

# **MASTERPROEF IN DE LOGOPEDIE**

## **DEEL 2**

HET EFFECT VAN TWEE VERSCHILLENDE LOGOPEDISCHE INTERVENTIES OP DE SPRAAK EN GEZONDHEIDSGERELATEERDE LEVENSKWALITEIT VAN KINDEREN MET EEN GESPLETEN (LIP EN) VERHEMELTE.

Aantal woorden: 12902

Ellen Van Gaever  
Studentennummer: 01503116

Promotor: prof. dr. K. Van Lierde  
Copromotoren: dr. K. Bettens, drs. C. Alighieri

Masterproef voorgedragen tot het behalen van de graad van master in de logopedische en audiologische wetenschappen

Academiejaar: 2019 – 2020



## **Dankwoord**

Met trots kan ik vandaag mijn masterproef voorleggen als het resultaat van twee jaar intensief lezen, meten, analyseren en schrijven. Hiervoor wil ik graag enkele mensen bedanken.

Eerst en vooral wil ik prof. Van Lierde, dr. Bettens en dr. Bruneel bedanken voor hun constructieve feedback en om hun expertise op vlak van schisis met mij te delen. In het bijzonder gaat mijn dank uit naar drs. Alighieri voor de fijne samenwerking. Zij heeft me van de start tot het einde van de masterproef zeer nauw begeleid en me steeds met raad en daad bijgestaan. Dankzij haar praktisch en inhoudelijke ondersteuning kon ik deze masterproef tot een goed einde brengen.

Maarten verdient een vermelding in het dankwoord omdat hij steeds in mij bleef geloven en me onvoorwaardelijk heeft gesteund wanneer dat nodig was.

Tot slot wil ik graag mijn ouders bedanken om me de kans te geven om deze opleiding te volgen en ten alle tijden voor me klaar te staan.

### **Preambule: Invloed van de Coronamaatregelen op de masterproef.**

De maatregelen die omwille van de Coronacrisis werden ingevoerd, hadden weinig invloed op mijn masterproef. Op het moment dat de maatregelen werden ingevoerd, was de datacollectie reeds afgerond en de statistische analyses werden uitgevoerd zonder fysiek contact met de patiënten. Inhoudelijke aanpassingen van de masterproef waren dan ook niet nodig. De communicatie naar de (co)promotoren verliep via mail en videogesprekken.

'Deze preambule werd in overleg tussen de student en de promotor opgesteld en door beide goedgekeurd'

## **Abstract (Nederlandstalige versie)**

*Achtergrond:* Literatuur die de effectiviteit van behandelingsstrategieën bij kinderen met een gespleten (lip en) verhemelte (CP±L) onderzoekt is schaars. Sommige auteurs suggereerden dat een linguïstisch-fonologische benadering mogelijk zinvol kan zijn om actieve articulatiestoornissen te behandelen, maar hier is echter nog geen evidentie voor.

*Doel:* Het doel van deze studie was het vergelijken van de effectiviteit van een motorisch-fonetische benadering en een linguïstisch-fonologische benadering op het vlak van spraak en gezondheidsgerelateerde levenskwaliteit bij kinderen met CP±L.

*Methode:* Veertien kinderen (gemiddelde leeftijd 7,6 jaar; SD 2,3) tussen vier en twaalf jaar met CP±L werden via randomisatie, rekening houdende met leeftijd en geslacht, toegewezen aan ofwel de motorisch-fonetische ofwel de linguïstisch-fonologische therapiegroep. De motorisch-fonetische en de linguïstisch-fonologische therapiegroepen kregen elk tien uur individuele therapie gedurende twee weken. Perceptuele spraakanalyses werden zowel voor als na therapie uitgevoerd. Bovendien werd de verandering in gezondheidsgerelateerde levenskwaliteit geëvalueerd aan de hand van de Nederlandstalige VELO-vragenlijst.

*Resultaten:* De statistische analyse toonde enkel significante verbeteringen op vlak van spraak aan binnen de linguïstisch-fonologische therapiegroep. Significante verbeteringen op vlak van de gezondheidsgerelateerde levenskwaliteit werden zowel binnen de linguïstisch-fonologische als de motorisch-fonetische therapiegroep gevonden.

*Conclusie:* De huidige studie stelt dat het aanwenden van een linguïstisch-fonologische therapiebenadering inzetbaar kan zijn om actieve articulatiestoornissen bij kinderen met CP±L te behandelen. Toekomstig onderzoek met grotere proefgroepen, bij patiënten met verschillende karakteristieken en op langere termijn, blijft noodzakelijk om de resultaten van dit onderzoek te bevestigen.

## **Abstract (English version)**

*Background:* Literature describing treatment strategies for children with cleft (lip and) palate (CP±L) is rare. Some authors suggested that a linguistic-phonological approach could possibly be useful to treat active articulation disorders. However there is currently no evidence to support this hypothesis.

*Goal:* The goal of this study was to compare the effectiveness of a motoric-phonetic approach with the effectiveness of a linguistic-phonological approach on speech and health-related quality of life of children with CP±L.

*Method:* Fourteen children (mean age: 7.6 years, SD 2.3) between the age of four and twelve years old with CP±L were assigned to either the motoric-phonetical or the linguistic-phonological approach using blocked-randomization. The motoric-phonetical or linguistic-phonological groups each received ten hours of individual treatment within a period of two week. Perceptual speech analyses on multiple occasions were performed before and after treatment. Furthermore, health-related quality of life was evaluated using the VELO-questionnaire.

*Results:* Statistical analysis only showed significant improvements in speech within the linguistic-phonological therapy group. Significant improvement in the health-related quality of life was found within both the linguistic-phonological and motor-phonetic therapy group.

*Conclusion:* The present study suggest that a linguistic-phonological therapy approach may be useful to treat active articulation disorders in children with CP±L. Further research including larger sample sizes, patients with different characteristics and long-term investigation is necessary to confirm current findings.

## Inhoudstafel

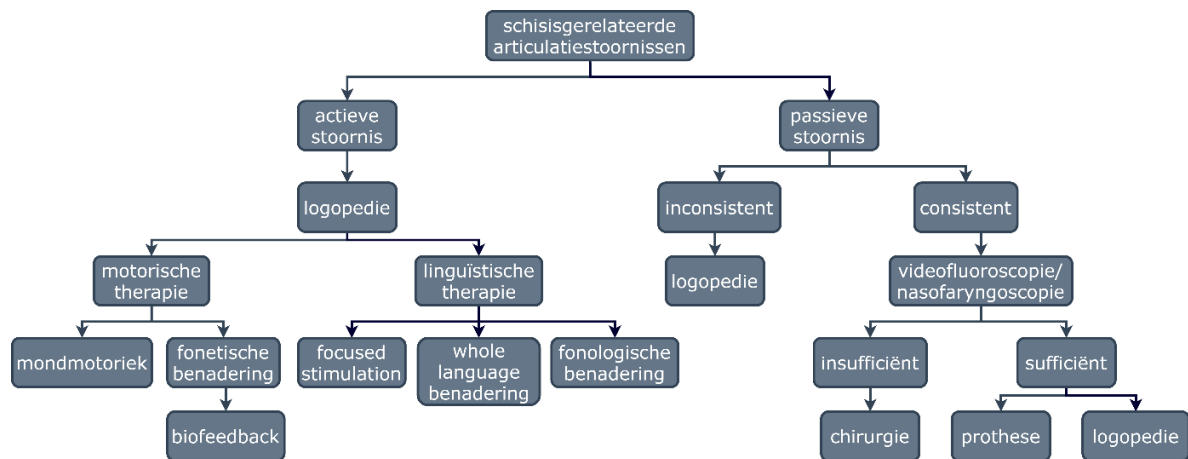
Inleiding .....	8
Methodologie .....	13
Participanten.....	13
Procedure .....	15
Therapie .....	15
Beoordeling .....	16
Perceptuele beoordeling.....	16
Vragenlijsten.....	18
Statistische analyse .....	19
Resultaten .....	19
Intraclass correlatiecoëfficiënten .....	19
Perceptuele beoordeling.....	19
Evolutie van de baselinewaarden .....	19
Evolutie van de variabelen over de tijd .....	20
VELO-vragenlijst.....	25
Evolutie van de baselinewaarden .....	25
Evolutie van de variabelen over de tijd .....	26
SES-vragenlijst.....	29
Discussie .....	30
Effectiviteit van logopedische therapie ongeacht de specifieke therapiebenadering .....	30
Effectiviteit van de motorische-fonetische interventie versus de linguïstisch-fonologische interventie .....	31
Sterktes en limitaties.....	33
Conclusie.....	34
Referenties .....	36
Appendix.....	39

## Inleiding

Een gespleten verhemelte met of zonder een gespleten lip (CP±L) (Allori et al., 2017) is de 4<sup>de</sup> meest voorkomende aangeboren afwijking en het meest voorkomende congenitale defect van het aangezicht (Kummer, 2013). De incidentie van CP±L is 1 op 1000 levend geboren en komt vaker voor bij jongens dan bij meisjes (2:1) (Worley, Patel, & Kilpatrick, 2018). CP±L kan geïsoleerd voorkomen of geassocieerd met een syndroom. CP±L is namelijk een kenmerk in meer dan 200 genetische syndromen (Allori et al., 2017; Mossey et al., 2009). De meest voorkomende gevolgen van CP±L zijn voedings- en slikproblemen (Miller, 2011), spraakproblemen (Nyberg, Neovius, & Lohmander, 2018), esthetische problemen (Lauris et al., 2017) en problemen met het gehoor (Imbery et al., 2017). Daarnaast kunnen als gevolg van eventuele negatieve reacties op de afwijkende spraak en/of op het afwijkend uiterlijk ook psychologische problemen (Wehby et al., 2012) en/of problemen met sociale integratie (Farronato et al., 2014) ontstaan. De World Health Organization (WHO, 1980, 2001) pleitte dan ook voor een bredere kijk op pathologieën. Bijgevolg werd de impact van CP±L op het individueel functioneren (activiteiten) van een persoon en op sociaal vlak (participatie) eveneens beschreven (Bessell et al., 2013).

Bij kinderen met CP±L kunnen zowel articulatiestoornissen als resonantiestoornissen aanwezig zijn. De articulatiestoornissen bij CP±L kunnen onderverdeeld worden in passieve en actieve schisisgerelateerde spraakkenmerken (CSC's) (Harding & Grunwell, 1998). Passieve articulatiestoornissen zijn het rechtstreekse gevolg van de afwijkende anatomische structuur van het spraakapparaat. Bijgevolg is er vaak een chirurgische correctie van de structuren nodig om de passieve articulatiestoornissen te elimineren. De meest voorkomende passieve articulatiestoornissen zijn resonantiestoornissen zoals hypernasaliteit, verminderde intraorale drukopbouw bij de productie van plosieven, verminderde fricatie bij de productie van fricatieven en nasale luchtstroomstoornissen zoals nasale emissie. Bij actieve articulatiestoornissen treedt er een wijziging van articulatieplaats op ter compensatie van een abnormale anatomische structuur. Faryngaal en laryngaal geproduceerde plosieven en fricatieven en glottale productie van drukconsonanten zijn de meest voorkomende actieve stoornissen (Kummer, 2011).





**Fig.1** Therapeutische benadering van schisisgerelateerde articulatiestoornissen. (Aangepast en overgenomen van Bessell et al., 2013)

De therapeutische benadering van schisisgerelateerde articulatiestoornissen is afhankelijk van het type spraakstoornis (Fig.1). De eliminatie van passieve spraakstoornissen hangt namelijk eerst en vooral af van de frequentie van de passieve articulatiestoornis: inconsistent of consistent. Bij inconsistente stoornissen wordt geopteerd om eerst door middel van logopedische therapie de passieve articulatiestoornis weg te werken. Wanneer met logopedische therapie onvoldoende vooruitgang wordt geboekt, wordt de velofaryngale functie geëvalueerd met videofluoroscopie of nasofaryngoscopie. Deze instrumentele onderzoeken worden onmiddellijk aangewend wanneer er sprake is van een consistente passieve articulatiestoornis. Het toont aan of er sprake is van een insufficiënte of een inconsistente sluiting van het velofaryngaal mechanisme. In het geval van een insufficiëntie is een chirurgische correctie van de abnormale anatomische structuren vereist, bijvoorbeeld aan de hand van de re-repair volgens Sommerlad (Sommerlad et al., 1994). Naast de secundaire chirurgie kan eventueel gebruik gemaakt worden van een prothese zoals een obturator of een palatale heffer (Kumar et al., 2016). Actieve articulatiestoornissen worden daarentegen steeds logopedisch behandeld. De logopedische behandeling wordt opgesplitst in twee luiken: motorische therapie en linguïstische therapie (Bessell et al., 2013).

De systematische review van Bessell et al. (2013) beschreef de effectiviteit van zeven studies met een motorisch-fonetische aanpak en drie studies met een linguïstisch-fonologische aanpak voor de behandeling van de actieve articulatiestoornissen bij kinderen met CP±L (Chen, Wang, & Sun, 1996; Hardin-Jones & Chapman, 2008; Ma, Wang, Zhang, & Bai, 1990; Pamplona, Ysunza, & Espinosa, 1999; Vandemark, 1974; Vandemark & Hardin, 1986; Yang, Li, & Bu, 2003). Omwille van onder andere verschillen in methodologie, de voornamelijk gedateerde onderzoeken, het risico voor bias en het gebrek aan een gedetailleerde beschrijving van de interventie, de setting, de therapeut en de geïncludeerde patiënten was het helaas niet mogelijk om de optimale leeftijd, interventie, therapiefrequentie, -intensiteit en -duur te identificeren.

Algemeen stelt de literatuur dat de motorisch-fonetische therapiebenadering van Van Riper (Van Riper, 1972), ook wel gekend als de klassieke articulatietherapie (Bessel et al., 2013), een gunstig effect heeft op de spraak van kinderen met CP±L (Chen et al., 1996; Hardin-Jones & Chapman, 2008; Ma et al., 1990; Pamplona et al., 1999; Vandemark, 1974; Vandemark & Hardin, 1986; Yang et al., 2003). Van Riper ontwikkelde in 1972 een methodologie om fonetische stoornissen foneem per foneem te behandelen. De therapie vertrekt vanuit het proces van aanleren en afleren met als doel het corrigeren van fonetische articulatiestoornissen.

