, K., & Paatsch, L. (2018). *The pretend play checklist for teachers.* Learn to Play. www.learntoplayevents.com

Stagnitti, K. E., Paatsch, L., Nolan, A., & Campbell, K. (2020). Identifying play skills that predict children's language in the beginning of the first year of school. *Early Years*, 1-15. https://doi.org/10.1080/09575146.2020.1865280

Toe, D., Paatsch, L., & Szarkowski, A. (2019). Assessing pragmatic skills using checklists with children who are deaf and hard of hearing: A systematic review. *The Journal of Deaf Studies and Deaf Education, 24*(3), 189-200. https://doi.org/10.1093/deafed/enz004

Vygotsky, L. S. (1967). Play and its role in the mental development of the child. *Soviet Psychology, 5*(3), 6–18. https://doi.org/10.2753/RPO1061-040505036

Yogman, M., Garner, A., Hutchinson, J., Hirsh-Pasek, K., & Golinkoff, R. M. (2018). The power of play: A pediatric role in enhancing development in young children. *Pediatrics, 142*(3). https://doi.org/10.1542/peds.2018-2058

IMPULSANDO EL DESARROLLO DEL LENGUAJE HABLADO A TRAVÉS DEL ACCESO AUDITIVO

Ryan McCreery, Ph.D.
Boys Town National Research Hospital

Los niños solo pueden desarrollar el lenguaje hablado si están expuestos a las señales acústicas que componen el habla y el lenguaje de una manera constante. Hasta hace poco, los niveles de audición obtenidos a través de un audiograma clínico eran la medida principal que se utilizaba para definir la audición normal, así como la presencia o el grado de pérdida auditiva de un niño. Si bien el audiograma clínico sigue siendo una medida diagnóstica importante para los audiólogos, el grado de pérdida auditiva del audiograma es un indicador poco fiable de la capacidad auditiva funcional de un niño, especialmente una vez que utiliza audífonos o implantes cocleares. La audibilidad del habla es una estimación del acceso de un niño a las señales acústicas que componen el lenguaje hablado y se utiliza actualmente para cuantificar con precisión los niveles de audición funcional de un niño con y sin dispositivos. En este artículo se analizan las limitaciones de la cuantificación del acceso auditivo basada en el audiograma clínico, así como los enfoques que existen para estimar la audibilidad del habla en el caso de los niños con pérdida auditiva.

El audiograma es una medida clínica de la sensibilidad auditiva basada en las respuestas conductuales de un niño a estímulos de banda estrecha o de tonos puros en un rango de frecuencias que es el más importante para la comprensión del habla. El audiograma también se puede estimar en base a las respuestas neuronales a estímulos de ráfaga de tonos o chirridos a partir de los potenciales evocados auditivos del tronco cerebral o de los potenciales evocados auditivos de estado estable en bebés o niños que no puedan realizar una prueba de audición conductual. El audiograma se puede dividir en rangos que cuantifican la cantidad o el grado de la pérdida auditiva. En la Figura 1 se muestra el audiograma de un niño con una pérdida auditiva leve en ambos oídos. El audiograma se suele utilizar para realizar un diagnóstico médico de la pérdida auditiva, aunque tiene algunas limitaciones funcionales, sobre todo para medir el impacto de la pérdida auditiva en la comunicación.

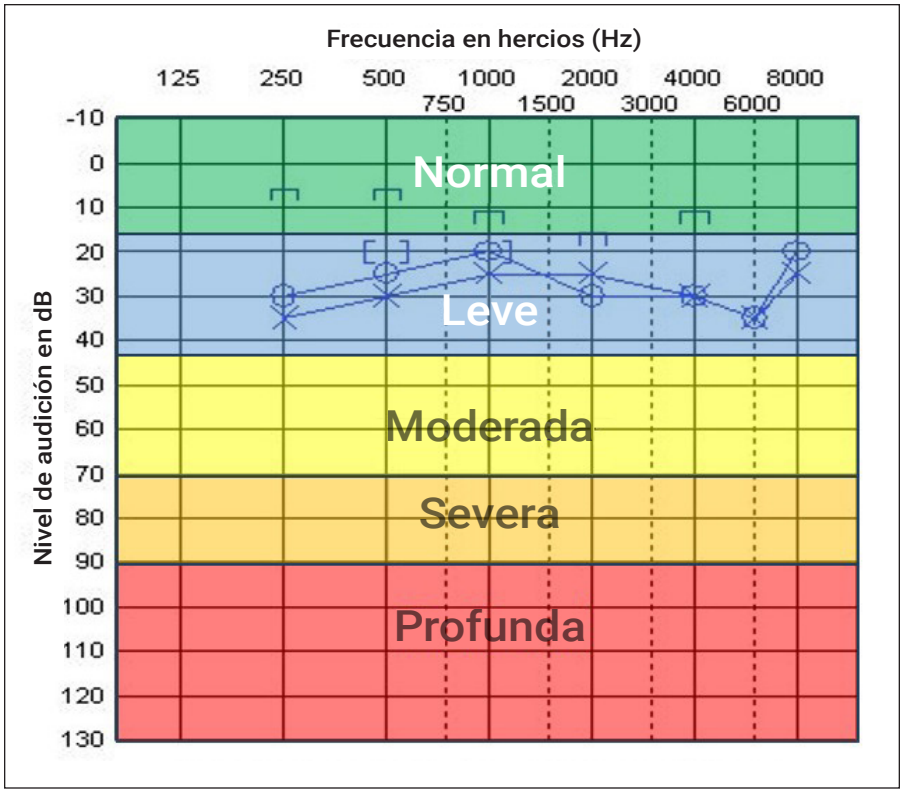

Figura 1. Audiograma de un niño con una pérdida auditiva leve en ambos oídos. Los círculos corresponden a los umbrales de audición del oído derecho y los triángulos a los del oído izquierdo. Los corchetes son los umbrales de conducción ósea. Las áreas sombreadas representan diferentes grados de pérdida auditiva: normal = verde; pérdida auditiva leve = azul; pérdida auditiva moderada = amarillo; pérdida auditiva severa = naranja; y pérdida auditiva profunda = rojo.

Si bien el audiograma mide los niveles de audición relacionados con las frecuencias de sonido discretas que son más importantes para comprender el habla, los estudios de investigación señalan que el grado de pérdida auditiva en el audiograma no es un predictor fiable del grado en que un niño con pérdida auditiva desarrollará el lenguaje hablado o rendirá académicamente en la escuela. En varios estudios se sugiere que los niños con grados leves de pérdida auditiva pueden tener un mayor riesgo de presentar un retraso en el lenguaje hablado (Walker et al., 2020) y dificultades académicas (Tomblin et al., 2020) que los niños con grados de pérdida auditiva moderados o mayores. Es mucho más probable que se pueda predecir el progreso del desarrollo de un niño con

pérdida auditiva a través del servicio de intervención que reciba que a partir del grado de pérdida auditiva obtenido de un audiograma. Por ejemplo, Walker y colaboradores (2015) descubrieron que los niños con pérdida auditiva bilateral leve que utilizaban audífonos de una manera sistemática presentaban unos resultados lingüísticos mucho mejores que los niños con pérdida auditiva bilateral leve que no los utilizaban. Del mismo modo, en el caso de los niños que utilizaban audífonos adaptados para optimizar su audibilidad del habla se apreció un mayor desarrollo del lenguaje (Tomblin et al., 2015) y de las habilidades de la función ejecutiva (McCreery y Walker, 2022), así como mejores resultados en matemáticas y lectura (Tomblin et al., 2020), en comparación con los niños con audífonos no adaptados. El grado de pérdida auditiva del audiograma no refleja estas diferencias en la intervención en caso de niños con pérdida auditiva.

Basándose en estos estudios de investigación, entre otros, nuestro equipo de investigación ha desarrollado nuevos métodos para cuantificar el acceso auditivo, es decir, métricas más útiles para los padres y los médicos que prestan servicio a los niños con pérdida auditiva y que muestran una mayor eficacia para predecir el riesgo y la resiliencia de los niños que utilizan audífonos.