Het linguïstische luik bestaat uit focused stimulation, de whole language benadering en de fonologische benadering. Focused stimulation vertrekt volgens Pushpavathi, Kavya, & Akshatha (2017) vanuit het principe dat taal het best wordt geleerd in een betekenisvolle en interactieve setting waarbij de conversatiepartner spraak en taal stimuleert. Daarnaast worden de omgeving en de activiteiten zo georganiseerd dat het kind functionele communicatie aanleert waarbinnen modeling en interactie belangrijk zijn (Pushpavathi, Kavya, & Akshatha, 2017). Het whole language model stelt dat taal en spraak moeten gezien worden als een geheel waarbij fonologie wordt gezien als een integrale component van de taalontwikkeling (Hoffman, 1994). Fonologische benaderingen focussen op de bewustwording en het gebruik van de fonologische regels van het klanksysteem. Chapman (1993) beschreef dat een actieve articulatiestoornis (fonetische stoornis) bij CP±L na verloop van tijd ingebouwd raakt in het regelsysteem van een kind en aldus leidt tot een fonologische stoornis. Op basis hiervan zou een fonologische aanpak kunnen worden aangewend voor de behandeling van actieve articulatiestoornissen bij kinderen met CP±L. Bij een fonologische therapie worden meerdere foutief geproduceerde klanken gecorrigeerd door verschillende klanken of sets van klanken tegelijk aan te bieden. Kinderen met een fonologische stoornis zijn in principe in staat om alle klanken correct te vormen en uit te spreken, maar het kind is niet in staat om de klanken correct te gebruiken in woorden. De kinderen zijn zich er niet van bewust dat klankcontrasten en morfologische regels belangrijk zijn bij de betekenisstoekenning van woorden (Howell, Dean, & Leijdekker-Brinkman, 1998). Een mogelijke therapie binnen de behandeling van fonologische stoornissen is de Metaphon-therapie (Howell, Dean, & Leijdekker-Brinkman, 1998). De Metaphon-therapie werd ontwikkeld door Howell en Dean in 1986. De benaming 'Methaphon' zelf geeft de inhoud en het doel van de therapie al aan: leren over 'meta' de klankstructuren van de eigen moedertaal 'phon'. Het doel van de therapie is namelijk dat het kind het regelsysteem van een taal verwerft en vervolgens leert toepassen. Metaphon-therapie heeft echter bredere toepassingsmogelijkheden dan enkel de oorspronkelijke doelgroep van kinderen met fonologische stoornissen van drie tot zes jaar. De Metaphon-therapie kan bijvoorbeeld, mits enkele aanpassingen (Harland, 1994), gebruikt worden bij kinderen met CP±L.

Literatuur die de effectiviteit van linguïstisch-fonologische behandelingsstrategieën bij kinderen met CP±L onderzoekt, is schaars. Wat betreft de linguïstisch-fonologische benadering kunnen de volgende twee onderzoeken besproken worden. De casestudy van Hodson, Chin, Redmond, & Simpson (1983) onderzocht de effectiviteit van een fonologisch gebaseerde remediëring. Het doel was het verbeteren van de spraakverstaanbaarheid van een vijfjarig kind met een hersteld gespleten verhemelte.

Gedurende 36 weken kreeg het kind wekelijks een therapiesessie van 60-90 minuten met daarnaast twee sessies van 20 minuten per week, aangevuld met een thuisprogramma van 65 uur gespreid over dertien weken. De interventie resulteerde in een afname van het aantal glottale stops en de eliminatie van nasale componenten of substituties. Vandemark & Hardin (1986) voerden eveneens een effectiviteitsstudie uit waarbij dertien kinderen met CP±L vier sessies van 1 uur fonologische therapie per dag kregen voor 26 dagen in een programma gespreid over zes weken. De aangeboden therapie betrof de systematische benadering van meerdere klanken tegelijk, beschreven door McCabe & Bradley (1975). Het onderzoek toonde een significante daling van het aantal articulatiefouten gedurende het programma aan, maar de percentuele daling zette zich niet verder tijdens follow-up periode.

De studies van Derakhshandeh et al. (2016) en Grunwell, Dive, & Therapy (1988) bevestigden dat een gecombineerde fonetisch-fonologisch aanpak een positief effect had op de schisisgerelateerde articulatiestoornissen van kinderen met CP±L. Recent vergeleek Alighieri et al. (2020) het effect van een fonetisch-fonologische therapie met de effectiviteit van de motorisch-fonetische therapie. Acht Oegandese patiënten met CP±L werden gelijk verdeeld over twee therapiegroepen: de motorisch-fonetische therapiegroep en de gecombineerde fonetisch-fonologische therapiegroep. Ieder patiënt ontving zes uur individuele therapie gedurende drie opeenvolgende dagen. De studie wees uit dat logopedische therapie, ongeacht de specifieke therapiebenadering, leidde tot een toename van het percentage correct geproduceerde consonanten en een afname in het aantal non-orale en passieve CSC's. Enerzijds werd er geen significant verschil in effectiviteit gevonden tussen beide therapiebenaderingen, anderzijds suggereerden de resultaten de voordelen van een gecombineerde fonetisch-fonologische aanpak in plaats van een uitsluitend fonetische aanpak.

Voor zover geweten, is er maar één studie die de effectiviteit van een zuivere linguïstische-fonologische therapie met een motorisch-fonetische therapie heeft vergeleken. Pamplona et al. (1999) bestudeerde de tijd die nodig was om een actieve articulatiestoornis volledig te elimineren bij kinderen van drie tot zeven jaar met CP±L. De kinderen werden at random toegewezen aan ofwel de linguïstische-fonologische therapiegroep ofwel de motorisch-fonetische therapiegroep en ze kregen allemaal twee sessies van 1 uur therapie per week. Pamplona (1999) concludeerde dat een zuiver linguïstisch-fonologische benadering de totale therapietijd significant verminderde ten opzicht van een motorisch-fonetische benadering om een volledige eliminatie van actieve articulatiestoornissen te bereiken: van 14-46 maanden (motorisch-fonetische) naar 6-22 maanden (linguïstisch-fonologische). Het niet rapporteren van spraakoutcomes vormt echter een limitatie in deze studie.

Het doel van deze masterproef is het nagaan of er een significant verschil bestaat tussen de effectiviteit van de motorisch-fonetische therapie (Van Riper, 1972) en de effectiviteit van linguïstisch-fonologische therapie (Metaphon-therapie: Howell, Dean, & Leijdekker-Brinkman, 1998) bij de correctie van actieve articulatiestoornissen bij kinderen met CP±L tussen vier en twaalf jaar. De effectiviteit van beide therapieën wordt bekeken op vlak van spraak en gezondheidsgerelateerde

levenskwaliiteit (HRQoL). Op basis van eerder gepubliceerde resultaten werden de volgende hypothesen voorop gesteld: er wordt verwacht dat alle kinderen met CP±L, ongeacht de specifieke therapiebenadering, een afname vertonen van de actieve articulatiestoornissen. Evenwel wordt verwacht dat de kinderen uit de linguïstisch-fonologische therapiegroep een grotere afname van actieve articulatiestoornissen laten zien dan diegene uit de motorisch-fonetische therapiegroep. Hieruit volgt dat naarmate de actieve articulatiestoornis afneemt de HRQoL toeneemt. Aangezien de studie van Pamplona et al. (1999) tot op heden het enige vergelijkende onderzoek tussen een motorisch-fonetische en linguïstisch-fonologische therapie bij kinderen met CP±L lijkt te zijn, is het aangewezen om verder vergelijkend onderzoek rond dit onderwerp uit te voeren. Onderzoek in grotere proefgroepen en bij patiënten met verschillende karakteristieken is noodzakelijk om conclusies te kunnen trekken over de effectiviteit van fonologische benaderingen bij het corrigeren van actieve articulatiestoornissen bij kinderen met CP±L.

## Methodologie

De procedure voor goedkeuring van deze masterproef werd opgestart door het Ethisch Comité van het UZ Gent op 4 april 2019 en kreeg het volgende projectnummer toegekend: 2019/0586. De masterproef kadert in het doctoraatsonderzoek van drs. Cassandra Alighieri. Dit doctoraatsonderzoek werd goedgekeurd door het Ethisch Comité van het UZ Gent (2018/1218).

## Participanten

Kinderen met CP±L, met een leeftijd tussen vier en twaalf jaar, werden gerekruteerd via de dienst logopedie en audiologie van het UZ Gent en het craniofaciale team van het UZ Gent (Tabel 1). Patiënten werden geselecteerd op basis van volgende inclusiecriteria: (1) aanwezigheid van een gespleten (lip en) verhemelte, (2) aanwezigheid van minimaal 1 actieve, compensatoire articulatiestoornis, en (3) Nederlands als moedertaal. Patiënten werden geëxcludeerd bij aanwezigheid van (1) een syndromale vorm van CP±L, (2) een matig tot ernstig gehoorverlies, (3) een psychiatrische stoornis in het heden of verleden, (4) schoolgaand in het buitengewoon lager en/of secundair onderwijs, (5) cognitieve functiestoornissen, (6) VPI (gemeten via multiview videofluoroscopie), (7) oronasale fistel. Bovendien werden patiënten geëxcludeerd indien ze logopedische therapie bleven volgens tijdens het studieverloop. Bovenstaande gegevens werden bekomen uit het patiëntendossier of door vraagstelling aan de ouders. De dataverzameling liep van oktober 2018 tot en met december 2019.

Veertien kinderen (gemiddelde leeftijd 7,6 jaar; SD 2,3), waarvan zeven meisjes en zeven jongens, voldeden aan de inclusiecriteria en waren bereid om deel te nemen aan het onderzoek. De ouders/wettelijke verantwoordelijken van de patiënten ondertekenden, na schriftelijke en mondelinge toelichting over het onderzoek, het toestemmingsformulier bij aanvang van het onderzoek.

De SES-vragenlijst (sociaal-economische status vragenlijst) werd afgenomen om te peilen naar de sociaal-economische status van het gezin van de proefpersoon (Appendix 2 – bijlage 1). De formule van Hollingshead werd gebruikt om de SES van het gezin van de proefpersoon te berekenen:  $SES = (\text{beroep} * 5) + (\text{opleiding} * 3)$  (Hollingshead, 1975). Via een algemene anamnesevragenlijst werd informatie verzameld omtrent de (medische) voorgeschiedenis van de proefpersoon en werd extra achtergrondinformatie verzameld (Appendix 2 – bijlage 2). Zo werd onder andere nagegaan of er reeds logopedie gevolgd werd. Indien dit het geval was, werd de frequentie en de intensiteit van de logopedische therapie bevraagd.

**Tabel 1.** Demografische gegevens en schisis karakteristieken van de proefpersonen.

Motorisch-fonetische groep (n=7)							
Patiënt	1*	2	3	4	5*	6*	7
Leeftijd	4;6j	12;3j	5;5j	7;8j	5;3j	5;9j	7;6j
Geslacht	M	M	V	M	M	M	V
Schisistype	uCLAP links	uCLAP rechts	smCP	CP	smCP	bCLAP	CP
Leeftijd lipplastiek	3mnd	4mnd	/	/	/	/	/
Leeftijd palatoplastiek	11mnd	1;1j	5;4j	1;5	5j	1;8j	8mnd
Secundaire chirurgie	/	/	/	/	/	revisie lipplastiek (1;8j)	/
Leeftijd bottransplant	/	10;3j	/	/	/	/	/
Gehemelteplaatje	/	/	/	/	/	/	/
VPI	/	/	/	/	onbekend	/	/
Schoolproblemen	/	spelling	/	lezen	/	/	/
Logopedische therapie (frequentie, duur)	1x week 30min 1j	1x week 30min 10j	≥3x week 30min 3j	2x week 30min 5j	2x week 30min 1j	2x week 30min 3j	2x week 30min 4j
Bijkomende chirurgie: -frenulotomie -adenotomie -tonsillectomie	/	/	/	ja	/	/	/
Orthodontie	/	(nacht-) beugel	/	/	/	/	/
Linguïstisch-fonologische groep (n=7)							
Patiënt	1	2*	3*	4*	5*	6	7*
Leeftijd	8;4j	5;2j	7;3j	7;9j	10;6j	7;7j	10;5j
Geslacht	V	M	V	V	M	V	V
Schisistype	uCLAP links	uCLAP links	uCLAP links	bCL±P	uCLAP rechts	CP	bCL±P
Leeftijd lipplastiek	3mnd	4mnd	1;3j	4mnd	10;4j	/	4mnd
Leeftijd palatoplastiek	1;2j	1;1j	12mnd	9 mnd	11mnd	11mnd	10mnd
Leeftijd secundaire chirurgie	/	4;11j	/	/	3;8j	/	/
Secundaire chirurgie	/	revisie palatoplastie met faryngoplastie	/	/	sluiting verhemelte-fistel	/	/
Leeftijd bottransplant	/	/	/	/	/	/	/
Gehemelteplaatje	/	/	/	/	/	/	/
VPI	/	/	/	/	/	/	/
Schoolproblemen	/	/	Lezen	/	/	lezen	auto-matisatie
Logopedisch therapie (frequentie, duur)	1x week 60min 4j	2x week 30min 1j	2x week 30min 3j	1x week 30min 4j	2x week 30min 5j	2x week 30min 4j	≥3x week 30min 6j
Bijkomende chirurgie: -frenulotomie -adenotomie -tonsillectomie	/	ja	/	/	ja ja ja	/	/
Orthodontie	/	/	/	/	ja	/	beugel

CLAP, cleft lip, alveolus and palate; CP, cleft palate; CL±P, cleft lip with/without palate; sm, submucous; u, unilateraal;

b, bilateraal; M, mannelijk; V, vrouwelijk; \* shamgroep

## Procedure

De testafnames en de therapie vonden plaats in de thuisomgeving of op de school van de proefpersonen, maar steeds in een stille ruimte met zo min mogelijk afleiding. De studie verliep voor de proefpersonen over een periode van in totaal twaalf weken (Fig. 2).



**Fig.2** Studieverloop.

\*shaminterventie voorafgaand aan de eigenlijke interventie (tussen premeting 2 en 3), 1u/dag gedurende vijf dagen (toewijzing via randomisatie, rekening houdende met leeftijd en geslacht)

## Therapie

Via randomisering, rekening houdende met leeftijd en geslacht, werden zeven proefpersonen toegekend aan de motorisch-fonetische therapiegroep en zeven aan de linguïstisch-fonologische therapiegroep. De personen in deze groepen kregen respectievelijk de traditionele articulatietherapie (Van Riper, 1972) en de Metaphon-therapie (Howell, Dean, & Leijdekker-Brinkman, 1998).

De motorisch-fonetische therapie (Van Riper, 1972) richtte zich op de correcte productie van een klank die geïsoleerd foutief werd gevormd. Oude en foutieve articulatiepatronen werden foneem per foneem afgeleerd en vervangen door nieuwe en juiste articulatiepatronen. Dit proces gebeurde op vier niveaus: klankniveau, syllabeniveau, woordniveau en zinsniveau. Binnen elk niveau werden telkens vier stappen doorlopen: (1) identificatie, (2) scannen/vergelijken, (3) variëren/corrigeren en (4) stabiliseren. Metaphon-therapie is een fonologische benadering die bestaat uit twee fasen. Het bewustzijn van de klankeigenschappen en hun onderlinge relatie staat centraal in de eerste fase. Het ging in deze fase om de ontwikkeling van het metalinguïstisch vermogen (Cazden, 1972). De eerste fase omvatte volgende opeenvolgende niveaus: begrips-, klank-, foneem- en woordniveau. Fase twee omvatte drie hoofddoelen. Het eerste hoofddoel was de transfer van de metafonologische kennis uit fase 1 naar communicatieve situaties. Het tweede hoofddoel was de ontwikkeling van het communicatief bewustzijn en het derde hoofddoel was het ontwikkelen van het fonologisch bewustzijn om zelfcorrectie te stimuleren. De therapie maakte gebruik van een klank in een woord door te werken met minimale paren (bv. toe-koe).

De doelconsonanten werden bepaald op basis van de impact van de consonant op de spraakverstaanbaarheid. De consonanten met de meest significante impact op de spraakverstaanbaarheid werden gekozen als doelconsonanten. De doelconsonanten verschilden daardoor individueel per proefpersoon. Beide therapieën werden gegeven door drs. Cassandra Alighieri met een intensiteit van vijf keer per week gedurende twee weken. Iedere therapiesessie was individueel en duurde 1 uur zodat in totaal tien uur therapie gegeven werd na twee weken.

Naast beide therapieënaderingen werd mogelijk een bijkomende interventie gegeven, de shaminterventie. Deze interventie focuste op stemoefeningen. Hierbij kwamen stemhygiëne, houding, ademhaling en steminzet aan bod. De stemoefeningen waren identiek toepasbaar binnen de brede leeftijdsrange van vier tot twaalf jaar in deze masterproef en hadden geen invloed op de aanwezige articulatiestoornissen. De shamgroep had enerzijds de functie van controlegroep in de sham-controlled trial, anderzijds zorgde de shamgroep ervoor dat het optreden van experimentele 'ruis' kon nagegaan worden (Blease & medicine, 2018). De shaminterventie werd gegeven door Ellen Van Gaever met een intensiteit van vijf keer per week gedurende een week. Iedere therapieessie was individueel en duurde 1 uur zodat een totaal van vijf uur therapie bereikt werd na een week. De shaminterventie vond plaats in de week voorafgaand aan de motorisch-fonetische of linguïstisch-fonologische therapie (tussen premeting 2 en 3) gegeven door drs. Cassandra Alighieri. Bovendien kreeg niet iedere proefpersoon de shaminterventie. Het al dan niet krijgen van de shaminterventie werd, zoals de toewijzing tot een therapiegroep, bepaald door randomisatie. De randomisatie hield rekening met leeftijd en geslacht. 3/7 proefpersonen uit de motorisch-fonetische therapiegroep en 5/7 proefpersonen uit de linguïstisch-fonologische therapiegroep ontvingen de shaminterventie.

## Beoordeling

De meetprocedure bestond uit een perceptuele spraakbeoordeling en enkele vragenlijsten.

### Perceptuele beoordeling

Op basis van een uitgebreid spraakstaal (i.e. spontane spraak, automatische reeksen, zinsniveau en woordniveau) werden verschillende, ordinale parameters beoordeeld (Bruneel et al., 2019). Video- en audio-opnames van het spraakstaal werden respectievelijk opgenomen met een Sony Handycam HDR-CX280E en met een unidirectionele condensatiemicrofoon (Samson, C01U) verbonden met het softwareprogramma Praat, versie 6.0.05 (Boersma & Weenink, 2015). Alle opnames gebeurden in de thuisomgeving of op de school van de proefpersoon, in een stille ruimte.

De perceptuele spraakbeoordeling gebeurde aan de hand van het CAPS-A-NL (Bruneel et al., 2019). De spontane spraak werd uitgelokt aan de hand van open vragen over bijvoorbeeld de hobby's of interesses van de proefpersoon. Tellen van 0-20, 60-70 en het opnoemen van de dagen van de week waren de automatische reeksen die tijdens de meting afgenomen werden. Voor de kinderen in de kleuterklas was het voldoende om te tellen van 0-20 en de dagen van de week op te noemen. De gebalanceerde spraakstalen op zins- en woordniveau, die werden gecontroleerd voor drukconsonanten en hoge vocalen, lokten alle drukconsonanten van het Nederlands uit in alle mogelijke posities. Het spraakstaal op zinsniveau werd verzameld door het herhalen van zinnen met ondersteuning van lijntekeningen. Op woordniveau werd de patiënt gevraagd om lijntekeningen te benoemen. Wanneer de proefpersoon de lijntekening niet spontaan kon benoemen, werd een aanvulzin aangeboden als semantische cue. Indien de proefpersoon de lijntekening nog steeds niet kon benoemen ondanks de semantische cue, werd een fonologische cue aangeboden, namelijk de eerste letter van het doelwoord. Wanneer beide cues niet leidden tot het correct benoemen van de lijntekening werd het woord voorgezegd en vervolgens herhaald door de proefpersoon.



Een gestructureerd luisterprotocol werd ontwikkeld om verschillende parameters perceptueel te beoordelen (Bruneel et al., 2019) (Tabel 2).

**Tabel 2.** Aangepast luisterprotocol perceptuele beoordeling CAPS-A-NL. (Aangepast en overgenomen van (Bruneel et al., 2019).

	Spraakstaal	Parameter
1	Audio spontane spraak (éénmaal beluisteren)	Spraakverstaanbaarheid
2	Audio + video spontane spraak	Consonantproducties
3	Audio + video automatische reeksen	Consonantproducties
4	Audio + video zinnen	Consonantproducties, hypernasaliteit
5	Audio + video totale spraakstaal	Aanvaardbaarheid, algemene opmerkingen spraak/taal; beïnvloedende factoren en nood aan logopedische interventie
6	Audio + video woorden en zinnen	CSC's, niet-orale CSC's

CSC's = Cleft Speech Characteristics

De parameter 'spraakverstaanbaarheid' (binnen de norm, mild, matig, ernstig gestoord) werd beoordeeld op basis van het éénmalig beluisteren van het audiofragment van de spontane spraak. Voor resonantie werd de parameter 'hypernasaliteit' (afwezig, borderline/minimaal, mild, matig, ernstig) beoordeeld op basis van de zowel de audio- als video-opnames van de zinnen. Op basis van zowel de audio- als videofragmenten van het totale spraakstaal, werd de aanvaardbaarheid van de spraak (binnen de norm, mild, matig, ernstig) beoordeeld (Appendix 1 – bijlage 1). De consonantproducties werden beoordeeld op basis van de audio- en video-opnames van de spontane spraak, automatische reeksen, de zinnen en de woorden. Voor de evaluatie van de consonantproductie, werd in het kader van de huidige masterproef een fonetische transcriptie volgens het Internationaal Fonetisch Alfabet (IPA) (Association, 1999) gemaakt van zowel de spraakstalen op zinsniveau als op woordniveau. De CSC's werden onderverdeeld in vier categorieën (John, Sell, Sweeney, Harding-Bell, & Williams, 2006; Sell et al., 2009): (1) anterior orale CSC's, (2) posterior orale CSC's, (3) niet-orale CSC's en (4) passieve CSC's. Deze categorieën werden gescoord in een samenvattende tabel op basis van de uitgebreide fonetische transcripties (Appendix 1 – bijlage 2). Bruneel et al. (2019) beoordeelde de consonantproducties enkel op basis van de zinnen, terwijl in deze outcomestudie de consonantproducties eveneens op basis van de woorden werd beoordeeld. Het CAPS-A-NL-protocol (Bruneel et al., 2019) werd in deze masterproef aangevuld met het meten van het percentage correcte geproduceerde consonanten. Dit gebeurde aan de hand van drie verschillende percentages: het percentage correcte consonanten-revised (PCC-R), het percentage correcte articulatieplaatsen (PCP) en het percentage correcte articulatielijnen (PCM). De percentages werden berekend volgens de richtlijnen beschreven door Klinto, Salameh, Svensson, & Lohmander (2011). PCC-R werd berekend met de formule:  $PCC-R = (\text{aantal correcte consonanten} / \text{totaal aantal consonanten} \times 100)$ . PCP en PCM werden op dezelfde wijze berekend (Klinto et al., 2011). PCC-R rekent zowel veel voorkomende als ongebruikelijke consonantdistorties juist. Volgens PCC-R mogen

bijvoorbeeld stemloze fricatieven en interdentaliteit als correct beschouwd worden (Debbie Sell & Sweeney, 2020; Shriberg, Austin, Lewis, McSweeney, & Wilson, 1997).

Alle spraakstalen werden geanonimiseerd en gerandomiseerd vooraleer de beoordelingen plaatsvonden. 100% van de spraakstalen ( $n=95$ ) werden beoordeeld door dr. Laura Bruneel en Ellen Van Gaever met respectievelijk zes jaar en geen ervaring in het beoordelen van schisisspraak. Op die manier werd de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid berekend. Om de intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid te berekenen, beoordeelde Ellen Van Gaever twee weken later 20% ( $n=19$ ) van de spraakstalen opnieuw. De spraakstalen werden beoordeeld met een hoofdtelefoon type over-ears.

### Vragenlijsten

Om de HRQoL van de proefpersonen te bekijken werden de Nederlandstalige VELO-vragenlijsten gebruikt (Bruneel et al., 2017). Bij kinderen ouder dan acht jaar, werd zowel de VELO-kindervragenlijst als de VELO-oudervragenlijst afgenomen. Bij kinderen jonger dan acht jaar, werd enkel de VELO-oudervragenlijst afgenomen. De oudervragenlijst bestaat uit 26 subitems verdeeld over de volgende 7 categorieën: beperkingen van de spraak (7 items), slikproblemen (3 items), situationele moeilijkheden (5 items), emotionele impact (4 items), perceptie door anderen (4 items) en impact op de zorgverlener (3 items) (Appendix 2 – bijlage 3). De kindervragenlijst bestaat uit 23 items door het wegvallen van de categorie 'impact op de zorgverlener' (Appendix 2 – bijlage 4). Ieder item wordt gescoord volgens een Likert-schaal, gaande van 0 (nooit) tot 4 (bijna altijd). De totale scores op de VELO-vragenlijst en op de subschalen gaan van 0 'minimale levenskwaliteit' tot 100 'maximale levenskwaliteit'.

De VELO-vragenlijsten werden viermaal afgenomen, tweemaal voor de interventie, eenmaal onmiddellijk na de interventie en eenmaal een maand na de interventie. De totale scores op de VELO-vragenlijsten werden berekend met de formule: (totale) score op de Nederlandstalige VELO-vragenlijst =  $100 - (\text{gemiddelde van alle items} * 25)$  (Bruneel et al., 2017). Om de betrokkenheid van de ouders tijdens het therapieverloop in kaart te brengen, werd aan de ouders gevraagd om een overzicht bij te houden van de oefenmomenten die thuis plaatsvonden tijdens het verloop van het onderzoek. Op die manier werd in kaart gebracht wanneer, met wie en wat er werd geoefend en wat de kinderen en ouders zelf beschouwden als resultaat van dat oefenen. De ouders kregen schriftelijke en mondelinge instructies om thuis te oefenen en ontvingen extra oefeningen om thuis met hun kind te doen.

De pre- en postmetingen metingen werden uitgevoerd door drs. Cassandra Alighieri, dr. Laura Bruneel of Ellen Van Gaever.

## Statistische analyse

Het softwareprogramma SPSS Statistics (versie 25) (SPSS Inc., 25 Chicago, Illinois) werd gebruikt om de statistische analyse van de gegevens uit te voeren. Bij uitvoering van de statistische testen werd een significantieniveau  $\alpha \leq 0,05$  toegepast. Inter- en intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid werden berekend aan de hand van intraclass correlatiecoëfficiënten (ICC's). Voor de inter- en intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid, werden two-way mixed en single measure ICC's berekend. Er zijn verschillende classificaties met betrekking tot het niveau van significantie. In deze masterproef werd gekozen voor de classificatie van Altman (1990): (ICC < 0,20: slecht; 0,21-0,40: behoorlijk; 0,41-0,60: gemiddeld; 0,61-0,80: goed; 0,81-1,00: zeer goed). De normaliteit van continue variabelen werd nagegaan met de Shapiro-Wilk test, het QQ-plot en de boxplot. Linear mixed models werden gebruikt om de twee behandelingsgroepen (fonetisch/fonologisch) te vergelijken over de tijd voor elke continue variabele. Hierbij werden de tijd (verschillende datapunten), de groepen (fonetisch/fonologisch en sham/geen sham) en groepen over de tijd heen (tijd\*groep interactie) als fixed factors gekozen. Een random intercept voor 'participanten' werd geïncorporeerd. De tijdseffecten binnen een groep werden bepaald aan de hand van post-hoc analyses met Bonferroni-correctie. Bovendien werd er gebruik gemaakt van de restricted maximum likelihood estimation en een Toeplitz structuur om rekening te houden met de structuur van de data. Generalized linear mixed models werden op een gelijkaardige manier gebruikt om de evolutie van de categorische variabelen tussen de twee groepen te vergelijken. Om na te gaan of er een verschil was tussen de gemiddelde sociaal-economische status van de twee behandelgroepen (fonetisch/fonologisch) werd de ongepaarde Student's t-test gebruikt.

## Resultaten

### Intraclass correlatiecoëfficiënten

Een behoorlijke interbeoordelaarsbetrouwbaarheid werd gevonden met single measure ICC's van 0,286. Een gemiddelde intrabeoordelingsbetrouwbaarheid werd gevonden met single measure ICC's van 0,532. Omwille van de eerder lage graad van intrabeoordelingsbetrouwbaarheid werd besloten om de statistische analyses verder uit te voeren met analyses van dr. Laura Bruneel. Door haar werd een goede intrabeoordelingsbetrouwbaarheid gevonden met single measure ICC's van 0,621.

### Perceptuele beoordeling

#### Evolutie van de baselinewaarden

Om na te gaan of de shaminterventie een significant effect had, werden primaire analyses gebaseerd op een vergelijking tussen vier groepen: motorisch-fonetisch sham/geen sham en linguïstisch-fonologisch sham/geen sham. Een paarsgewijze vergelijking van deze vier groepen, rekening houdende met de post-hoc Bonferroni-correctie, tussen de baselinetijdstippen T2 en T3 (de tijdstippen waartussen shaminterventie werd gegeven) werd uitgevoerd. Deze vergelijking toonde geen significante verschillen in de outcomevariabelen tussen de groepen, wat aantoonde dat shaminterventie geen significant effect had ( $p > 0,013$ ). Verdere analyses werden daarom gebaseerd op een vergelijking van twee groepen: de motorisch-fonetische groep en de linguïstisch-fonologische groep. Een vergelijking van de baselinewaarden tussen deze twee groepen op de drie

baselinetijdstippen (T1, T2 en T3) toonde geen statistisch significante verschillen aan, wat wijst op een stabiele baseline. Door aan te tonen dat de patiënten stabiele spraakkenmerken hadden voorafgaand aan de therapie-interventie, werd de gemiddelde waarde van de drie baselinepunten (pre-interventie) voor iedere variabele berekend en gebruikt voor de verdere analyse.

#### Evolutie van de variabelen over de tijd

De evolutie van de variabelen van beide groepen, motorisch-fonetische interventie en linguïstisch-fonologische interventie, wordt weergegeven in de tabellen 3 en 4.

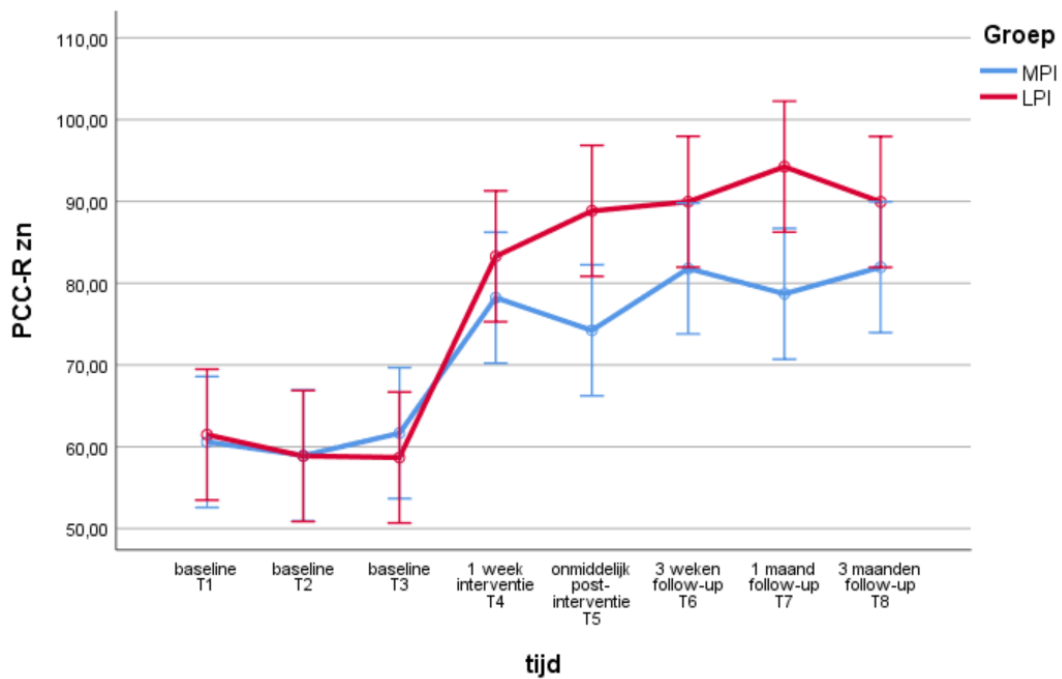
De (G)LMM toonden voor geen enkele variabele significante interacties tussen tijd en groep aan. Dit wijst op niet-significante verschillen in de evolutie over de tijd tussen beide groepen. Bij het vergelijken van de twee groepen werden significante groepseffecten gevonden voor de continue en categorische variabelen 'spraakverstaanbaarheid' ( $F(1,42)=56,651$ ;  $p<0,001$ ), 'faryngaal' ( $F(1,1)=7,692$ ;  $p=0,007$ ), 'gliding' ( $F(1,0)=7,000$ ;  $p=0,010$ ), 'hypernasaliteit' ( $F(1,14)=6,770$ ;  $p=0,011$ ), 'aanvaardbaarheid' ( $F(1,15)=19,623$ ;  $p<0,001$ ), 'anterieur orale CSCs' ( $F(1,3)=7,347$ ;  $p=0,008$ ) en 'non-orale CSC's' ( $F(1,9)=26,694$ ;  $p<0,001$ ). De significante groepseffecten bij het vergelijken van de motorisch-fonetische en linguïstisch-fonologische groep wijzen op een significant verschil tussen de groepen onafhankelijk van de tijd.