AUDIBILIDAD DEL HABLA NO ASISTIDA

La audibilidad del habla no asistida es una medida que representa la proporción de energía del habla que un niño puede oír sin un audífono en una situación de escucha específica. La situación de escucha más habitual que utilizamos para estimar la audibilidad es el habla a un nivel conversacional medio cuando el interlocutor se encuentra a un metro de distancia frente al oyente, que es de aproximadamente 60 dB SPL. Se pueden utilizar los niveles de umbrales auditivos del audiograma para estimar la proporción de habla a un nivel conversacional medio que un niño puede oír con sus umbrales auditivos. En la Figura 2 se muestra el espectro del habla no asistida trazado con el audiograma del oído derecho del niño con pérdida auditiva leve-moderada de la Figura 1.

Se puede medir la cantidad de espectro del habla que se encuentre por encima de los umbrales del niño convirtiendo los umbrales del audiograma en dB SPL para poder compararlos directamente con el habla mediante un gráfico denominado SPL-o-grama (Figura 2). El SPL-o-grama nos permite visualizar qué parte de la señal del habla es

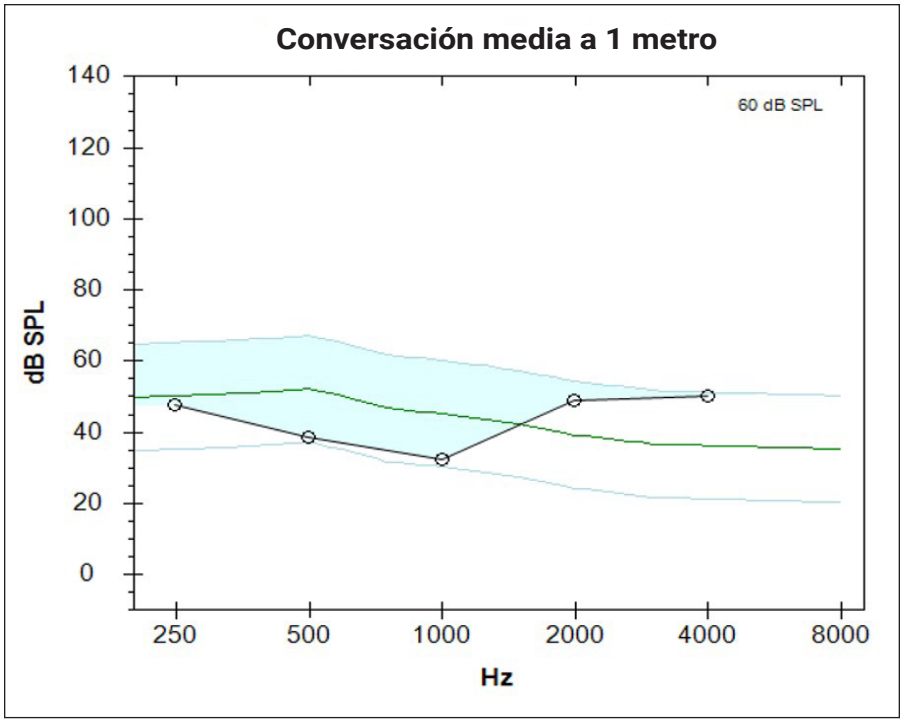

Figura 2. SPL-o-grama del oído derecho del niño con pérdida auditiva leve de la Figura 1. Téngase en cuenta que el eje y muestra la audición normal en la parte inferior y niveles sonoros crecientes a medida que aumenta el eje. Las frecuencias del audiograma permanecen en el eje x. Los círculos que conectan con la línea negra continua son los umbrales de audición del oído derecho convertidos a dB SPL. La línea verde representa el nivel medio del habla a 60 dB SPL a través de la frecuencia, y la línea azul representa el rango de niveles del habla. El área sombreada en azul representa la parte del espectro del habla que es audible en el oído derecho sin audífono.

audible en el oído derecho para una señal del habla media sin audífono (no asistida). También se puede aplicar un cálculo conocido como Índice de inteligibilidad del habla (IIH; ANSI S3.5-2007) que permite cuantificar numéricamente la proporción ponderada del espectro del habla que es audible o que se encuentra por encima de los umbrales del niño. En el ejemplo de la Figura 2, el IIH no asistido del oído derecho es de 0,47, lo que significa que, en el caso de un nivel conversacional medio en una situación de escucha tranquila, el niño puede oír aproximadamente el 47 % de las señales del lenguaje hablado. Visualmente, la mayoría de las señales del habla que son audibles en

este ejemplo se encuentran en frecuencias inferiores a 2000 Hz. Los padres de niños con pérdida auditiva a menudo se sorprenden al saber que una pérdida auditiva leve significa que menos de la mitad del espectro del habla es audible en silencio. En un estudio realizado por Sapp y colaboradores (2023) se comparó el nivel de preocupación de los padres basado en las categorías descriptivas tradicionales de la pérdida auditiva (p. ej. leve, moderada, severa y profunda) frente a las descripciones de la pérdida auditiva basadas en la audibilidad y en simulaciones de pérdida auditiva. Los padres consideraron que las simulaciones de pérdida auditiva y las descripciones de la pérdida auditiva basadas en la audibilidad transmitían con mayor precisión el impacto funcional de la pérdida auditiva que el uso de términos como «leve» para describir el problema. Las medidas de audibilidad no asistida pueden ser herramientas de asesoramiento útiles para los padres de niños con pérdida auditiva u otros profesionales que puedan participar en el apoyo médico o educativo del niño.

AUDIBILIDAD DEL HABLA ASISTIDA

La audibilidad también se puede calcular con audífonos basándose en las mediciones de la salida de los audífonos en el conducto auditivo del niño o en un acoplador con los factores de corrección apropiados, lo que se conoce como audibilidad asistida. La audibilidad asistida se basa en el mismo cálculo del IIH que la audibilidad no asistida, pero las medidas de la salida de los audífonos se comparan con los umbrales auditivos del niño, en lugar de con un espectro de habla no asistida estándar. En la Figura 3 se muestra el ejemplo de un SPL-o-grama con audibilidad asistida. En este ejemplo, el espectro del habla amplificado se compara con los umbrales del oído izquierdo del niño en el audiograma. Sin amplificación, el niño puede oír el 2 % del espectro del habla (IIH asistido) y con el audífono puede oír el 73 % del espectro medio del habla (asistida) basándose en el IIH. Como se ha indicado anteriormente, el IIH asistido es una herramienta útil para estimar cuál es el acceso al habla que tiene un niño a través de sus audífonos. Actualmente no existe ningún método estandarizado para calcular la audibilidad del habla de los niños que utilizan implantes cocleares, dado que no hay forma de medir directamente cuánto del espectro del habla es accesible a través del implante coclear.