Significante tijdseffecten werden gevonden voor de volgende variabelen: 'PCC-R op zinsniveau' ( $F(7,10)=12,184$ ;  $p<0,001$ ), 'PCC-R op woordniveau' ( $F(7,14)=22,488$ ;  $p<0,001$ ), 'PCP op zinsniveau' ( $F(7,23)=9,811$ ;  $p<0,001$ ), 'PCP op woordniveau' ( $F(7,20)=11,006$ ;  $p<0,001$ ), 'PCM op woordniveau' ( $F(7,27)=3,419$ ;  $p=0,009$ ), 'spraakverstaanbaarheid' ( $F(7,23)=4,447$ ;  $p<0,001$ ), 'aanvaardbaarheid' ( $F(7,24)=4,427$ ;  $p<0,001$ ), 'anterieur orale CSCs' ( $F(7,64)=18,824$ ;  $p<0,001$ ), 'non-orale CSCs' ( $F(7,31)=13,964$ ;  $p<0,001$ ). Deze resultaten wijzen erop dat alle individuen positief evolueerden over de tijd onafhankelijk van de therapie die ze kregen. Bij een verdere analyse werden voor de motorisch-fonetisch groep op vlak van spraak geen significante verbeteringen gevonden. Voor de linguïstisch-fonologische groep werden voor meerdere variabelen op vlak van spraak significante verbeteringen gevonden. De analyses binnen de linguïstisch-fonologische groep lieten namelijk significante verbeteringen zien voor onderstaande continue variabelen. PCC-R op zinsniveau (Fig.3) verbeterde van 59,68% pre-interventie tot 88,84% onmiddellijk post-interventie en tot 89,94% tot drie maanden follow-up, wat overeenkomt met een stijging van respectievelijk 29,16% en 30,26%. Het PCC-R op woordniveau (Fig. 4) verbeterde van 57,54% pre-interventie tot 88,46% onmiddellijk post-interventie, wat overeenkomt met een stijging van 30,92%. Het PCP op zinsniveau (Fig.5) verbeterde van 62,58% pre-interventie tot 87,53% onmiddellijk post-interventie en 84,23% tot 3 maanden follow-up, wat overeenkomt met een respectievelijke stijging van 24,95% en 21,65%. Het PCP op woordniveau (Fig.6) verbeterde van 61,11% pre-interventie tot 88,35% onmiddellijk post-interventie en 86,59% tot drie maanden follow-up, wat overeenkomt met een respectievelijke stijging van 27,24% en 25,48%. Ook enkele categorische variabelen verbeterden significant binnen de linguïstisch-fonologische groep. De spraakverstaanbaarheid ( $p=0,004$ ), aanvaardbaarheid van de spraak ( $p=0,001$ ), anterieur orale CSC's ( $p<0,001$ ) en de non-orale CSC's ( $p<0,001$ ) evolueerden positief van de pre-interventie tot de onmiddellijk post-interventie. De anterieur orale CSC's ( $p<0,001$ ) en de non-orale CSC's ( $p<0,001$ ) evolueerden ook positief van de pre-interventie tot drie maanden follow-up.

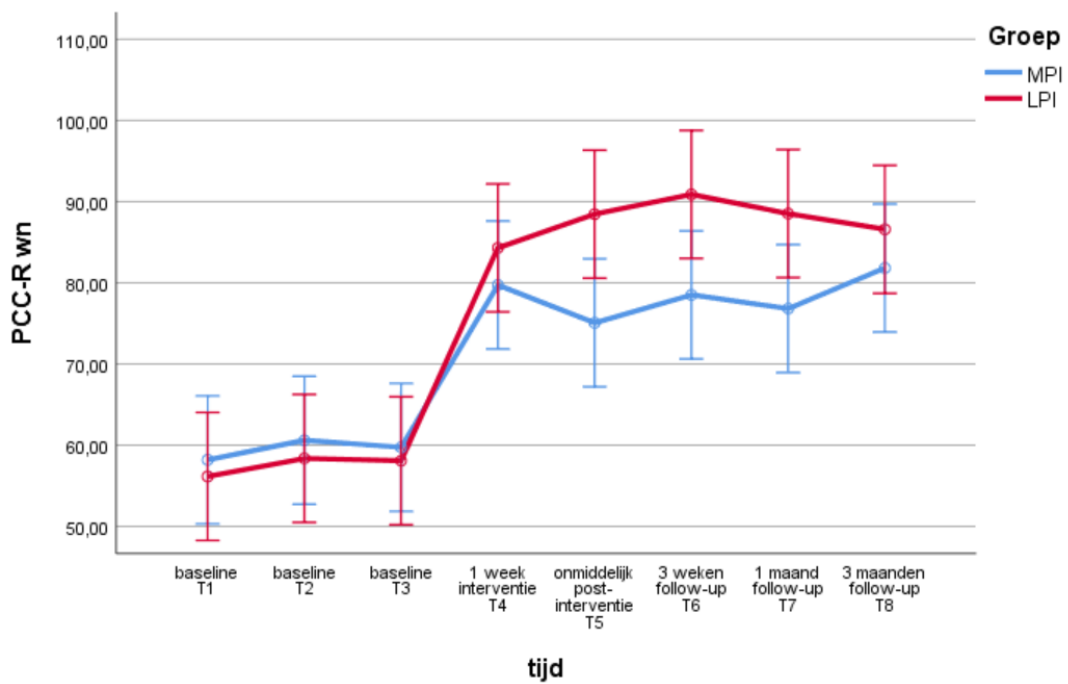
**Tabel 3.** Evolutie van de continue variabelen bij de motorisch-fonetische interventie (MPI) en de linguïstisch-fonologische interventie (LPI).

													vergelijking tijd binnen groepen			
													evolutie			
Variabele	groep	pre-interventie		onmiddellijk post-interventie T5		3 weken follow-up T6		3 maanden follow-up T8		tijd *	groep	tijd	pre-interventie - T5	pre-interventie - T8	T5 - T6	T5 - T8
		EM	95%CI	EM	95%CI	EM	95%CI	EM	95%CI	p-waarde	p-waarde	p-waarde	p-waarde	p-waarde	p-waarde	p-waarde
<b>PCC-R zn</b>	MPI	60,39	[51,06;69,72]	74,23	[64,90;83,56]	78,70	[69,37;88,04]	81,96	[72,63;91,29]	0,247	0,152	<0,001*	0,153	0,199	1,000	1,000
	LPI	59,68	[51,99 67,37]	88,84	[81,15;96,53]	94,24	[86,56;101,93]	89,94	[82,25;97,63]				<0,001*	<0,001*	1,000	1,000
<b>PCC-R wn</b>	MPI	59,52	[50,63;68,40]	75,07	[66,18;83,96]	76,82	[67,94;85,71]	81,82	[72,93;90,71]	0,218	0,228	<0,001*	0,075	0,189	1,000	1,000
	LPI	57,54	[49,55;65,53]	88,46	[80,47;96,45]	88,52	[80,53;96,52]	86,59	[78,60;94,58]				<0,001*	0,020	1,000	1,000
<b>PCP zn</b>	MPI	65,06	[56,61;73,52]	78,27	[69,81;86,73]	84,72	[76,27;93,18]	86,77	[78,31;95,23]	0,542	0,624	<0,001*	0,196	0,044	1,000	1,000
	LPI	62,58	[54,66;70,49]	87,53	[79,61;95,45]	92,55	[84,63;100,46]	84,23	[76,31;92,14]				<0,001*	0,003*	1,000	1,000
<b>PCP wn</b>	MPI	63,19	[54,83;71,56]	77,83	[69,47;86,20]	83,30	[74,94;91,67]	85,67	[77,30;94,04]	0,642	0,466	<0,001*	0,073	0,013	1,000	1,000
	LPI	61,11	[53,07;69,14]	88,35	[80,31;97,34]	88,98	[80,95;97,02]	86,59	[77,55;94,63]				<0,001*	0,011*	1,000	1,000
<b>PCM zn</b>	MPI	92,66	[86,30;99,03]	90,17	[83,81;96,54]	96,41	[90,05;102,76]	94,13	[87,77;100,50]	0,149	0,357	0,249	1,000	1,000	0,991	1,000
	LPI	93,36	[89,72;97,00]	98,84	[95,20;102,48]	99,08	[95,44;102,72]	100,00	[96,36;103,64]				0,229	0,108	1,000	1,000
<b>PCM wn</b>	MPI	91,39	[85,29;97,49]	97,24	[91,14;103,34]	96,22	[90,12;102,32]	96,15	[90,06;102,25]	0,351	0,268	0,009*	0,326	0,262	1,000	1,000
	LPI	96,81	[95,15;98,47]	100,00	[98,34;101,66]	99,54	[97,88;101,20]	99,54	[97,88;101,20]				0,076	0,255	1,000	1,000

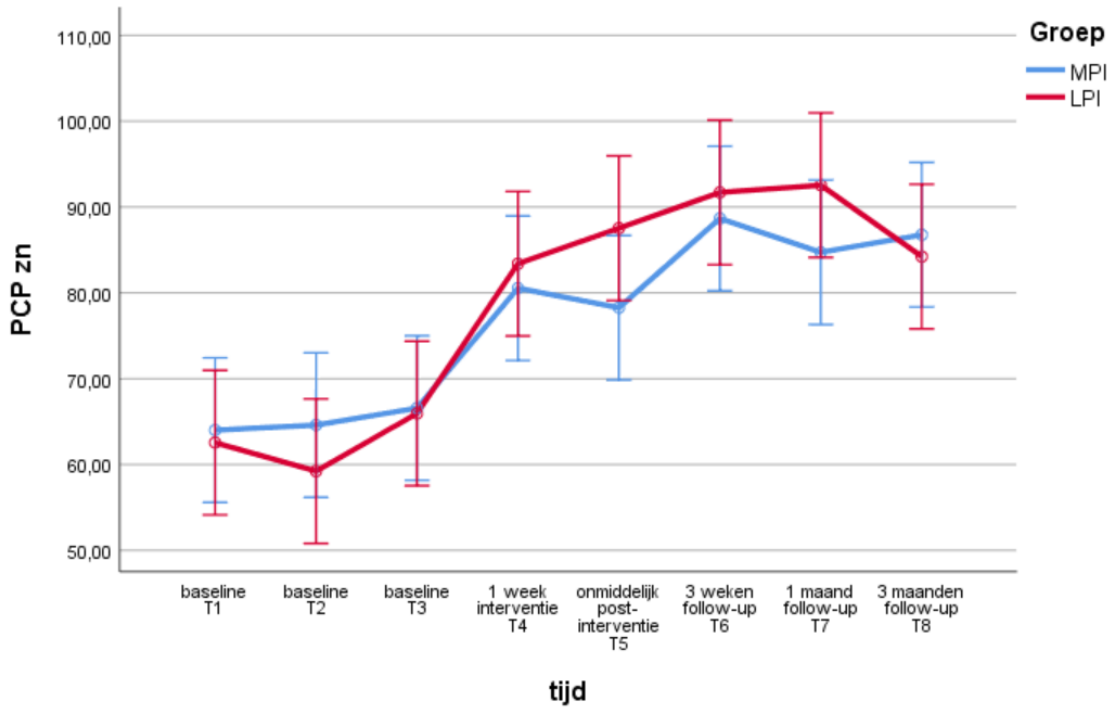
PCC-R zn/wn, percentage correcte consonanten-revised op zinsniveau/woordniveau; PCP zn/wn, percentage correcte articulatieplaatsen op zinsniveau/woordniveau; PCM zn/wn, percentage correcte articulatiewijzen op zinsniveau/woordniveau; EM, estimated mean; CI, confidence interval. \* duidt een significant effect aan



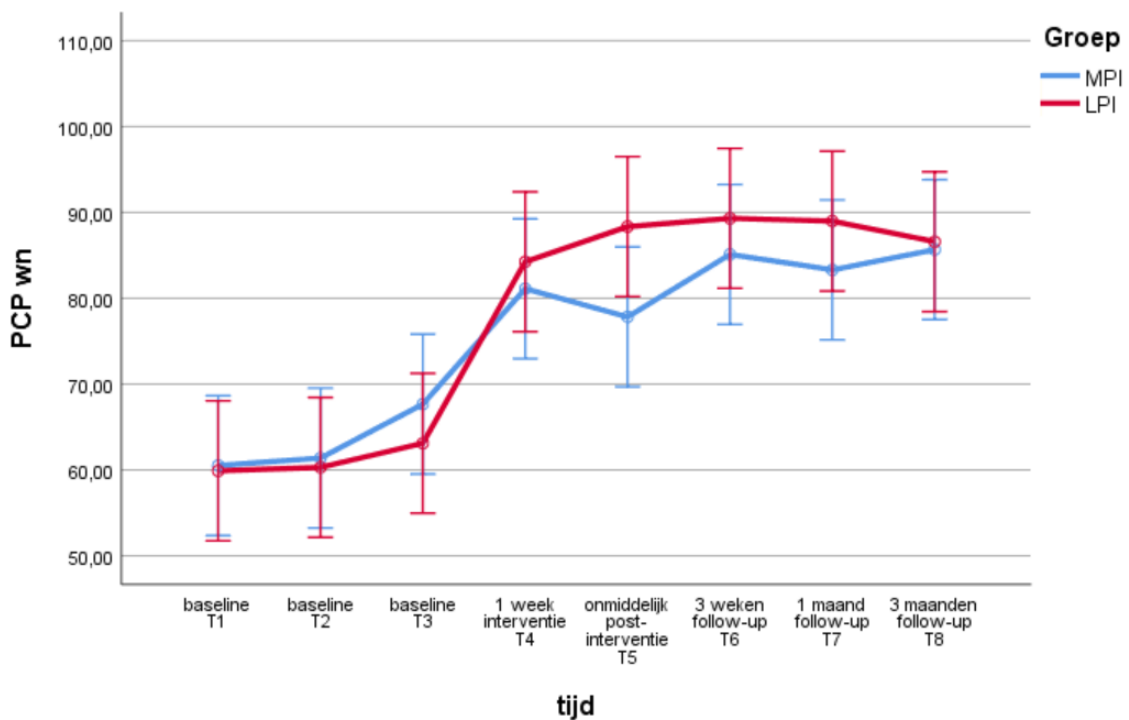
**Fig.3** Evolutie 'percentage correcte consonanten-revised op zinsniveau' over de tijd in de MPI- en LPI groep.



**Fig.4** Evolutie 'percentage correcte consonanten-revised op woordniveau' over de tijd in de MPI- en LPI groep.



**Fig.5** Evolutie 'percentage correcte articulatieplaatsen op zinsniveau' over de tijd in de MPI- en LPI groep.



**Fig.6** Evolutie 'percentage correcte articulatieplaatsen op woordniveau' over de tijd in de MPI- en LPI groep.

**Tabel 4.** Evolutie van de categorische variabelen in de motorisch-fonetische interventie (MPI) en de linguïstisch-fonologische interventie (LPI).

		vergelijking tijd binnen groepen															
		evolutie															
variabele	groep	pre-interventie		onmiddellijk post-interventie T5		3 weken follow-up T6		3 maanden follow-up T8		tijd * Groep	groep	tijd	pre-interventie - T5	pre-interventie - T8	T5 - T6	T5 - T8	
		EM	95%CI	EM	95%CI	EM	95%CI	EM	95%CI	p-waarde	p-waarde	p-waarde	p-waarde	p-waarde	p-waarde	p-waarde	
<b>spraak-verstaanbaarheid</b>	MPI	2,43	[1,69;3,16]	150	[0,71;2,29]	2,14	[1,41;2,88]	2,14	[1,41;2,88]	0,231	<0,001*	<0,001*	1,000	1,000	1,000	1,000	
	LPI	1,71	[1,21;2,22]	0,29	[-0,22;0,79]	0,43	[-0,08;0,94]	0,43	[-0,08;0,94]				0,004*	0,013	1,000	1,000	
<b>aanvaardbaarheid</b>	MPI	2,43	[1,64;3,22]	1,86	[1,07;2,65]	2,00	[1,21;2,78]	2,14	[1,36;2,93]	0,437	<0,001*	<0,001*	1,000	1,000	1,000	1,000	
	LPI	2,29	[1,70;2,87]	0,43	[-0,16;1,02]	1,29	[0,70;1,87]	1,14	[0,56;1,73]				0,001*	0,126	0,653	1,000	
<b>anterieur orale CSC's</b>	MPI	1,86	[1,28;4,44]	0,71	[0,14;1,29]	1,14	[0,56;1,72]	0,71	[0,14;1,29]	0,063	0,008*	<0,001*	0,114	0,114	1,000	1,000	
	LPI	2,00	[1,57;2,43]	0,29	[-0,15;0,72]	5,55 <sup>E-17</sup>	[-0,43;0,43]	0,14	[-0,29;0,58]				<0,001*	<0,001*	1,000	1,000	
<b>posterieur orale CSC's</b>	MPI	0,29	[-0,09;0,67]	0,14	[-0,23;0,52]	0,57	[0,20;0,95]	0,14	[-0,23;0,52]	0,631	0,021	0,176	1,000	1,000	1,000	1,000	
	LPI	0,71	[0,23;1,20]	0,14	[-0,35;0,63]	0,43	[-0,10;0,92]	0,43	[-0,10;0,92]				1,000	1,000	1,000	1,000	
<b>non-orale CSC's</b>	MPI	1,86	[1,32;3,40]	1,00	[0,46;1,54]	1,29	[0,74;1,83]	1,43	[0,89;1,97]	0,055	<0,001*	<0,001*	0,442	1,000	1,000	1,000	
	LPI	1,71	[1,35;2,08]	0,14	[-0,23;0,51]	0,29	[-0,08;0,65]	0,43	[0,06;0,80]				<0,001*	<0,001*	1,000	1,000	
<b>passieve CSC's</b>	MPI	1,29	[0,58;1,99]	1,14	[0,44;1,85]	1,00	[0,30;1,70]	1,43	[0,73;2,13]	0,930	0,678	0,942	1,000	1,000	1,000	1,000	
	LPI	1,43	[0,73;2,13]	1,14	[0,44;1,84]	1,29	[0,59;1,99]	1,00	[0,30;1,70]				1,000	1,000	1,000	1,000	

CSC's, cleft speech characteristics; EM, estimated mean; CI, confidence interval. \* duidt een significant effect aan



## VELO-vragenlijst

De statistische analyses werden enkel toegepast op de VELO-oudervragenlijsten aangezien er onvoldoende VELO-kindervragenlijsten waren om de LMM op toe te passen. Vier proefpersonen waren ouder dan acht jaar en mochten de VELO-kindervragenlijst invullen, waardoor beschrijvende parameters beschikbaar waren (Tabel 5.).

**Tabel 5.** Beschrijvende parameters voor de VELO-kindervragenlijsten. .

Totale score op de VELO- kindervragenlijst			
	pre-interventie	onmiddellijk post-interventie T5	3 maanden follow-up T8
Gemiddelde (SD)	64,64 (3,6)	74,74 (4,6)	72,54 (5,4)
Mediaan (IQR)	65,14 (57,58-71,20)	75,02 (65,77-83,43)	71,00 (n.v.t.)*
min-max	56,53-71,74	64,13-84,79	64,00-82,61

SD, standaarddeviatie; IQR, interkwartielrange; min-max, minimum-maximum; \* door de beperkte data kon de IQR niet berekend worden

Onderzoek van Bruneel et al. (2017) toonde aan dat kinderen en hun ouders een gelijkaardige perceptie hebben van de HRQoL. Hierdoor vormden de VELO-oudervragenlijsten een goed beeld van de HRQoL van de kinderen en kon de analyse verder worden uitgevoerd op de VELO-oudervragenlijsten.

## Evolutie van de baselinewaarden

Voor de VELO-vragenlijsten werd eveneens nagegaan of de shaminterventie een significant effect had. De primaire analyses werden gebaseerd op een vergelijking tussen vier groepen: motorisch-fonetisch sham/geen sham en linguïstisch-fonologisch sham/geen sham. Een paarsgewijze vergelijking van deze vier groepen, rekening houdende met de post-hoc Bonferroni-correctie, tussen baselinetijdstippen T2 en T3 (de tijdstippen waartussen shaminterventie werd gegeven) werd uitgevoerd. De vergelijking toonde geen significante verschillen in de outcomevariabelen tussen de groepen, wat aantoonde dat shaminterventie geen significant effect had ( $p > 0.013$ ). Verdere analyses werden daarom gebaseerd op een vergelijking van twee groepen: de motorisch-fonetische groep en de linguïstisch-fonologische groep. Een vergelijking van de baselinewaarden tussen deze twee groepen op de drie baselinetijdstippen (T1, T2 en T3) toonde geen statistisch significante verschillen aan, wat wijst op een stabiele baseline. Door aan te tonen dat de patiënten stabiele HRQoL-kenmerken hadden voor therapie, werd de gemiddelde waarde van de drie baselinepunten (pre-interventie) voor iedere variabele berekend en gebruikt voor de verdere analyse.

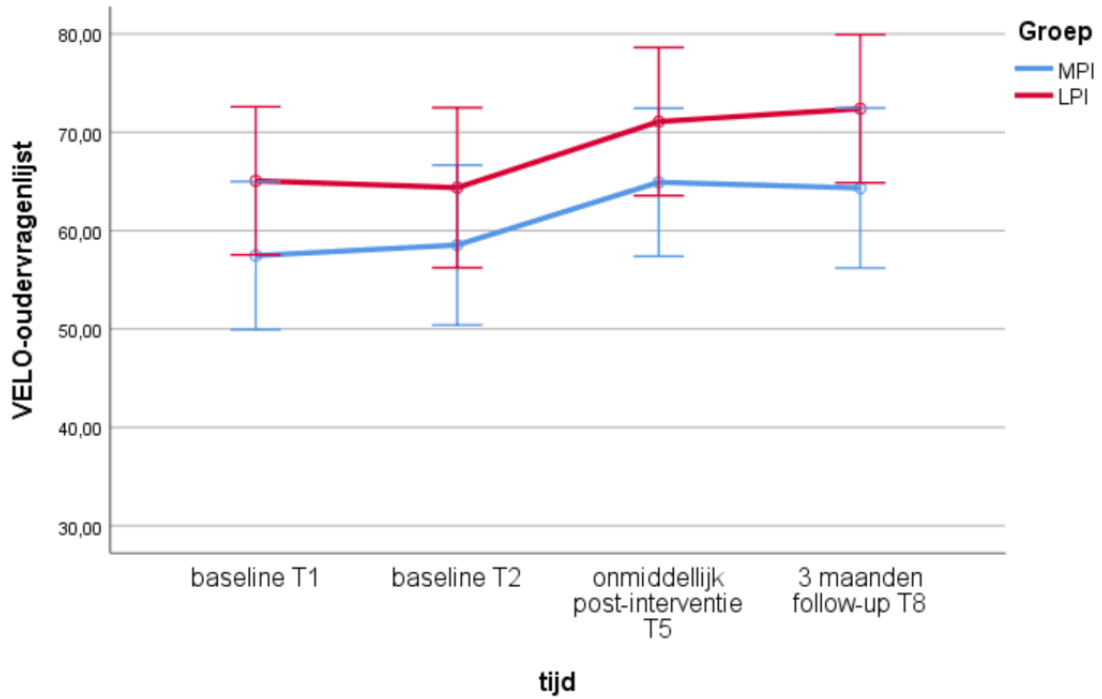
### Evolutie van de variabelen over de tijd

De evolutie van de variabelen van beide groepen, motorisch-fonetische interventie en linguïstisch-fonologische interventie, wordt weergegeven in de tabel 6. De LMM toonden voor geen enkele variabele significante interacties tussen tijd en groep aan. Dit wijst op niet-significante verschillen in de evolutie over de tijd tussen beide groepen. Bij het vergelijken van de twee groepen werden significante tijdseffecten gevonden voor volgende variabelen: 'VELO-oudervragenlijst' ( $F(3,12)=18,271$ ;  $p<0,001$ ), 'beperkingen van de spraak' ( $F(3,16)=7,697$ ;  $p=0,002$ ) en 'situationele moeilijkheden' ( $F(3,16)=8,060$ ;  $p=0,002$ ). Een verder analyse van het groepseffect binnen de twee groepen toonde voor beide groepen een verbetering aan voor VELO-oudervragenlijst, beperkingen van de spraak en situationele moeilijkheden. Voor de motorisch-fonetisch groep werd een significante verbetering gevonden voor de variabele 'VELO-oudervragenlijst'. De totale score op de VELO-oudervragenlijst (Fig.7) verbeterde van 57,46 pre-interventie tot 64,91 onmiddellijk post-interventie, wat overeenkomt met een stijging van 7,45. Voor de linguïstisch-fonologische groep werd ook een significante verbetering gevonden. Het subitem 'beperkingen van de spraak' (Fig.8) van de VELO-vragenlijst verbeterde namelijk van 45,92 pre-interventie tot 58,69 onmiddellijk post-interventie en 59,71 tot drie maanden follow-up, wat overeenkomt met een respectievelijke stijging van 12,77 en 13,79.

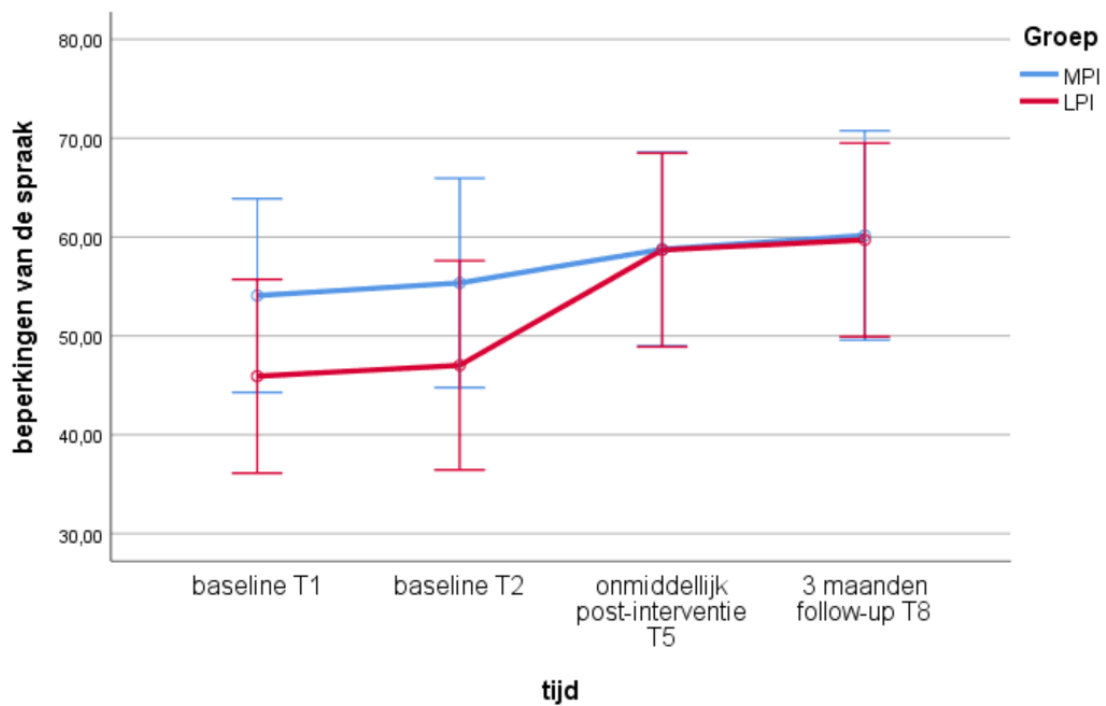
**Tabel 6.** Evolutie van de VELO-vragenlijsten in de motorisch-fonetische interventie (MPI) en de linguïstisch-fonologische interventie (LPI).

											vergelijking tijd binnen groepen		
											evolutie		
		pre-interventie		Onmiddellijk interventie T5		3 maanden follow-up T8		tijd*groep	groep	tijd	pre-interventie – T5	pre-interventie – T8	T5 – T8
variabele	groep	EM	95%CI	EM	95%CI	EM	95%CI	p-waarde	p-waarde	p-waarde	p-waarde	p-waarde	p-waarde
<b>VELO-oudervragenlijst</b>	MPI	57,46	[52,02;62,90]	64,91	[59,48;70,35]	63,77	[58,29;69,26]	0,407	0,123	<0,001*	<0,001*	0,064	1,000
	LPI	65,06	[54,92;75,20]	71,09	[60,95;81,23]	72,39	[62,26;82,53]				0,021	0,125	1,000
<b>bependingen van de spraak</b>	MPI	54,89	[45,29;64,48]	59,76	[50,18;69,35]	58,21	[49,21;67,21]	0,232	0,526	0,002*	1,000	1,000	1,000
	LPI	45,92	[33,66;58,18]	58,69	[46,43;70,95]	59,71	[47,45;71,97]				<0,001*	0,003*	1,000
<b>slikproblemen</b>	MPI	81,10	[65,39;96,80]	83,33	[67,63;99,04]	80,64	[64,04;97,24]	0,827	0,082	0,382	1,000	1,000	1,000
	LPI	91,67	[83,39;99,94]	94,05	[85,77;102,32]	92,86	[84,58;101,13]				0,734	1,000	1,000
<b>situationele moeilijkheden</b>	MPI	41,28	[28,97;53,59]	50,00	[37,82;62,18]	47,14	[34,96;59,33]	0,895	0,170	0,002*	0,073	0,574	1,000
	LPI	52,86	[35,72;69,99]	63,57	[46,44;80,71]	60,71	[43,58;77,85]				0,037	0,345	1,000
<b>emotionele impact</b>	MPI	56,25	[42,29;70,21]	66,07	[52,11;80,03]	65,18	[51,22;79,14]	0,827	0,140	0,063	0,199	0,393	1,000
	LPI	73,21	[58,53;87,90]	74,11	[59,43;88,97]	78,57	[63,89;93,25]				1,000	0,053	0,141
<b>perceptie door anderen</b>	MPI	73,21	[61,48; 84,95]	79,46	[67,73;91,20]	82,83	[70,59;95,07]	0,906	0,350	0,276	0,843	0,416	1,000
	LPI	82,14	[69,45;94,84]	84,82	[72,13;97,51]	86,61	[73,92;99,30]				1,000	1,000	1,000
<b>impact op zorgverlener</b>	MPI	63,10	[53,33;72,86]	64,29	[54,52;74,05]	67,79	[57,35;78,23]	0,735	0,032	0,418	1,000	1,000	1,000
	LPI	75,24	[62,71;87,77]	79,76	[67,23;92,29]	80,47	[67,94;93,01]				0,397	0,769	1,000