Una de las limitaciones del IIH asistido es que la cantidad de

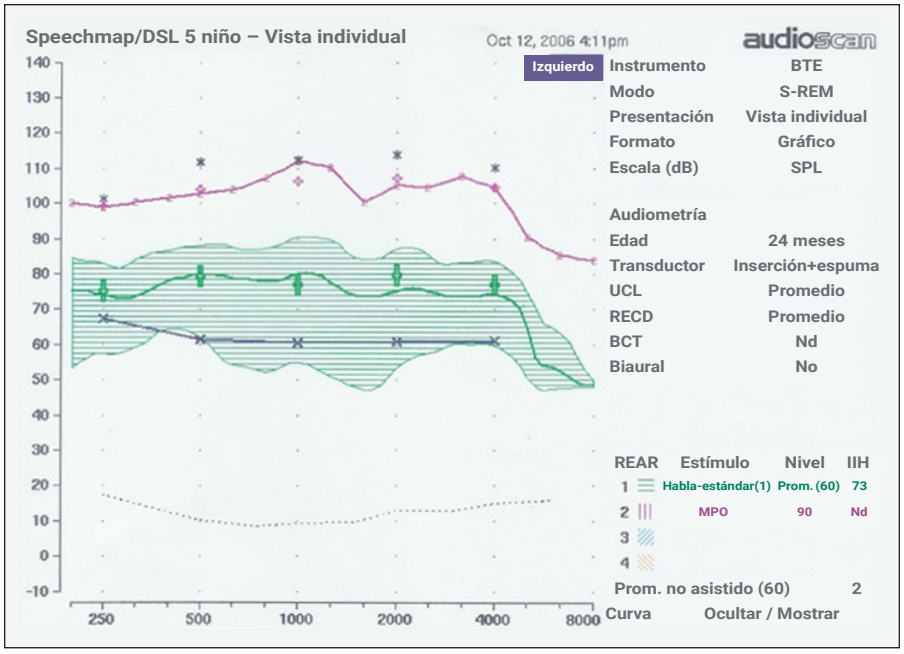

Figura 3. SPL-o-grama que muestra la audibilidad asistida. Los símbolos X conectados con la línea azul representan los umbrales de audición del niño a partir del audiograma del oído izquierdo. La zona verde sombreada es el espectro del habla medido a través del audífono del niño. Los valores de IIH asistido (73) y no asistido (2) correspondientes al habla media (60 dB SPL) se muestran en la parte inferior derecha del gráfico. Significado de las siglas: BCT = umbral de conducción ósea; MPO = salida pico máxima; Nd = no disponible; REAR = respuesta asistida de oído real; RECD = diferencia entre las medidas en oído real y acoplador; SPL = nivel de presión sonora; y UCL = nivel incómodo.

audibilidad del habla que se puede recuperar a través de un audífono disminuye a medida que aumenta el grado de pérdida auditiva del niño (McCreery et al., 2013). Esto significa que no existe un valor óptimo de IIH que se puede alcanzar con niños que tienen diferentes grados de pérdida auditiva. El Protocolo de amplificación pediátrica de Western Ontario ha publicado valores normativos del IIH asistido en función del grado de pérdida auditiva, que están disponibles para los clínicos y se encuentran integrados en numerosos sistemas de verificación de audífonos (Bagatto et al., 2016). En un estudio reciente de Wiseman y colaboradores (2023) se demostró que los niños con pérdida auditiva que utilizaban audífonos y que tenían un IIH asistido inferior al 50 % corrían el riesgo de sufrir retrasos en el lenguaje en comparación con los

niños con una audición normal, incluso si utilizaban audífonos de forma sistemática. Este trabajo sugiere que un IIH asistido en silencio, siendo audible menos de la mitad del espectro del habla asistida, puede no proporcionar la audibilidad adecuada para apoyar el desarrollo del lenguaje hablado y puede requerir modificaciones en los servicios de intervención del niño, incluyendo un audífono más potente o la derivación para la evaluación del implante coclear si no se puede conseguir una mayor audibilidad mediante la audición acústica.

El audiograma es una medida importante para el diagnóstico y la cuantificación de la pérdida auditiva. Sin embargo, se sabe que el audiograma no refleja los retos auditivos funcionales que los niños con pérdida auditiva experimentan en su vida diaria. La audibilidad del habla, medida por el IIH, es una forma de utilizar el audiograma junto con espectros del habla amplificados o no amplificados para estimar la proporción del habla que será audible para los niños en diferentes situaciones auditivas. Los médicos pueden utilizar las mediciones de la audibilidad para asesorar a los padres y a los cuidadores de niños con pérdida auditiva que utilizan audífonos, con el fin de ayudarles a que comprendan mejor cómo puede afectar la pérdida auditiva a la comunicación. Los padres de un niño con pérdida auditiva pueden preguntar al audiólogo que le trate o a otros profesionales sanitarios sobre la audibilidad del habla para poder comprender en qué medida los audífonos pueden facilitar su acceso a la comunicación.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

Bagatto, M., Moodie, S., Brown, C., Malandrino, A., Richert, F., Clench, D., & Scollie, S. (2016). Prescribing and verifying hearing aids applying the American Academy of Audiology Pediatric Amplification Guideline: Protocols and outcomes from the Ontario Infant Hearing Program. *Journal of the American Academy of Audiology, 27*(03), 188-203. https://doi.org/10.3766/jaaa.15051

McCreery, R. W., Bentler, R. A., & Roush, P. A. (2013). Characteristics of hearing aid fittings in infants and young children. *Ear and Hearing, 34*(6), 701-710. https://doi.org/10.1097/AUD.0b013e31828f1033

McCreery, R. W., & Walker, E. A. (2022). Variation in auditory experience affects language and executive function skills in children who are hard of hearing. *Ear and hearing, 43*(2), 347-360. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000001098

Sapp, C., McCreery, R., Holte, L., Oleson, J., & Walker, E. (2023). Descriptions of hearing loss severity differentially influence parental concern about the impact of childhood hearing loss. *Ear and Hearing, 44*(2), 287-299. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000001280

Tomblin, J. B., Harrison, M., Ambrose, S. E., Walker, E. A., Oleson, J. J., & Moeller, M. P. (2015). Language outcomes in young children with mild to severe hearing loss. *Ear and Hearing, 36*, 76S-91S. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000000219

Tomblin, J. B., Oleson, J., Ambrose, S. E., Walker, E. A., McCreery, R. W., & Moeller, M. P. (2020). Aided hearing moderates the academic outcomes of children with mild to severe hearing loss. *Ear and Hearing, 41*(4), 775-789. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000000823

Walker, E. A., Holte, L., McCreery, R. W., Spratford, M., Page, T., & Moeller, M. P. (2015). The influence of hearing aid use on outcomes of children with mild hearing loss. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research, 58*(5), 1611-1625. https://doi.org/10.1044/2015_JSLHR-H-15-0043

Walker, E. A., Sapp, C., Dallapiazza, M., Spratford, M., McCreery, R. W., & Oleson, J. J. (2020). Language and reading outcomes in fourth-grade children with mild hearing loss compared to age-matched hearing peers. *Language, Speech, and Hearing Services in Schools, 51*(1), 17-28. https://doi.org/10.1044/2019_LSHSS-OCHL-19-0015

Wiseman, K. B., McCreery, R. W., & Walker, E. A. (2023). Hearing thresholds, speech recognition, and audibility as indicators for modifying intervention in children with hearing aids. *Ear and Hearing, 44*(4), 787-802. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000001328

INFECCIÓN CONGÉNITA POR CITOMEGALOVIRUS (CMV): UNA CAUSA FRECUENTE PERO IGNORADA DE PÉRDIDA AUDITIVA Y TRASTORNOS DEL NEURODESARROLLO

By Ulrika Löfkvist[1-2], Eva Karltorp[2-3], Jessica Dunn[4], Holly Teagle[5] y Albert Park[6]

[1] *Departamento de Salud Pública y Ciencias del Cuidado, Universidad de Uppsala, Uppsala (Suecia)*

[2] *Departamento de Ciencia Clínica, Intervención y Tecnología, Instituto Karolinska, Estocolmo, Suecia*

[3] *Departamento de Otorrinolaringología, Hospital Universitario de Karolinska, Estocolmo, Suecia*

[4] *Facultad de Ciencias Médicas y de la Salud, Universidad de Auckland, Auckland, Auckland, Nueva Zelanda*

[5] *Departamento de Pediatría, Universidad de Calgary y Servicios de Salud de Alberta, Calgary, Canadá*

[6] *Departamento de Otorrinolaringología Pediátrica, Universidad de Utah, Salt Lake City, Estados Unidos*

La infección por citomegalovirus congénita (CMVc) es una causa prevalente pero poco reconocida de pérdida auditiva neurosensorial y trastornos del neurodesarrollo en niños. Si bien la infección por CMV suele ser asintomática en personas sanas, su transmisión durante el embarazo puede tener consecuencias importantes y duraderas para la salud del feto. A pesar de su impacto mundial, la concienciación acerca del CMVc sigue siendo escasa, especialmente entre las mujeres embarazadas y los profesionales sanitarios, lo que contribuye a un infradiagnóstico y al tratamiento inadecuado de los lactantes afectados. En este manuscrito se revisan la epidemiología, las manifestaciones clínicas y los resultados a largo plazo de la infección por CMVc, haciendo hincapié en la necesidad crítica de que existan medidas preventivas, entre ellas un mayor grado de concienciación y formación. En el documento también se analiza el papel de los programas de cribado, destacando los beneficios potenciales de los enfoques universales o específicos en la detección y la intervención tempranas. A pesar de los avances en la comprensión del CMVc, sigue habiendo importantes lagunas en el conocimiento de sus efectos cognitivos a largo plazo y la eficacia de las distintas intervenciones. Se necesitan más

estudios de investigación en los que se exploren las experiencias de las personas con CMVc y de sus cuidadores, se identifiquen las lagunas en la atención sanitaria y se desarrollen estrategias de intervención integrales y centradas en la familia.

¿QUÉ ES LA INFECCIÓN POR CMVC?

El CMV es un herpesvirus que se transmite a través de los fluidos corporales, estableciéndose una latencia de por vida tras la infección inicial, lo que significa que el virus se puede reactivar en cualquier etapa posterior de la vida y que las personas también se pueden reinfectar con diferentes cepas de CMV. En la mayoría de las personas, la infección es asintomática o solo provoca síntomas leves similares a los de la gripe y fiebre, sin problemas de salud graves.

Sin embargo, en el caso de personas con un sistema inmunitario debilitado, como las infectadas por el VIH o que hayan recibido un trasplante recientemente, el CMV puede provocar una enfermedad grave (Taylor, 2003). La infección por CMV congénita (CMVc) se produce cuando el virus se transmite de una mujer embarazada al feto a través de la placenta, un proceso conocido como transmisión vertical. La mayoría de las mujeres embarazadas adquieren la infección a través del contacto con la saliva de niños pequeños que eliminan el CMV más fácilmente que los adultos (Dollard et al., 2014). Por ejemplo, compartir utensilios o besar a un niño pequeño en la boca puede dar lugar a una transmisión del CMV. Para prevenir la infección por CMV, se aconseja a las mujeres embarazadas que practiquen unas buenas rutinas de higiene, como lavarse siempre las manos después de cambiar un pañal o limpiar la nariz a un niño pequeño, y no compartir utensilios, alimentos ni bebidas con otras personas (Fowler & Boppana, 2018).

El riesgo de transmisión es significativamente mayor si la madre contrae una infección primaria por CMV durante el embarazo (32 %) en comparación con una infección recurrente (1,4 %) (Kenneson & Cannon, 2007). Con una prevalencia media del 0,5 %, el CMVc es la infección por virus congénita más frecuente en los países desarrollados (Orb et al., 2024; Ssentongo et al., 2021). En regiones en desarrollo de África, Asia y Latinoamérica, las tasas de prevalencia oscilan entre el 0,6 % y el 6,1 % (Kenneson & Cannon, 2007).

En una investigación de Fowler y colegas (2018) se destaca el impacto de la raza y el origen étnico en la prevalencia del CMVc. Descubrieron que

los bebés de raza negra o con un origen multirracial podrían tener un riesgo significativamente mayor de contraer el CMVc. Estos hallazgos subrayan la necesidad de implementar estrategias preventivas destinadas a incrementar la concienciación sobre el CMVc en la población de mujeres en edad fértil y el reconocimiento por parte de los profesionales sanitarios de las diferencias grupales relacionadas con la raza y el origen (Fowler et al., 2018). Cabe destacar que no se encontraron diferencias significativas entre razas o etnias en cuanto a la probabilidad de que los niños presenten una infección sintomática por CMVc o una pérdida auditiva asociada.

La seroprevalencia se refiere al porcentaje de adultos o niños mayores en una población que presentan anticuerpos detectables contra un patógeno específico, como el CMV, en la sangre. Esta medida aumenta con la edad, e indica lo extendido que está el CMV en una comunidad o una población en un momento dado (Fowler et al., 2022). En las regiones con una mayor seroprevalencia suele haber tasas más elevadas de infección por CMVc, si bien el riesgo de infectar a los fetos es mayor en los casos de infección primaria (De Vries et al., 2013).

Aproximadamente 1 de cada 5 bebés que nace con una infección por CMVc puede presentar defectos congénitos o problemas de salud a largo plazo. La infección congénita por CMV también se ha asociado a muerte fetal y mortinatos en algunos estudios (Griffiths et al., 1980; Iwasenko et al., 2011). Los niños que nacen con una infección por CMVc se suelen clasificar en dos grupos: los que presentan un CMVc sintomático (10 %) o un CMVc asintomático (90 %) (Kenneson & Cannon, 2007).

La infección sintomática por CMVc se refiere a los casos en los que el individuo presenta manifestaciones clínicas de la infección al nacer. En los casos congénitos, entre los síntomas se incluyen un agrandamiento del hígado, ictericia, erupción cutánea, pérdida auditiva neurosensorial, problemas de visión y problemas neurológicos como microcefalia, convulsiones o retrasos en el desarrollo (Naing et al., 2016). Estos síntomas se suelen detectar al nacer o poco después y pueden provocar graves problemas de salud a largo plazo (Lanzieri et al., 2017).

La infección por CMVc asintomática se refiere a los casos en los que el individuo infectado no muestra síntomas ni signos observables de la enfermedad en los primeros años de vida (Stoyell et al., 2024) o en la infancia tardía (Lopez et al., 2017; Novelli et al., 2022). Alrededor del 90 % de los niños con CMVc son asintomáticos durante el periodo neonatal (Gantt et al., 2017). Aunque no presenten manifestaciones clínicas en el

momento del diagnóstico, pueden ser portadores del virus y desarrollar una pérdida auditiva de aparición tardía. Alrededor del 10-15 % de los lactantes con CMVc asintomáticos desarrollarán una pérdida auditiva neurosensorial permanente (Fowler & Boppana, 2018). Además, si bien se pueden presentar alteraciones visuales y cognitivas, su porcentaje es menor en comparación con las observadas en casos de CMVc sintomáticos (Dollard et al., 2007).

IMPACTO DE LA INFECCIÓN POR CMVC

La infección congénita por CMV es una de las principales causas de pérdida auditiva neurosensorial unilateral o bilateral adquirida en niños, que puede ser de leve a profunda (Goderis et al., 2014). Esta pérdida auditiva puede estar presente al nacer, progresar con el paso del tiempo o desarrollarse como una afección de aparición tardía durante la infancia. Debido a la posibilidad de que la pérdida auditiva sea progresiva o tardía, es fundamental realizar un seguimiento auditivo continuo. Las intervenciones a su debido tiempo son esenciales para favorecer el desarrollo del lenguaje y la comunicación, garantizando que los niños afectados reciban los recursos y cuidados necesarios.

Los implantes cocleares se utilizan en el caso de los niños que presentan CMVc y sordera bilateral, pero también son beneficiosos en los casos de sordera unilateral (Aldè et al., 2023). El implante coclear unilateral en niños con CMVc y sordera unilateral puede mejorar significativamente su capacidad de localizar sonidos y comprender el habla en entornos ruidosos. Además, las personas con CMVc corren un riesgo considerable de perder audición en el oído no afectado con el paso del tiempo. Cuando los niños con sordera unilateral reciben un implante coclear temprano, se preserva la mayor capacidad auditiva posible, y se refuerza el desarrollo auditivo y del habla en general (Aldè et al., 2023).

La pérdida auditiva es un trastorno prominente del neurodesarrollo resultante de la infección por CMVc (Goderis et al., 2014), pero no explica en su totalidad el rango de dificultades cognitivas que se observa en niños con infección por CMVc (Karltorp et al., 2014). Los niños con pérdida auditiva e infección por CMVc corren el riesgo de sufrir diversos trastornos cognitivos, incluido un peor funcionamiento ejecutivo (Löfkvist et al., 2020). En un estudio de Löfkvist y colegas (2020) se evaluaron las habilidades pragmáticas mediante cuestionarios realizados a los progenitores, llegando a la conclusión de que los niños con CMVc

tenían unas habilidades pragmáticas y una memoria de trabajo fonológica significativamente peores en comparación con sujetos de control bien emparejados con una causa de sordera genética. Estas dificultades cognitivas pueden, a su vez, repercutir negativamente en el rendimiento académico y en las interacciones sociales (Löfkvist et al., 2020).