EM, estimated mean; CI, confidence interval. \* duidt een significant effect aan



**Fig.7** Evolutie 'VELO-oudervragenlijst' over de tijd in de MPI- en LPI groep.



**Fig.8** Evolutie 'beperkingen van de spraak' over de tijd in de MPI- en LPI groep.

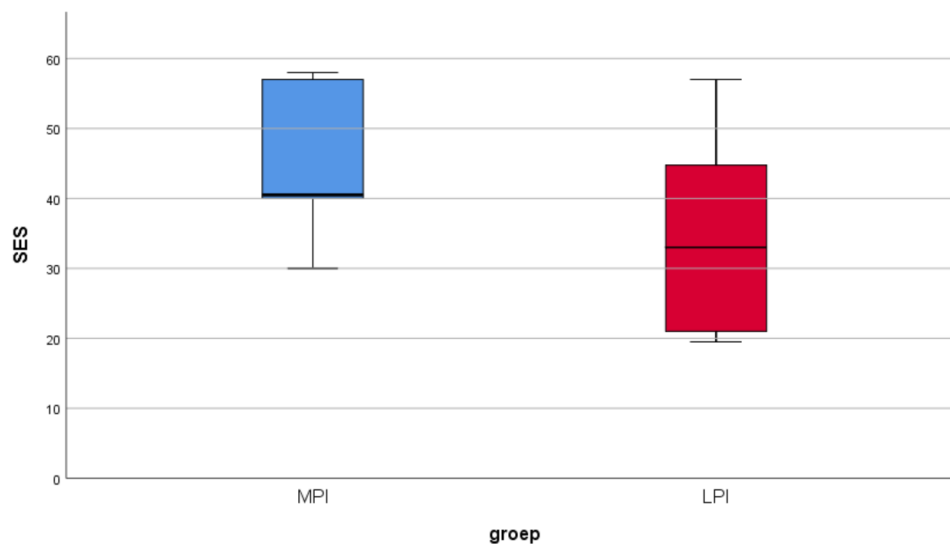
## SES-vragenlijst

De normaliteit van continue variabelen werd nagegaan met de Shapiro-Wilk test, het QQ-plot en de boxplot. Een ongepaarde Student's t-test werd uitgevoerd om de gemiddelde SES tussen de motorisch-fonetische en linguïstische-fonologische therapiegroep te vergelijken. Er werd geen significant verschil gevonden tussen de gemiddelde SES bij de motorisch-fonetische therapiegroep [gemiddelde (SD): 44,71 (10,97)] en de gemiddelde SES bij de linguïstische-fonologische therapiegroep [gemiddelde (SD): 34,43 (14,98)];  $[t(11)=1,338; p= 0,208]$ . Er is geen significant verschil tussen de gemiddelde SES bij beide groepen (Tabel 7 en Fig.9).

**Tabel 7.** Beschrijvende parameters voor de SES-vragenlijsten (n=13).

	MPI (n=6)	LPI (n=7)
Gemiddelde (SD)	44,33 (10,97)	34,43 (14,98)
Mediaan (IQR)	40,50 (37,50 - 57,25)	33,00 (20,00 - 49,00)
min-max	30,00 - 58,00	20,00 - 57,00

MPI, motorisch-fonetische interventie; LPI, linguïstisch-fonologische interventie; SD, standaarddeviatie; IQR, interkwartielrange; min-max, minimum-maximum



**Fig.9** Sociaal-economische status (SES) van de MPI- en LPI groep.

## Discussie

Studies die de effectiviteit van logopedische interventies bij patiënten met CP±L aantonen zijn schaars (Bessel et al., 2013). Methodologische tekortkomingen, gedateerde onderzoeken, het risico op bias en het gebrek aan een gedetailleerde beschrijving van de interventie, de setting, de therapeut en de geïncorporeerde patiënten zorgen ervoor dat de generalisatie van bestaande onderzoeksresultaten moeilijk is. Bovendien zijn er, voor zover geweten, maar twee studies die de effectiviteit van een fonetische interventie met een fonologische interventie hebben vergeleken (Alighieri et al., 2020; Pamplona et al., 1999). Om tegemoet te komen aan de gelimiteerde literatuur vergeleek deze masterproef de effectiviteit van een motorisch-fonetische interventie en een linguïstisch-fonologische interventie op de spraak en HRQoL bij kinderen met CP±L. Veertien kinderen (gemiddelde leeftijd 7,6 jaar; SD 2,3) namen deel aan het onderzoek. Via randomisatie, rekening houdende met leeftijd en geslacht, werden zeven kinderen toegewezen aan de motorisch-fonetische therapiegroep en zeven kinderen aan de linguïstische-fonologische therapiegroep. Bovendien werd naast de beide therapiebenaderingen een shaminterventie gegeven aan acht van de veertien kinderen. De toewijzing tot de shaminterventie werd ook bepaald aan de hand van randomisatie rekening houdende met leeftijd en geslacht. De meetprocedure bestond enerzijds uit een perceptuele spraakbeoordeling aan de hand van CAPS-A-NL en anderzijds uit de Nederlandstalige VELO-vragenlijst die de HRQoL in kaart bracht. Als hypothese werd vooropgesteld dat alle kinderen met CP±L, ongeacht de specifieke therapiebenadering, een afname zouden vertonen van de aanwezige actieve articulatiestoornissen. Evenwel werd verwacht dat de kinderen uit de linguïstische-fonologische therapiegroep een grotere afname van actieve articulatiestoornissen zouden tonen dan diegene uit de motorisch-fonetische therapiegroep (Alighieri et al., 2020; Derakhshandeh et al., 2016). Bijgevolg zou naarmate de actieve articulatiestoornis afnam de HRQoL toenemen.

### Effectiviteit van logopedische therapie ongeacht de specifieke therapiebenadering

Alle individuen evolueerden positief over de tijd, onafhankelijk van de therapie die ze kregen, voor de variabelen 'PCC-R op zinsniveau en woordniveau', 'PCP op zinsniveau en woordniveau', 'PCM op woordniveau', 'spraakverstaanbaarheid', 'aanvaardbaarheid', 'anterieur orale en non-orale CSCs', 'VELO-oudervragenlijst', 'beperkingen van de spraak' en 'situationele moeilijkheden'. De resultaten op vlak van spraak in deze masterproef sluiten aan bij de bevindingen van Derakhshandeh et al. (2016). Derakhshandeh et al. (2016) rapporteerde namelijk dat logopedische therapie kon leiden tot een daling van non-orale en passieve CSC's bij patiënten met VPI. Recent onderzoek van Alighieri et al. (2020) rapporteerde dat logopedische therapie, zowel motorisch-fonetische als fonetisch-fonologische therapie, resulteerde in een afname van non-orale en passieve CSC's en een toename van het percentage correct geproduceerde consonanten. De resultaten op vlak van de sluiten aan bij het onderzoek van Bruneel et al. (2019) dat de relatie tussen de HRQoL en schisispraak weergaf.

## Effectiviteit van de motorische-fonetische interventie versus de linguïstisch-fonologische interventie

Descriptieve gegevens binnen de motorisch-fonetische therapiegroep gaven een verbetering op vlak van spraak weer. Bij verdere analyses werden echter geen significante resultaten gevonden, mogelijk omwille van de eerder kleine steekproefgrootte. Op vlak van HRQoL daarentegen, lieten verdere analyses binnen de motorisch-fonetische therapiegroep een significante verbetering zien voor de 'VELO-oudervragenlijst', wat een verbetering op vlak van de HRQoL inhoudt (Tabel 6).

Verdere analyses binnen de linguïstische-fonologische therapiegroep lieten op vlak van spraak significante verbeteringen zien voor 'PCC-R op zinsniveau en woordniveau', 'PCP op zinsniveau en woordniveau', 'spraakverstaanbaarheid', 'aanvaardbaarheid' en 'anterieur orale en non-orale CSC's' (Tabel 3 & 4). Op vlak van HRQoL lieten verdere analyses binnen de linguïstische-fonologische therapiegroep een significante verbeteringen zien voor het subitem 'beperkingen van de spraak' van de VELO-vragenlijst (Tabel 5).

Deze resultaten betekenen dat zowel aspecten op vlak van spraak als op vlak van de HRQoL significant verbeterden binnen de linguïstische-fonologische therapiegroep, terwijl enkel de HRQoL significant verbeterde binnen de motorisch-fonetische therapiegroep.

Algemeen sluiten de resultaten van deze masterproef aan bij de literatuur omtrent de logopedische behandeling van kinderen met CP±L (Bessell et al., 2013). In de literatuur is sinds de vroege jaren '80 een verschuiving van een fonetische naar een meer fonologische aanpak waarneembaar voor de behandeling van actieve articulatiestoornissen bij kinderen met CP±L (Kuehn & Moller, 2000).

Oorspronkelijk werden actieve articulatiestoornissen bij kinderen met CP±L beschouwd als fonetische stoornissen (Kummer, 2011; Vandemark, 1974). Ter compensatie van een abnormale anatomische structuur ontstaat er namelijk een wijziging in articulatieplaats. Historisch gezien werd deze wijziging met een motorisch-fonetische therapie behandeld (Kummer, 2011; Vandemark, 1974). De effectiviteit van een motorische-fonetische aanpak werd meermaals aangetoond in de literatuur (Chen et al., 1996; Hardin-Jones & Chapman, 2008; Ma et al., 1990; Pamplona et al., 1999; Vandemark, 1974; Vandemark & Hardin, 1986; Yang et al., 2003). In deze masterproef wordt de verbetering binnen de motorisch-fonetische therapiegroep weergegeven a.d.h.v. de descriptieve gegevens. Het niet vinden van significante resultaten binnen de motorisch-fonetische therapiegroep is, zoals eerder al aangehaald, mogelijk te verklaren door de eerder kleine steekproefgrootte.

Chapman (1993) daarentegen beschreef dat een actieve articulatiestoornis bij CP±L na verloop van tijd ingebouwd raakt in het regelsysteem van een kind en aldus leidt tot een fonologische stoornis. Verder valt het bij de analyse van schisisspraak op dat meestal meer dan één consonant gestoord is en dat zelfs klanken die normaalgezien niet als moeilijk worden beschouwd voor kinderen met CP±L (bv. nasalen en liquiden) gestoord kunnen zijn (Morris & Ozanne, 2003). Dit empirisch resultaat wijst opnieuw op de aanwezigheid van een fonologische stoornis bij kinderen met CP±L (Morris & Ozanne, 2003). De resultaten van deze masterproef bevestigen het onderzoek van Chapman (1993) en Morris

& Ozanne (2003) waarvan de resultaten aantonen dat een fonologische aanpak aangewend zou kunnen worden voor de behandeling van actieve articulatiestoornissen bij kinderen met CP±L.

Naast de hierboven beschreven algemene verklaring van de resultaten, kunnen ook de significante verbeteringen van de specifiek betrokken variabelen verklaard worden.

Bij beide therapieën werden de doelconsonanten bepaald op basis van de impact van de consonant op de spraakverstaanbaarheid. De manier waarop de doelconsonanten werden bepaald, kan de verbetering op vlak van spraakverstaanbaarheid in beide therapiegroepen verklaren.

Binnen de linguïstische-fonologische therapiegroep betreft dit de variabelen 'PCC-R op zinsniveau en woordniveau', 'PCP op zinsniveau en woordniveau', 'spraakverstaanbaarheid', 'aanvaardbaarheid' en 'anterieur orale en non-orale CSC's'. Mogelijk kan de significante verbetering van deze variabelen verklaard worden vanuit enkele aspecten die eigen zijn aan de Metaphon-therapie (fonologische therapie). Eerst en vooral pakt de Metaphon-therapie verschillende doelconsonanten tegelijk aan, terwijl de therapie van Van Riper (fonetische therapie) net doelconsonant per doelconsonant aanpakt. De behandeling van verschillende doelconsonanten tegelijk zou de stijging van het percentage correct geproduceerde consonanten kunnen verklaren. Deze stijging kan dan weer de spraakverstaanbaarheid en aanvaardbaarheid van de spraak positief beïnvloeden.

Ten tweede probeert de Metaphon-therapie zonder directe verwijzingen naar de juiste articulatieplaats of –wijze (o.a. via visuele aanwijzingen en excessief modellen) tot de juiste productie van doelconsonanten te komen. Op die manier wordt bij de linguïstische-fonologische therapiegroep impliciet gewerkt aan het bereiken van articulatorische doelen, terwijl bij de motorisch-fonetische therapiegroep expliciet wordt gewerkt aan het bekomen van de juiste articulatieplaats en/of –wijze. Aangezien bij de linguïstische-fonologische therapiegroep aan verschillende doelconsonanten tegelijk werd gewerkt aan een juiste articulatieplaats en/of –wijze, zou dit opnieuw de significante verbeteringen in de linguïstische-fonologische therapiegroep kunnen verklaren. Tot slot is het bij de Metaphon-therapie belangrijk dat het kind zelf veranderingen in de spraak teweegbrengt. Door de kinderen te motiveren om hun eigen termen te zoeken en toe te passen, wordt de intrinsieke motivatie versterkt (Howell, Dean, & Leijdekker-Brinkman, 1998). Intrinsieke motivatie leidt tot gedrag dat gebaseerd is op de interne waarden en interesses van het kind, terwijl extrinsieke motivatie het gevolg is van externe druk vanuit een externe bron (Hagger & Chatzisarantis, 2007). Voor een kind kan het verstaanbaar overkomen t.o.v. vriendjes bijvoorbeeld een belangrijke waarde zijn. Het stimuleren van de intrinsieke motivatie zou kunnen geleid hebben tot extra oefeninspanning binnen en buiten de therapieessies met een positief effect op het percentage correct geproduceerde consonanten tot gevolg. Een verbetering van het percentage correct geproduceerde consonanten zou dan op zijn beurt opnieuw kunnen leiden tot een betere spraakverstaanbaarheid en aanvaardbaarheid van de spraak, hetgeen intrinsiek motiverend kan zijn voor een kind.