Además, el CMVc también se asocia con problemas vestibulares (Dhondt et al., 2021; Karltorp et al., 2014; Kokkola et al., 2023; Shears et al., 2022). En una revisión sistemática, Shears et al. (2022) demostraron que incluso los niños con infección por CMVc asintomática, incluidos aquellos con una audición normal, pueden experimentar una disfunción vestibular, que puede ser progresiva. Karltorp et al. (2014) investigaron las comorbilidades de niños con pérdida auditiva, comparándolas con las de sujetos de control con una causa de sordera genética (conexina 26), que normalmente no incluye problemas cognitivos. Descubrieron que los niños con CMVc presentaban peor equilibrio, pérdida de visión, trastornos alimentarios imprevistos y diagnósticos neuropsiquiátricos, entre ellos el trastorno del espectro autista y el TDAH, mientras que los sujetos de control no presentaban este tipo de problemas.

En estudios anteriores también se ha demostrado que los niños con infección por CMVc pueden tener discapacidades intelectuales (Lanzieri et al., 2017) y presentar diagnósticos neuropsiquiátricos como trastorno del espectro autista, TDAH y disfunciones motoras orales (Karltorp et al., 2014). En un amplio estudio poblacional realizado por Pesch y colegas (2024) se concluye que los niños estadounidenses con CMVc tienen un riesgo 2,5 veces mayor de desarrollar un trastorno del espectro autista que los niños sin infección (Pesch et al., 2024). Las afecciones comórbidas son frecuentes en niños con CMVc, lo que contribuye a la elevada heterogeneidad dentro de esta población (Karltorp et al., 2014). Algunos niños con CMVc pueden presentar pocos síntomas o ninguno, mientras que otros experimentan múltiples afecciones graves. Es más probable que los niños con infección sintomática por CMVc presenten afecciones más graves (Lanzieri et al., 2017).

Sin embargo, en un estudio único de seguimiento a largo plazo realizado por Falkenius Schmidt y colegas (2024) se concluye que los adultos con infección por CMVc que tenían una audición normal y fueron asintomáticos al nacer experimentaban déficits en los procesos de recuperación de palabras. Esta capacidad cognitiva se evalúa mediante tareas de fluidez de palabras como la tarea FAS, que requiere que los

individuos recuperen el mayor número posible de palabras que empiecen por las letras F, A y S en un minuto. Estos resultados sugieren que los efectos a largo plazo de la infección por CMVc pueden persistir incluso en individuos que inicialmente no mostraban síntomas, lo que indica posibles dificultades cognitivas sutiles que pueden no detectarse fácilmente a primera vista.

Una de las limitaciones del estudio es el reducido tamaño de la muestra (n=34), por lo que los resultados deberán repetirse en estudios de investigación posteriores. Sin embargo, un punto fuerte del estudio fue la inclusión de un grupo de control de individuos que no estaban infectados al nacer. Cuando se compararon con los datos normativos suecos, el 43 % de los participantes con infección por CMVc, todos ellos asintomáticos al nacer, tuvieron un desempeño adecuado tanto en las tareas de FAS como en las de fluidez verbal, en comparación con el 86 % de los sujetos de control (Falkenius Schmidt et al., 2024).

Korndewal y colegas (2017) investigaron cómo la vida cotidiana de los niños en edad escolar con CMVc y la de sus progenitores se ve afectada. Descubrieron que la calidad de vida tanto de los niños con deficiencias a largo plazo como la de sus progenitores era inferior a la de los sujetos de control sin infección por CMVc. Además, los padres de niños con CMVc informaron de un mayor número de problemas físicos y de concentración que los de los sujetos de control con niños sin CMVc. Estos resultados ponen de relieve que el CMVc repercute en las experiencias de la vida cotidiana tanto de los niños afectados como de sus familiares, lo que indica la necesidad de un enfoque de intervención centrado en la familia (Korndewal et al., 2017). Si bien los individuos con infección sintomática por CMVc suelen tener necesidades más complejas, es importante reconocer que aquellos con CMVc asintomático también pueden tener necesidades similares.

PREVENCIÓN

En la actualidad no se dispone de vacunas eficaces contra el CMV. El desarrollo de una vacuna de este tipo es especialmente difícil por la compleja naturaleza de la inmunidad frente al CMV, que incluye la posibilidad de reactivación de una infección previa y el riesgo de infección con nuevas cepas víricas. Si bien los estudios de investigación en curso sobre vacunas candidatas contra el CMV son prometedores (Hu et al.,

2024; Schleiss, 2016), es poco probable que se disponga de una vacuna eficaz en un futuro próximo. En consecuencia, la estrategia más eficaz para prevenir la infección materna y congénita por CMV sigue siendo informar a las mujeres embarazadas de las fuentes de exposición al CMV y promover intervenciones conductuales para reducir estos riesgos (Calvert et al., 2021). Además, el aumento de la concienciación pública sobre la infección por CMVc y la promoción de prácticas higiénicas son esenciales para minimizar la transmisión del virus.

A pesar de la necesidad de una mayor concienciación pública y de la prevalencia de la infección por CMVc, muchas mujeres embarazadas siguen sin conocer el CMVc y sus posibles consecuencias graves, así como las acciones preventivas (Calvert et al., 2021). Los estudios indican importantes lagunas de conocimiento, con tasas de concienciación que oscilan entre el 13 % y el 60 % en varios países (Binda et al., 2016; Cordier et al., 2012; Pereboom et al., 2013). Las comadronas, que interactúan regularmente con las mujeres embarazadas, desempeñan un papel crucial en la difusión de información sobre el CMV y pueden ayudar a prevenir su propagación dando a conocer las medidas de protección a estas mujeres. Otros profesionales sanitarios, como médicos, pediatras, audiólogos educativos, fonoaudiólogos y especialistas en intervención temprana, también deben estar bien informados sobre el impacto de la infección por CMVc.

Rawlinson et al., (2017) crearon un Grupo internacional informal de recomendaciones sobre citomegalovirus congénito con el objetivo de facilitar directrices para la prevención, el diagnóstico y el tratamiento del CMVc. El grupo, basándose en discusiones consensuadas y en la revisión de la literatura, llegó a la conclusión de que un cribado neonatal universal de CMVc se podría considerar para facilitar la detección y la intervención tempranas en caso de pérdida auditiva y/o retraso del desarrollo. También coincidieron en que las estrategias de educación y prevención para las mujeres embarazadas son beneficiosas y que las recomendaciones se deben actualizar a medida que se disponga de nuevos datos y conocimientos (Rawlinson et al., 2017).

CRIBADO DE LA INFECCIÓN POR CMVC

En la actualidad, la mayoría de los niños que nacen con infección por CMVc en todo el mundo pasan desapercibidos, lo que se traduce en una falta de tratamiento necesario o de seguimiento. Lo idóneo es diagnosticar

la infección por CMVc mediante pruebas analíticas realizadas al lactante en las tres primeras semanas de vida. Si se sospecha la presencia de CMVc después de tres semanas, se puede realizar un análisis retrospectivo mediante PCR de manchas de sangre seca, si bien no es un método muy sensible para diagnosticar el CMVc. En Suecia, las muestras de sangre seca se conservan indefinidamente, pero en la mayoría de los países se conservan solo por un tiempo limitado, lo que dificulta el diagnóstico retrospectivo.

Los programas de cribado universal o selectivo auditivo se implementan en pocas regiones del mundo, si bien facilitarían la detección, la identificación y el tratamiento de niños con infección sintomática por CMVc. En Ontario, Canadá, se presentó en 2019 el primer programa de cribado universal del CMV del mundo, y Minnesota se convirtió en 2023 en el primer estado estadounidense en implementar un programa de este tipo. Otros estados estadounidenses han adoptado programas de cribado auditivo, programas de cribado selectivo auditivo ampliado o hacen campaña a favor de dichos programas.

Una limitación importante del cribado selectivo auditivo es que la mayoría de los niños que nacen con infección por CMVc superan el cribado auditivo neonatal universal, pero pueden desarrollar una pérdida auditiva progresiva con posterioridad. Esto supone un reto porque los cuidadores a menudo desconocen la existencia del CMVc o la posibilidad de una pérdida auditiva progresiva, por lo que pueden ignorar hitos auditivos y fonológicos tempranos cruciales para el desarrollo del lenguaje (Blamey et al., 2001; Ching et al., 2017). Además, los patrones cerebrales atípicos asociados con el CMVc pueden influir en los resultados a largo plazo (Lanzieri et al., 2017) y no solo en aquellos con CMVc sintomático (Falkenius Schmidt et al., 2024).

En Utah, el programa de cribado selectivo introducido en 2013 ha evolucionado hacia un *programa de cribado selectivo ampliado*. Este enfoque actualizado incluye grupos adicionales de alto riesgo, como aquellos con un tamaño de cabeza anómalo (microcefalia), positividad materna para CMV o bebés con erupción petequial o erupción de hematopoyesis extramedular (Suarez et al., 2023). El programa selectivo ampliado ha mostrado mejores tasas de detección de casos sintomáticos de CMVc en comparación con el cribado selectivo auditivo tradicional. Suarez y colegas (2023) sostienen que el cribado ampliado es una alternativa más factible que el cribado universal, ya que se requieren menos pruebas a la vez que se consiguen mayores tasas de detección.

Independientemente del tipo de programa de cribado de CMVc, es esencial facilitar un programa de seguimiento para las personas identificadas con infección por CMVc y sus familias, tal como se indica en los principios del cribado (WHO, 2020). Los estudios indican que, en general, los progenitores apoyan los programas de cribado del CMVc, incluso si deben sufragar los costos de su bolsillo (Diener et al., 2020), y a pesar de las preocupaciones iniciales de que los resultados puedan ser alarmantes (Beaulieu et al., 2024).

En el estudio dirigido por pacientes de Beaulieu et al. (2024), en el que se utilizó un Enfoque de investigación con participación de pacientes y comunidades (PaCER, por sus siglas en inglés) que abarcaba debates en grupos focales, entrevistas y reflexiones, los progenitores con experiencias vividas expresaron una gran preferencia por estar informados sobre el estado de salud de sus hijos desde un principio. Valoraban «el conocimiento como poder» y consideraban que el cribado universal podría reducir el estigma al aumentar la concienciación sobre el CMVc. Los participantes del estudio también destacaron la importancia de disponer de un programa de seguimiento tras el cribado para apoyar a las familias (Beaulieu et al., 2024).

PROCEDIMIENTOS DE SEGUIMIENTO, OPCIONES DE TRATAMIENTO E INTERVENCIÓN – MEJORES PRÁCTICAS ACTUALES

Cuando a un niño se le diagnostica una infección por CMVc al nacer o en las tres primeras semanas de vida y presenta síntomas de moderados a graves, las directrices internacionales recomiendan un tratamiento antivírico de seis meses con valganciclovir (Leruez-Ville et al., 2024). El objetivo de este tratamiento es reducir el riesgo de trastornos graves del neurodesarrollo (Rawlinson et al., 2017). No obstante, los resultados a largo plazo y los posibles efectos secundarios de este tratamiento no se conocen en su totalidad. En consecuencia, no se recomienda el tratamiento antivírico en los casos con síntomas leves (Rawlinson et al., 2017). Además del tratamiento médico, es crucial controlar la audición, la visión y el desarrollo general del niño a lo largo del tiempo. Según Rawlinson et al. (2017) se deben realizar pruebas audiológicas a los niños con CMVc cada seis meses durante los tres primeros años de vida y, posteriormente, de forma anual hasta la adolescencia. También se recomiendan exámenes oftalmológicos tempranos y evaluaciones de

seguimiento. En los casos de CMVc sintomático, se deberán realizar evaluaciones del desarrollo adaptadas a cada caso. No existen recomendaciones específicas para los casos asintomáticos, si bien se aconseja un seguimiento del desarrollo continuado (Rawlinson et al., 2017).

Hasta la fecha, solo en unos pocos estudios se ha investigado el impacto a largo plazo del CMVc en la edad adulta (Falkenius Schmidt et al., 2024). La evidencia existente sugiere que los individuos con infección sintomática por CMVc tienen un alto riesgo de presentar complicaciones duraderas y comórbidas, lo que subraya la necesidad de intervenciones interdisciplinares tempranas y preventivas. No obstante, la intervención temprana por sí sola puede no ser suficiente, ya que muchas personas con infección por CMVc pueden requerir un seguimiento y un apoyo continuos durante toda su vida. Las personas que desarrollan trastornos del neurodesarrollo en la primera infancia también pueden enfrentarse a un mayor riesgo de afecciones neuropsiquiátricas posteriormente en la adolescencia o en la edad adulta, tal como se observa en otras poblaciones con trastornos coexistentes como el trastorno del espectro autista o el TDAH (Gillberg, 2010). En la actualidad no existen directrices de buenas prácticas establecidas que aborden específicamente los aspectos cognitivos y comórbidos de la intervención en el CMVc. No obstante, en la investigación y la experiencia clínica se pone de relieve la importancia no solo de vigilar la audición, sino también de identificar otros posibles problemas, como dificultades cognitivas no verbales, síntomas neuropsiquiátricos, desarrollo atípico del lenguaje hablado, pragmática deficiente, funciones ejecutivas afectadas y evaluación de la calidad de vida en general (Karltorp et al., 2014; Korndewal et al., 2017; Löfkvist et al., 2020).

Dada la complejidad de la infección por CMVc y la variabilidad de los resultados, los niños deben ser controlados periódicamente por un equipo interdisciplinar con conocimientos especializados en CMVc. Es esencial que las personas con CMVc y sus familias participen activamente en el proceso de intervención desde un principio. Un ejemplo destacable de este enfoque es la Hearing House de Auckland (Nueva Zelanda), donde la Dra. Holly Teagle y sus colegas han iniciado un programa integral sobre el CMV (Raising awareness of congenital Cytomegalovirus on the local and global stage, hearinghouse.co.nz). (Concienciación sobre el citomegalovirus congénito en el ámbito local y

mundial). Este programa incluye talleres en los que las familias pueden participar en la educación y el debate, además de reunirse con un equipo interdisciplinar de CMV para obtener una evaluación y una intervención personalizadas. El equipo está formado por audiólogos, fonoaudiólogos, psicopedagogos, terapeutas ocupacionales y fisioterapeutas, pediatras del desarrollo, cirujanos especializados en otorrinolaringología, especialistas en intervención temprana y familiares.

El grupo del proyecto CMV Aoeteara investiga activamente diversos aspectos de la atención al CMV congénito (CMVc) en Nueva Zelanda. Su investigación incluye el examen de los resultados de la base de datos nacional sobre el CMV, la evaluación de los conocimientos y las actitudes de los profesionales sanitarios, la evaluación del trabajo en equipo interdisciplinar integral y centrado en el niño, y la recopilación de las perspectivas de los progenitores sobre la detección y el diagnóstico del CMV. Si bien los resultados del programa aún no se han evaluado científicamente ni se han publicado, la recopilación y el análisis de los datos siguen en curso.

CONCLUSIONES

El impacto mundial de la infección por CMVc es significativo, ya que afecta a un gran número de lactantes y a menudo provoca trastornos del neurodesarrollo a largo plazo y otras complicaciones sanitarias. Dado que actualmente no se dispone de una vacuna eficaz, es fundamental adoptar medidas preventivas como aumentar la concienciación sobre la transmisión del CMVc y promover conductas protectoras. A medida que los beneficios de los programas de cribado neonatal (ya sea universal o selectivo) se hagan más evidentes, es probable que su implantación se extienda por todo el mundo. Aunque los estudios de investigación existentes se han centrado predominantemente en los aspectos médicos de la infección por CMVc, sigue habiendo importantes lagunas de conocimiento, concretamente en lo que respecta a los efectos cognitivos a largo plazo en poblaciones más amplias y a la eficacia de diversas estrategias de intervención, además de la medicación antivírica y la tecnología auditiva. Además, es esencial realizar investigaciones adicionales para explorar las experiencias vividas por las personas con infección por CMVc y sus cuidadores, para identificar mejor las lagunas en la atención sanitaria y abordar las necesidades integrales de los afectados por la infección en entornos clínicos.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