In beide therapiegroepen werd in deze masterproef een significante verbetering gevonden op vlak van de HRQoL zoals vooropgesteld in de hypothese. Binnen de motorisch-fonetische therapiegroep betrof dit de variabele 'VELO-oudervragenlijst. Dit sluit aan bij het onderzoek van Bruneel, Bettens, & Van



Lierde (2019) dat een matige tot sterke correlatie tussen 'spraakverstaanbaarheid' en 'aanvaardbaarheid' en de totale score op de VELO-oudervragenlijst aantoonde. Binnen de linguïstische-fonologische therapiegroep betrof het de significante verbetering van de het subitem 'beperkingen van de spraak'. Dit resultaat ligt eveneens in lijn met de bevindingen van Bruneel, Bettens, & Van Lierde (2019) die een matige tot hoge associatie tussen de variabele 'spraakverstaanbaarheid' en het subitem 'beperkingen van de spraak' rapporteerden.

### Sterktes en limitaties

De eerder kleine proefgroep (n=14), de brede leeftijdsrange (4-12j) en de heterogene proefgroepen vormen een belangrijke limitatie in de masterproef. De heterogeniteit werd veroorzaakt door de aanwezigheid van verschillende types van CP±L, gaande van een submucosale verhemeltespleet tot een volledige lip-, kaak- en verhemeltespleet. Er blijkt echter geen significant verschil tussen de gemiddelde SES tussen beide groepen, wat net zorgt voor meer homogeniteit. Toekomstig onderzoek houdt desondanks best rekening met deze limitatie aangezien de samenstelling van de proefgroep het bekomen van significante resultaten kan belemmeren.

Beide interventies werden gegeven door drs. Cassandra Alighieri. Omwille van praktische redenen voerden drs. Cassandra Alighieri, dr. Laura Bruneel en Ellen Van Gaever zowel pre- als postmetingen uit. Dr. Laura Bruneel en Ellen Van Gaever mochten zowel de pre-als postmetingen uitvoeren aangezien ze onwetend waren over de therapie-inhoud en de toewijzing van de proefpersonen aan de therapiegroepen. Aangezien drs. Cassandra Alighieri wel op de hoogte was van de therapie-inhoud en wist tot welke therapiegroep iedere proefpersoon was toegewezen, ontstond er een risico op de aanwezigheid van trainersbias. De trainersbias werd deels teniet gedaan doordat alle stalen beoordeeld werden door onafhankelijke personen, namelijk dr. Laura Bruneel en Ellen Van Gaever. De beoordelaars hadden respectievelijk zes jaar en geen ervaring in het beoordelen van schisisgerelateerde spraakkenmerken. Om dit verschil deels te compenseren werd een korte oefensessie voor Ellen Van Gaever georganiseerd waarin de perceptuele spraakbeoordeling werd geoefend. De oefensessie vond plaats onder supervisie van drs. Cassandra Alighieri, ervaren in het beoordelen van schisisspraak. Desondanks werd de perceptuele spraakbeoordeling uitgevoerd met een aanzienlijk verschil in praktijkervaring tussen beide beoordelaars. Het verschil in ervaring in de beoordeling van schisisspraak, uitte zich in een behoorlijke interbeoordelaars-betrouwbaarheid. Het gebrek aan ervaring van Ellen Van Gaever uitte zich in een lage intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid. Omwille van de lage intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid werd besloten om de statistische analyses verder uit te voeren met analyses van dr. Laura Bruneel, die een goede intrabeoordelingsbetrouwbaarheid bewam. Uit de bovenstaande paragraaf wordt het belang van voldoende expertise in de diagnostiek en behandeling van kinderen met een schisis duidelijk, hetgeen een belangrijke implicatie vormt naar de klinische praktijk toe.

De meetprocedure in deze masterproef bestond enerzijds uit een perceptuele spraakbeoordeling aan de hand van CAPS-A-NL (Bruneel et al., 2019) en anderzijds uit de Nederlandstalige VELO-

vragenlijsten (Bruneel et al., 2017) met als doel het in kaart brengen van de HRQoL. De meetprocedure was in lijn met de internationale standaarden en protocollen. CAPS-A-NL werd gebaseerd op het internationaal geaccepteerde CAPS-A instrument (Chapman et al., 2016; John et al., 2006; Sell et al., 2009), de Nederlandstalige VELO-vragenlijsten werden gebaseerd op het VPI Effects on Life Outcomes (VELO) instrument (Skirko et al., 2012; Skirko et al., 2013). De inhoud van de meetprocedure maakt dat dit onderzoek de eerste interventiestudie voor schisis is die zowel de HRQoL als meer globale parameters in kaart bracht. Naast de significante verschillen wat betreft het percentage correct geproduceerde consonanten en CSC's, konden er dus ook significante verbeteringen gevonden worden in meer globale parameters zoals spraakverstaanbaarheid en aanvaardbaarheid. Die verbeteringen geven aan dat de interventie een positieve impact had op het dagelijkse leven van de patiënten.

Een andere methodologische sterkte van dit onderzoek is de implementatie van een shamgroep. Deze masterproef is voor zover geweten de eerste schisis-studie waarin een shamgroep werd geïncorporeerd. De shamgroep had enerzijds de functie van controlegroep, anderzijds zorgde de shamgroep ervoor dat het optreden van experimentele 'ruis' kon nagegaan worden (Blease & medicine, 2018). Met experimentele 'ruis' wordt bedoeld: regressie naar het gemiddelde, natuurlijke progressie van een aandoening of stoornis, patiënten- en/of onderzoekersbias, placebo-effect en Hawthorne-effect (Blease & medicine, 2018). In dit onderzoek werd geen significant effect van de shaminterventie gevonden, wat betekent dat de inhoud van de shamtherapie kan gebruikt worden voor andere studies. De inhoud van de shamtherapie in deze masterproef betrof stemoefeningen waarbij de aspecten stemhygiëne, houding, ademhaling en steminzet aan bod kwamen.

Het aantonen van significante verbeteringen binnen de linguïstische-fonologische therapiegroep in deze masterproef, ondersteunt de resultaten van Pamplona (1999). Het onderzoek van Pamplona (1999) toonde aan dat een linguïstisch-fonologische benadering de totale therapietijd significant verminderde ten opzicht van een motorisch-fonetische benadering om tot een volledige eliminatie van actieve articulatiestoornissen te komen. Een belangrijke limitatie in de studie van Pamplona (1999) was het ontbreken van gerapporteerde spraakoutcomes. Deze masterproef rapporteert wel spraakoutcomes en toont op die manier de effectiviteit van een linguïstisch-fonologische therapie aan.

## Conclusie

Uit de resultaten van deze masterproef wordt geconcludeerd dat alle kinderen met CP±L, ongeacht de specifieke therapiebenadering, een afname vertonen van de het percentage correct geproduceerde consonanten, verstaanbaarheid en aanvaardbaarheid van de spraak, anterieur orale en non-orale CSC's. Daarnaast blijkt dat de HRQoL toeneemt voor beide therapiebenaderingen naarmate de actieve articulatiestoornis afneemt. Tot slot toont de masterproef een significant verschil aan tussen de effectiviteit van beide therapiebenaderingen. De descriptieve resultaten binnen de motorisch-fonetische therapiegroep tonen een verbetering op vlak van spraak aan. In dit onderzoek bleek deze verbetering echter niet-significant te zijn. Mogelijk is de niet-significante vooruitgang in de tijd binnen

de motorisch-fonetische therapie groep het gevolg van de eerder kleine steekproefgrootte. Op vlak van de HRQoL werd binnen de motorisch-fonetische therapiegroep een significante afname gevonden van de VELO-oudervragenlijst. Binnen de linguïstisch-fonologische therapiegroep werd een significante verbetering gevonden op vlak van zowel spraak als HRQoL. Op vlak van spraak werden een significante verbeteringen gevonden van het percentage correct geproduceerde consonanten, de spraakverstaanbaarheid, de aanvaardbaarheid, de non-orale en anterieur orale CSC's. Op vlak van HRQoL verbeterde het subitem 'beperkingen van de spraak' van de VELO-vragenlijst significant. Ondanks de aanwezigheid van bovenstaande limitaties toont deze masterproef aan dat een linguïstisch-fonologische therapie benadering effectief kan zijn bij het behandelen van actieve articulatiestoornissen bij kinderen met CP±L. Vervolgonderzoek met grotere proefgroepen, bij patiënten met verschillende karakteristieken en op langere termijn blijft noodzakelijk om de resultaten van dit onderzoek te bevestigen.

## Referenties

- Alighieri, C., Bettens, K., Bruneel, L., Sseremba, D., Musasizi, D., Ojoc, I., & Van Lierde, K. (2020). Comparison of motor-phonetic versus phonetic-phonological speech therapy approaches in patients with a cleft (lip and) palate : a study in Uganda.
- Allori, A. C., Mulliken, J. B., Meara, J. G., Shusterman, S., & Marcus, J. R. (2017). Classification of Cleft Lip/Palate: Then and Now. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *54*(2), 175-188.
- Altman, D. G. (1990). *Practical statistics for medical research*. CRC press.
- Association, I. P. (1999). *Handbook of the International Phonetic Association: A guide to the use of the International Phonetic Alphabet*. Cambridge University Press.
- Bessell, A., Sell, D., Whiting, P., Roulstone, S., Albery, L., Persson, M., . . . Ness, A. R. (2013). Speech and Language Therapy Interventions for Children With Cleft Palate: A Systematic Review. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *50*(1), E1-E17.
- Blease, C. J. P. i. b., & medicine. (2018). Consensus in placebo studies: lessons from the philosophy of science. *61*(3), 412-429.
- Boersma P, Weenink D. PRAAT: doing phonetics by computer (Version 5.4.). Geraadpleegd op 12 februari, 2015 via <http://www.praat.org/>.
- Bruneel, L. (2019). *Perceptual speech and health-related quality of life assessment in patients with cleft palate: Development and validation of Belgian Dutch outcome tools*. Ghent University,
- Bruneel, L., Bettens, K., & Van Lierde, K. (2019). The relationship between health-related quality of life and speech in patients with cleft palate. *International journal of pediatric otorhinolaryngology*, *120*, 112-117.
- Bruneel, L., Van Lierde, K., Bettens, K., Corthals, P., Van Poel, E., De Groote, E., & Keppler, H. (2017). Health-related quality of life in patients with cleft palate: Validity and reliability of the VPI Effects on Life Outcomes (VELO) questionnaire translated to Dutch. *International journal of pediatric otorhinolaryngology*, *98*, 91-96.
- Bruneel, L., Van Lierde, K., D'Haeseleer, E., & De Bodt, M. (2019). *Perceptual speech and health-related quality of life assessment in patients with cleft palate : development and validation of Belgian Dutch outcome tools*.
- Cazden, C. B. (1972). Child language and education.
- Chapman, K. L. (1993). PHONOLOGICAL PROCESSES IN CHILDREN WITH CLEFT-PALATE. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *30*(1), 64-72.
- Chapman, K. L., Baylis, A., Trost-Cardamone, J., Cordero, K. N., Dixon, A., Dobbelsteyn, C., . . . Sweeney, T. (2016). The Americleft Speech Project: a training and reliability study. *The Cleft palate-craniofacial journal*, *53*(1), 93-108.
- Chen, R., Wang, G., & Sun, Y. (1996). A new speech training method for patients following cleft palate repair. *Zhonghua kou qiang yi xue za zhi= Zhonghua kouqiang yixue zazhi= Chinese journal of stomatology*, *31*(4), 220-223.
- Derakhshandeh, F., Nikmaram, M., Hosseinabad, H. H., Memarzadeh, M., Taheri, M., Omrani, M., . . . Sell, D. (2016). Speech characteristics after articulation therapy in children with cleft palate and velopharyngeal dysfunction - A single case experimental design. *International journal of pediatric otorhinolaryngology*, *86*, 104-113.
- Farronato, G., Cannalire, P., Martinelli, G., Tubertini, I., Giannini, L., Galbiati, G., & Maspero, C. (2014). Cleft lip and/or palate: review. *Minerva stomatologica*, *63*(4), 111-126.
- Grunwell, P., Dive, D. J. C. L. T., & Therapy. (1988). Treating 'cleft palate speech': combining phonological techniques with traditional articulation therapy. *4*(2), 193-210.
- Hagger, M. S., & Chatzisarantis, N. L. (2007). *Intrinsic motivation and self-determination in exercise and sport*. Human Kinetics.
- Hardin-Jones, M., & Chapman, K. L. (2008). The impact of early intervention on speech and lexical development for toddlers with cleft palate: A retrospective look at outcome. *Language Speech and Hearing Services in Schools*, *39*(1), 89-96.
- Harding, A., & Grunwell, P. (1998). Active versus passive cleft-type speech characteristics. *International Journal of Language & Communication Disorders*, *33*(3), 329-352.
- Harland, K., Albery, L., (z.d.) Management of 100 cases of phoneme specific nasality - a two centre audit. *British Journal of Plastic Surgery*.
- Hodson, B. W., Chin, L., Redmond, B., & Simpson, R. (1983). PHONOLOGICAL EVALUATION AND REMEDIATION OF SPEECH DEVIATIONS OF A CHILD WITH A REPAIRED CLEFT-PALATE - A CASE-STUDY. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, *48*(1), 93-98.
- Hoffman, P. (1994). Whole Language Intervention for School-age Children. In: LWW.