Aldè, M., Binda, S., Primache, V., Pellegrinelli, L., Pariani, E., Pregliasco, F., Di Berardino, F., Cantarella, G., & Ambrosetti, U. (2023). Congenital cytomegalovirus and hearing loss: The state of the art. *Journal of Clinical Medicine, 12*(13), 4465. https://doi.org/10.3390/jcm12134465

Beaulieu, L., Bruce, M., Tiedemann, B., Chishti, R., Iyiola, I., Penny, S., Leroux, C., Nielssen, I., Santana, M. J., & Castillo, E. (2024). Perspectives of parents with lived experience of cytomegalovirus infection, on universal newborn screening for congenital cytomegalovirus (cCMV) in Canada: A patient-led qualitative study. *BMJ Paediatrics Open, 8*(1), e002851. https://doi.org/10.1136/bmjpo-2024-002851

Binda, S., Pellegrinelli, L., Terraneo, M., Caserini, A., Primache, V., Bubba, L., & Barbi, M. (2016). What people know about congenital CMV: An analysis of a large heterogeneous population through a web-based survey. *BMC Infectious Diseases, 16*(1), 513. https://doi.org/10.1186/s12879-016-1861-z

Blamey, P. J., Sarant, J. Z., Paatsch, L. E., Barry, J. G., Bow, C. P., Wales, R. J., Wright, M., Psarros, C., Rattigan, K., & Tooher, R. (2001). Relationships among speech perception, production, language, hearing loss, and age in children with impaired hearing. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research, 44*(2), 264–285. https://doi.org/10.1044/1092-4388(2001/022)

Calvert, A., Vandrevala, T., Parsons, R., Barber, V., Book, A., Book, G., Carrington, D., Greening, V., Griffiths, P., Hake, D., Khalil, A., Luck, S., Montague, A., Star, C., Ster, I. C., Wood, S., Heath, P. T., & Jones, C. E. (2021). Changing knowledge, attitudes and behaviours towards cytomegalovirus in pregnancy through film-based antenatal education: A feasibility randomised controlled trial of a digital educational intervention. *BMC Pregnancy and Childbirth, 21*(1), 565. https://doi.org/10.1186/s12884-021-03979-z

Ching, T. Y. C., Dillon, H., Button, L., Seeto, M., Van Buynder, P., Marnane, V., Cupples, L., & Leigh, G. (2017). Age at Intervention for Permanent Hearing Loss and 5-Year Language Outcomes. *Pediatrics, 140*(3), e20164274. https://doi.org/10.1542/peds.2016-4274

Cordier, A. G., Guitton, S., Vauloup-Fellous, C., Grangeot-Keros, L., Benachi, A., & Picone, O. (2012). Awareness and knowledge of congenital cytomegalovirus infection among health care providers in France.

Journal of Clinical Virology, 55(2), 158–163. https://doi.org/10.1016/j.jcv.2012.06.022

De Vries, J. J. C., Van Zwet, E. W., Dekker, F. W., Kroes, A. C. M., Verkerk, P. H., & Vossen, A. C. T. M. (2013). The apparent paradox of maternal seropositivity as a risk factor for congenital cytomegalovirus infection: A population-based prediction model. *Reviews in Medical Virology, 23*(4), 241–249. https://doi.org/10.1002/rmv.1744

Dhondt, C., Maes, L., Rombaut, L., Martens, S., Vanaudenaerde, S., Van Hoecke, H., De Leenheer, E., & Dhooge, I. (2021). Vestibular function in children with a congenital cytomegalovirus infection: 3 years of follow-up. *Ear & Hearing, 42*(1), 76–86. https://doi.org/10.1097/AUD.0000000000000904

Diener, M. L., Shi, K., & Park, A. H. (2020). A cross-sectional study of caregiver perceptions of congenital cytomegalovirus infection: Knowledge and attitudes about screening. *The Journal of Pediatrics, 218*, 151-156. e2. https://doi.org/10.1016/j.jpeds.2019.12.005

Dollard, S. C., Grosse, S. D., & Ross, D. S. (2007). New estimates of the prevalence of neurological and sensory sequelae and mortality associated with congenital cytomegalovirus infection. *Reviews in Medical Virology, 17*(5), 355–363. https://doi.org/10.1002/rmv.544

Falkenius Schmidt, K., Nyström, A., Karltorp, E., Magnusson, M., & Löfkvist, U. (2024). Long-term linguistic outcome in adults with congenital cytomegalovirus infection. *Infectious Diseases, 56*(1), 32–41. https://doi.org/10.1080/23744235.2023.2263567

Fowler, K. B., & Boppana, S. B. (2018). Congenital cytomegalovirus infection. *Seminars in Perinatology, 42*(3), 149–154. https://doi.org/10.1053/j.semperi.2018.02.002

Fowler, K. B., Ross, S. A., Shimamura, M., Ahmed, A., Palmer, A. L., Michaels, M. G., Bernstein, D. I., Sánchez, P. J., Feja, K. N., Stewart, A., & Boppana, S. (2018). Racial and ethnic differences in the prevalence of congenital cytomegalovirus infection. *The Journal of Pediatrics, 200*, 196-201.e1. https://doi.org/10.1016/j.jpeds.2018.04.043

Fowler, K., Mucha, J., Neumann, M., Lewandowski, W., Kaczanowska, M., Grys, M., Schmidt, E., Natenshon, A., Talarico, C., Buck, P. O., & Diaz-Decaro, J. (2022). A systematic literature review of the global seroprevalence of cytomegalovirus: Possible implications for treatment, screening, and vaccine development. *BMC Public Health, 22*(1), 1659. https://doi.org/10.1186/s12889-022-13971-7

Gantt, S., Bitnun, A., Renaud, C., Kakkar, F., & Vaudry, W. (2017). Diagnosis and management of infants with congenital cytomegalovirus infection. *Paediatrics & Child Health, 22*(2), 72–74. https://doi.org/10.1093/pch/pxx002

Gillberg, C. (2010). The ESSENCE in child psychiatry: Early symptomatic syndromes eliciting neurodevelopmental clinical examinations. *Research in Developmental Disabilities, 31*(6), 1543–1551. https://doi.org/10.1016/j.ridd.2010.06.002

Goderis, J., De Leenheer, E., Smets, K., Van Hoecke, H., Keymeulen, A., & Dhooge, I. (2014). Hearing loss and congenital CMV infection: A systematic review. *Pediatrics, 134*(5), 972–982. https://doi.org/10.1542/peds.2014-1173

Griffiths, P. D., Campbell-Benzie, A., & Heath, R. B. (1980). A prospective study of primary cytomegalovirus infection in pregnant women. *BJOG: An International Journal of Obstetrics & Gynaecology, 87*(4), 308–314. https://doi.org/10.1111/j.1471-0528.1980.tb04546.x

Hu, X., Karthigeyan, K. P., Herbek, S., Valencia, S. M., Jenks, J. A., Webster, H., Miller, I. G., Connors, M., Pollara, J., Andy, C., Gerber, L. M., Walter, E. B., Edwards, K. M., Bernstein, D. I., Hou, J., Koch, M., Panther, L., Carfi, A., Wu, K., & Permar, S. R. (2024). Human cytomegalovirus mRNA-1647 vaccine candidate elicits potent and broad neutralization and higher antibody-dependent cellular cytotoxicity responses than the gB/MF59 vaccine. *The Journal of Infectious Diseases*, jiad593. https://doi.org/10.1093/infdis/jiad593

Iwasenko, J. M., Howard, J., Arbuckle, S., Graf, N., Hall, B., Craig, M. E., & Rawlinson, W. D. (2011). Human cytomegalovirus infection is detected frequently in stillbirths and is associated with fetal thrombotic vasculopathy. *The Journal of Infectious Diseases, 203*(11), 1526–1533. https://doi.org/10.1093/infdis/jir121

Karltorp, E., Löfkvist, U., Lewensohn-Fuchs, I., Lindström, K., Eriksson Westblad, M., Teär Fahnehjelm, K., Verrecchia, L., & Engman, M.-L. (2014). Impaired balance and neurodevelopmental disabilities among children with congenital cytomegalovirus infection. *Acta Paediatrica*, 103(11), 1165–1173. https://doi.org/10.1111/apa.12745

Kenneson, A., & Cannon, M. J. (2007). Review and meta-analysis of the epidemiology of congenital cytomegalovirus (CMV) infection. *Reviews in Medical Virology, 17*(4), 253–276. https://doi.org/10.1002/rmv.535

Kokkola, E., Niemensivu, R., Lappalainen, M., Palomäki, M., Nieminen, T., Boppana, S., Saxèn, H., & Puhakka, L. (2023). Long-term outcome of vestibular function and hearing in children with congenital cytomegalovirus infection: A prospective cohort study. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology, 280*(7), 3141–3147. https://doi.org/10.1007/s00405-022-07816-7

Korndewal, M. J., Oudesluys-Murphy, A. M., Kroes, A. C. M., Vossen, A. C. T. M., & De Melker, H. E. (2017). Congenital cytomegalovirus infection: Child development, quality of life and impact on daily life. *Pediatric Infectious Disease Journal, 36*(12), 1141–1147. https://doi.org/10.1097/INF.0000000000001663

Lanzieri, T. M., Leung, J., Caviness, A. C., Chung, W., Flores, M., Blum, P., Bialek, S. R., Miller, J. A., Vinson, S. S., Turcich, M. R., Voigt, R. G., Demmler-Harrison, G., & for the Congenital Cytomegalovirus Longitudinal Study Group. (2017). Long-term outcomes of children with symptomatic congenital cytomegalovirus disease. *Journal of Perinatology, 37*(7), 875–880. https://doi.org/10.1038/jp.2017.41

Leruez-Ville, M., Chatzakis, C., Lilleri, D., Blazquez-Gamero, D., Alarcon, A., Bourgon, N., Foulon, I., Fourgeaud, J., Gonce, A., Jones, C. E., Klapper, P., Krom, A., Lazzarotto, T., Lyall, H., Paixao, P., Papaevangelou, V., Puchhammer, E., Sourvinos, G., Vallely, P., … Vossen, A. (2024). Consensus recommendation for prenatal, neonatal and postnatal management of congenital cytomegalovirus infection from the European congenital infection initiative (ECCI). *The Lancet Regional Health – Europe, 40*, 100892. https://doi.org/10.1016/j.lanepe.2024.100892

Löfkvist, U., Anmyr, L., Henricson, C., & Karltorp, E. (2020). Executive functions, pragmatic skills, and mental health in children with congenital cytomegalovirus (CMV) infection with cochlear implants: A pilot study. *Frontiers in Psychology, 10*, 2808. https://doi.org/10.3389/fpsyg.2019.02808

Lopez, A. S., Lanzieri, T. M., Claussen, A. H., Vinson, S. S., Turcich, M. R., Iovino, I. R., Voigt, R. G., Caviness, A. C., Miller, J. A., Williamson, W. D., Hales, C. M., Bialek, S. R., Demmler-Harrison, G., & on behalf of the Congenital Cytomegalovirus Longitudinal Study Group. (2017). Intelligence and academic achievement with asymptomatic congenital cytomegalovirus infection. *Pediatrics, 140*(5), e20171517. https://doi.org/10.1542/peds.2017-1517

Naing, Z. W., Scott, G. M., Shand, A., Hamilton, S. T., Van Zuylen, W. J., Basha, J., Hall, B., Craig, M. E., & Rawlinson, W. D. (2016). Congenital cytomegalovirus infection in pregnancy: A review of prevalence, clinical features, diagnosis and prevention. *Australian and New Zealand Journal of Obstetrics and Gynaecology, 56*(1), 9–18. https://doi.org/10.1111/ajo.12408

Novelli, M., Natale, F., Di Norcia, A., Boiani, A., Temofonte, S., Calandriello, F., Zitarelli, C., & Caravale, B. (2022). Early neurodevelopmental outcomes in children with asymptomatic congenital CMV infection. *Italian Journal of Pediatrics, 48*(1), 203. https://doi.org/10.1186/s13052-022-01387-3

Orb, Q. T., Pesch, M., Allen, C. M., Wilkes, A., Ahmad, I., Alfonso, K., Antonio, S. M., Mithal, L. B., Brinkmeier, J. V., Carvalho, D., Chan, D., Cheng, A. G., Chi, D., Cohen, M., Discolo, C. M., Duran, C., Germiller, J., Gibson, L., Grunstein, E., … Park, A. H. (2024). Congenital cytomegalovirus testing outcomes from the ValEAR trial. *Otolaryngology-Head and Neck Surgery: Official Journal of American Academy of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, 170*(5), 1430–1441. https://doi.org/10.1002/ohn.670

Pereboom, M. T. R., Manniën, J., Spelten, E. R., Schellevis, F. G., & Hutton, E. K. (2013). Observational study to assess pregnant women's knowledge and behaviour to prevent toxoplasmosis, listeriosis and cytomegalovirus. *BMC Pregnancy and Childbirth, 13*(1), 98. https://doi.org/10.1186/1471-2393-13-98

Pesch, M. H., Leung, J., Lanzieri, T. M., Tinker, S. C., Rose, C. E., Danielson, M. L., Yeargin-Allsopp, M., & Grosse, S. D. (2024). Autism spectrum disorder diagnoses and congenital cytomegalovirus. *Pediatrics, 153*(6), e2023064081. https://doi.org/10.1542/peds.2023-064081

Rawlinson, W. D., Boppana, S. B., Fowler, K. B., Kimberlin, D. W., Lazzarotto, T., Alain, S., Daly, K., Doutré, S., Gibson, L., Giles, M. L., Greenlee, J., Hamilton, S. T., Harrison, G. J., Hui, L., Jones, C. A., Palasanthiran, P., Schleiss, M. R., Shand, A. W., & Van Zuylen, W. J. (2017). Congenital cytomegalovirus infection in pregnancy and the neonate: Consensus recommendations for prevention, diagnosis, and therapy. *The Lancet Infectious Diseases, 17*(6), e177–e188. https://doi.org/10.1016/S1473-3099(17)30143-3

Schleiss, M. R. (2016). Cytomegalovirus vaccines under clinical development. *Journal of Virus Eradication, 2*(4), 198–207.

Shears, A., Yan, G., Mortimer, H., Cross, E., Sapuan, S., Kadambari, S., Luck, S., Heath, P. T., Walter, S., & Fidler, K. J. (2022). Vestibular and balance dysfunction in children with congenital CMV: A systematic review. *Archives of Disease in Childhood – Fetal and Neonatal Edition, 107*(6), 630–636. https://doi.org/10.1136/archdischild-2021-323380

Ssentongo, P., Hehnly, C., Birungi, P., Roach, M. A., Spady, J., Fronterre, C., Wang, M., Murray-Kolb, L. E., Al-Shaar, L., Chinchilli, V. M., Broach, J. R., Ericson, J. E., & Schiff, S. J. (2021). Congenital cytomegalovirus infection burden and epidemiologic risk factors in countries with universal screening: A systematic review and meta-analysis. *JAMA Network Open, 4*(8), e2120736. https://doi.org/10.1001/jamanetworkopen.2021.20736

Stoyell, S. M., Elison, J. T., Graupmann, E., Miller, N. C., Emerick, J., Ramey, E., Sandness, K., Schleiss, M. R., & Osterholm, E. A. (2024). Neurobehavioral outcomes of neonatal asymptomatic congenital cytomegalovirus infection at 12-months. *Journal of Neurodevelopmental Disorders, 16*(1), 19. https://doi.org/10.1186/s11689-024-09533-0

Suarez, D., Nielson, C., McVicar, S. B., Sidesinger, M., Ostrander, B., O'Brien, E., Ampofo, K., Ling, C. Y., Miner, L. J., & Park, A. H. (2023). Analysis of an expanded targeted early cytomegalovirus testing program. *Otolaryngology–Head and Neck Surgery, 169*(3), 670–677. https://doi.org/10.1002/ohn.320

Taylor, G. H. (2003). Cytomegalovirus. *American Family Physician, 67*(3), 519–524.

WHO. (2020). *Screening Programmes: A short guide – Increase effectiveness, maximize benefits and minimize harm*. World Health Organization. https://iris.who.int/bitstream/handle/10665/330829/9789289054782-eng.pdf