- Hollingshead, A. B. (1975). Four factor index of social status.
- Howell, J., Dean, E., & Leijdekker-Brinkman, W. (1998). *Fonologische Stoornissen: behandeling van kinderen volgens de Metaphon-therapie*: Swets & Zeitlinger.
- Imbery, T. E., Sobin, L. B., Comnesso, E., Koester, L., Tatum, S. A., Huang, D., Nicholas, B. D. (2017). Long-Term Otologic and Audiometric Outcomes in Patients with Cleft Palate. *Otolaryngology--head and neck surgery : official journal of American Academy of Otolaryngology-Head and Neck Surgery*, 157(4), 676-682.
- John, A., Sell, D., Sweeney, T., Harding-Bell, A., & Williams, A. (2006). The cleft audit protocol for speech-augmented: A validated and reliable measure for auditing cleft speech. *The Cleft palate-craniofacial journal : official publication of the American Cleft Palate-Craniofacial Association*, 43(3), 272-288.
- Klinto, K., Salameh, E. K., Svensson, H., & Lohmander, A. (2011). The impact of speech material on speech judgement in children with and without cleft palate. *International Journal of Language & Communication Disorders*, 46(3), 348-360.
- Kuehn, D. P., & Moller, K. T. (2000). Speech and language issues in the cleft palate population: the state of the art. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 37(4), 1-35.
- Kumar, R., Raghavan, R., Jishnu, S., Monisha, V., Raj, J. S., & Sathish, S. (2016). Prosthetic Consideration in Management of Cleft Lip and Palate Patients. *Sci J Clin Med [Internet]*, 27-30.
- Kummer, A. W. (2011). Speech therapy for errors secondary to cleft palate and velopharyngeal dysfunction. *Seminars in speech and language*, 32(2), 191-198. doi:10.1055/s-0031-1277721
- Kummer, A. W. (2013). *Cleft palate & craniofacial anomalies: Effects on speech and resonance*: Nelson Education.
- Lauris, R., Capelozza, L. F., Calil, L. R., Lauris, J. R. P., Janson, G., & Garib, D. G. (2017). Facial profile esthetics in operated children with bilateral cleft lip and palate. *Dental press journal of orthodontics*, 22(4), 41-46.
- Ma, L., Wang, G., Zhang, L., & Bai, X. (1990). A preliminary report of speech training following the cleft palate surgery and its effect. *Chin J Stomatol*, 25, 86-89.
- McCabe, R., & Bradley, D. (1975). Systematic multiple phonemic approach to articulation therapy. *Acta Symbolica*, 6, 1-18.
- Miller, C. K. (2011). Feeding issues and interventions in infants and children with clefts and craniofacial syndromes. *Seminars in speech and language*, 32(2), 115-126.
- Morris, H., & Ozanne, A. (2003). Phonetic, phonological, and language skills of children with a cleft palate. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 40(5), 460-470.
- Mossey, P. A., Little, J., Munger, R. G., Dixon, M. J., & Shaw, W. C. (2009). Cleft lip and palate. *Lancet (London, England)*, 374(9703), 1773-1785.
- Nyberg, J., Neovius, E., & Lohmander, A. (2018). Speech outcomes at 5 and 10 years of age after one-stage palatal repair with muscle reconstruction in children born with isolated cleft palate. *Journal of plastic surgery and hand surgery*, 52(1), 20-29.
- Pamplona, M. C., Ysunza, A., & Espinosa, J. (1999). A comparative trial of two modalities of speech intervention for compensatory articulation in cleft palate children, phonologic approach versus articulatory approach. *International journal of pediatric otorhinolaryngology*, 49(1), 21-26.
- Pushpavathi, M., Kavya, V., & Akshatha, V. (2017). Efficacy of Focused Stimulation in Early Language Intervention Program for Toddlers with Repaired Cleft Palate. *Global Journal of Otolaryngology*, 9(1), 555752.
- Sell, D., John, A., Harding-Bell, A., Sweeney, T., Hegarty, F., & Freeman, J. (2009). Cleft Audit Protocol for Speech (CAPS-A): a comprehensive training package for speech analysis. *International Journal of Language & Communication Disorders*, 44(4), 529-548.
- Sell, D., & Sweeney, T. (2020). Percent consonant correct as an outcome measure for cleft speech in an intervention study. *Folia Phoniatrica Et Logopaedica*, 72(2), 143-151.
- Shriberg, L. D., Austin, D., Lewis, B. A., McSweeney, J. L., & Wilson, D. L. (1997). The percentage of consonants correct (PCC) metric: extensions and reliability data. *Journal of Speech, Language & Hearing Research*, 40(4), 708-722.
- Skirko, J. R., Weaver, E. M., Perkins, J., Kinter, S., Sie, K. C. J. A. o. O. H., & Surgery, N. (2012). Modification and Evaluation of a Velopharyngeal Insufficiency Quality-of-Life Instrument. 138(10), 929-935.
- Skirko, J. R., Weaver, E. M., Perkins, J. A., Kinter, S., Eblen, L., & Sie, K. C. (2013). Validity and responsiveness of VELO: a velopharyngeal insufficiency quality of life measure. *Otolaryngology--Head and Neck Surgery*, 149(2), 304-311.

- Sommerlad, B. C., Henley, M., Birch, M., Harland, K., Moiemmen, N., & Boorman, J. (1994). Cleft palate re-repair—a clinical and radiographic study of 32 consecutive cases. *British Journal of Plastic Surgery*, 47(6), 406-410.
- Van Riper, C. (1972). *Speech correction*: Prentice-Hall.
- Vandemark, D. R. (1974). SOME RESULTS OF SPEECH THERAPY FOR CHILDREN WITH CLEFT PALATE. *Cleft Palate Journal*, 11(JAN), 41-49.
- Vandemark, D. R., & Hardin, M. A. (1986). EFFECTIVENESS OF INTENSIVE ARTICULATION THERAPY FOR CHILDREN WITH CLEFT-PALATE. *Cleft Palate Journal*, 23(3), 215-224.
- Wehby, G. L., Tyler, M. C., Lindgren, S., Romitti, P., Robbins, J., & Damiano, P. (2012). Oral clefts and behavioral health of young children. *Oral diseases*, 18(1), 74-84.
- Worley, M. L., Patel, K. G., & Kilpatrick, L. A. (2018). Cleft Lip and Palate. *Clinics in perinatology*, 45(4), 661-678.
- Yang, X., Li, N., & Bu, L. (2003). The analysis of formant characteristics of vowels in the speech of patient with cleft palate. *Hua xi kou qiang yi xue za zhi = Huaxi kouqiang yixue zazhi = West China journal of stomatology*, 21(6), 451-453, 462.

## Appendix

### Appendix 1: Perceptuele beoordeling.

Bijlage 1. Beoordelingsformulier CAPS-A-NL (Bruneel et al., 2019)

#### 1. Spraakverstaanbaarheid (Audio: spontane spraak – niet herhalen)

Score	Omschrijving	
0	Binnen de norm - de spraak is altijd gemakkelijk te verstaan	8
1	Mild - de spraak is soms moeilijk te verstaan	
2	Matig - de spraak is vaak moeilijk te verstaan	
3	Ernstig - de spraak is meestal of altijd moeilijk te verstaan	

#### 2. Resonantie (Audio: zinnen + video: zinnen)

2.a	Hypernasaliteit	
Score	Omschrijving	
0	Afwezig – de nasale resonantie ligt binnen de norm van de regio	8
1	Borderline/minimaal - enige verhoging van de nasale resonantie wordt waargenomen	
2	Mild - hypernasaliteit is aanwezig bij de productie van gesloten vocalen (bv. [i], [y], [u])	
3	Matig - hypernasaliteit is aanwezig bij de productie van gesloten (bv. [i], [y], [u]) en open (bv. [a]) vocalen	
4	Ernstig - hypernasaliteit is aanwezig bij de productie van vocalen en stemhebbende consonanten	

2.b	Hyponasaliteit	
Score	Omschrijving	
0	Afwezig - de nasale resonantie is binnen de norm van de regio	8
1	Mild aanwezig – nasale consonanten worden gedeeltelijk gedenasaleerd	
2	Duidelijk aanwezig- nasale consonanten worden frequent gedenasaleerd zodat er een overwicht is aan gedenasaleerde consonanten	

#### 3. Nasale luchtstroom (Audio: zinnen + video: zinnen)

3.a	Nasale emissie	
Score	Omschrijving	
0	Afwezig bij de productie van drukconsonanten	8
1	Zelden – nasale emissie aanwezig bij minder dan 10% van de drukconsonanten	
2	Frequent – nasale emissie aanwezig bij meer dan 10% van de drukconsonanten (beoordeeld als (erg) opvallend of kenmerkend)	

3.b	Nasale turbulentie	
Score	Omschrijving	
0	Afwezig bij de productie van drukconsonanten	8
1	Zelden – nasale turbulentie aanwezig bij minder dan 10% van de drukconsonanten	
2	Frequent – nasale turbulentie aanwezig bij meer dan 10% van de aanwezige drukconsonanten in het spraakstaal (beoordeeld als (erg) opvallend of kenmerkend)	

**4. Stem** (Audio: spontane spraak, automatische reeksen en zinnen)

Score	Omschrijving	
0	Geen afwijkende stemkwaliteit	8
1	Kenmerkende of afwijkende stemkwaliteit	

**5. Nasale grimas** (Video: spontane spraak, automatische reeksen en zinnen)

Score	Omschrijving	
0	Geen nasale grimas	8
1	Kenmerkende nasale grimas	

**6. Aanvaardbaarheid van de spraak** (Audio + video: totaal spraakstaal)

Score	Omschrijving	
0	Binnen de norm – de spraak is normaal	8
1	Mild - de spraak wijkt in milde mate af van normale spraak	
2	Matig - de spraak wijkt in matige mate af van normale spraak	
3	Ernstig - de spraak wijkt in ernstige mate af van normale spraak	

Bijlage 2. Beoordelingsformulier schisisgerelateerde articulatiestoornissen. (Bruneel et al., 2019)

2.c. Samenvatting van de schisisgerelateerde articulatiestoornissen

	Afwezig	Aanwezig bij 2 of minder consonanten	Aanwezig bij 3 of meer consonanten
<b>Anterieur oraal</b>			
Dentalisatie addentaliteit/interdentaliteit			
Lateralisatie			
Palatalisatie			
<b>Posterieur oraal</b>			
Dubbele articulatie van orale consonanten, bv. /tk/			
Backing naar velaire/uvulaire articulatieplaats, bv.: [t] [d] [s] [n] [l] → [k] [ɣ] [x] [ŋ] (velair)			
<b>Non-oraal</b>			
Faryngale articulatie			
Glottale articulatie: glottale stop [ʔ] of fricatief [h]			
Dubbele articulatie met glottale stop			
Actieve nasale fricatief			
<b>Passief</b>			
Zwakke of genasaliseerde consonanten (vaak stemhebbende plosieven)			
Nasale productie van plosieven, bv.: [b] → [m]; [d] → [n]; [g] → [ŋ] en/of vermoeden van passieve nasale fricatief			
Gliding, bv.: [f] [v] → [w]; [s] [z] [ʃ] → [j]			



## Appendix 2: Vragenlijsten

### Bijlage 1: SES-vragenlijst.

Vragenlijst Moeder (of partner van de vader)
--

Naam: .....

U bent:        De moeder        De partner van de vader        De voorgd (vrouw)

Geboortedatum: ...../...../19.....

Nationaliteit: ..... Moedertaal: .....

Wat is uw hoogst behaalde diploma?

- Geen diploma, lager onderwijs niet afgewerkt
- Lager secundair onderwijs
- Lager middelbaar onderwijs
- Hoger secundair onderwijs: beroepsonderwijs
- Hoger secundair onderwijs: technisch onderwijs
- Hoger secundair onderwijs: algemeen onderwijs
- Specialisatieopleiding na secundair onderwijs (1 of 2 jaar)
- Hoger niet-universitair onderwijs korte type (3 jaar)
- Hoger niet-universitair onderwijs lange type (4 jaar)
- Hoger universitair onderwijs
- Post-universitair onderwijs

Wat is uw huidig (of laatste) beroep: .....

Deze vragenlijst werd ingevuld op: ...../...../20.....

Vragenlijst Vader (of partner van de moeder)
--

Naam: .....

U bent:        De vader        De partner van de moeder        De voorgd (man)

Geboortedatum: ...../...../19.....

Nationaliteit: ..... Moedertaal: .....

Wat is uw hoogst behaalde diploma?

- Geen diploma, lager onderwijs niet afgewerkt
- Lager secundair onderwijs
- Lager middelbaar onderwijs
- Hoger secundair onderwijs: beroepsonderwijs
- Hoger secundair onderwijs: technisch onderwijs
- Hoger secundair onderwijs: algemeen onderwijs
- Specialisatieopleiding na secundair onderwijs (1 of 2 jaar)
- Hoger niet-universitair onderwijs korte type (3 jaar)
- Hoger niet-universitair onderwijs lange type (4 jaar)
- Hoger universitair onderwijs
- Post-universitair onderwijs

Wat is uw huidig (of laatste) beroep: .....

Deze vragenlijst werd ingevuld op: ...../...../20.....

**In te vullen door de ouders**

Datum:

Ziekenhuis:

1. Wat is de naam van uw kind?

\_\_\_\_\_

2. Wat is het geslacht van uw kind?

- Meisje
- Jongen

3. Wat is de geboortedatum van uw kind?

\_\_\_\_\_

4. Naar welk type onderwijs gaat uw kind?

- Kleuterklas
- Lagere school
- Buitengewoon lager onderwijs
- Secundair onderwijs
- Buitengewoon secundair onderwijs
- Mijn kind gaat nog niet naar school

5. In welk jaar van de kleuterklas, lagere school of secundair onderwijs bevindt uw kind zich?

- 1<sup>e</sup> jaar
- 2<sup>e</sup> jaar
- 3<sup>e</sup> jaar
- 4<sup>e</sup> jaar
- 5<sup>e</sup> jaar
- 6<sup>e</sup> jaar

6. Ervaart uw kind moeilijkheden bij een bepaald leergebied? Meerdere antwoorden mogelijk.

- Lezen
- Rekenen
- Spelling
- Muziek
- Andere, namelijk:
- Geen van bovenstaande

7. Heeft uw kind een leerjaar meer dan één keer gedaan?

- Neen
- Ja

8. Heeft uw kind al ooit logopedische therapie gevolgd?

- Neen
- Ja

Indien ja, waarvoor volgt/volgde uw kind ooit logopedische therapie?

- Spreken
- Spelling
- Lezen
- Schrijven
- Rekenen
- Taalontwikkeling
- Stotteren
- Stem
- Andere, namelijk:

i. Op welke leeftijd volgde uw kind voor het eerst logopedische therapie?

ii. Hoelang volgt/volgde uw kind in totaal logopedische therapie?

iii. Hoeveel keer per week volgt/volgde uw kind logopedische therapie?

9. Volgt uw kind op dit moment bij één of meerdere disciplines logopedische therapie?

- Ergotherapie
- Kinesithérapie
- Psychotherapie
- GON-begeleiding
- Andere:
- Geen van bovenstaande

10. Heeft uw kind één of meerdere van onderstaande ingrepen ondergaan? Meerdere antwoorden mogelijk.

- Frenulotomie: een operatie waarbij het tongriempje wordt doorgesneden
- Adenotomie: een operatie waarbij de neuspoliepen worden weggenomen
- Tonsillectomie: een operatie waarbij de keelamandelen verwijderd worden

11. Volgt uw kind op dit moment een orthodontische behandeling

- Neen
- Ja

12. Hoe goed schat u het gehoor van uw kind op dit moment in? Duid met een kruisje het gepaste cijfer aan, waarbij 1 een heel slecht gehoor en 10 een perfect gehoor voorstelt.

1	10

Na het invullen van de vragenlijst:

1. Heeft u opmerkingen over onderstaande vragenlijst (oudervragenlijst)? Waren bepaalde zaken onduidelijk?

Bijlage 3: VELO-oudervragenlijst (Bruneel et al., 2017).

Hoe vaak heeft uw kind **gedurende de laatste vier weken** problemen ondervonden met... (omcirkel één voor elke vraag)

		Nooit	Bijna nooit	Soms	Vaak	Bijna altijd
<b>Beperkingen bij het spreken (problemen met...)</b>						
1	Lucht komt uit de neus tijdens het spreken.	0	1	2	3	4
2	Geraakt buiten adem tijdens het spreken.	0	1	2	3	4
3	Heeft moeilijkheden met het zeggen van lange zinnen.	0	1	2	3	4
4	De spraak klinkt te stil.	0	1	2	3	4
5	Is moeilijk te verstaan wanneer hij of zij gehaast is.	0	1	2	3	4
6	De spraak klinkt slechter tegen het einde van de dag.	0	1	2	3	4
7	De spraak klinkt anders dan bij andere kinderen.	0	1	2	3	4
<b>Slikproblemen (problemen met...)</b>						
8	Vloeistof komt in de neus tijdens het drinken.	0	1	2	3	4
9	Vast voedsel komt in de neus tijdens het eten.	0	1	2	3	4
10	Anderen lachen met mijn kind wanneer vast voedsel of vloeistof langs de neus ontsnapt.	0	1	2	3	4
<b>Moeilijkheden voor de omgeving (problemen met...)</b>						
11	De spraak is moeilijk te verstaan voor onbekenden.	0	1	2	3	4
12	De spraak is moeilijk te verstaan voor vrienden.	0	1	2	3	4
13	De spraak is moeilijk te verstaan voor familie.	0	1	2	3	4
14	Is moeilijk te verstaan wanneer geen een-op-een-gesprek wordt gevoerd, bv. zoals in de auto.	0	1	2	3	4
15	Is moeilijk te verstaan tijdens het telefoneren.	0	1	2	3	4
<b>Emotionele impact (problemen met...)</b>						
16	Wordt geplaagd omwille van de spraak.	0	1	2	3	4
17	Wordt triestig omwille van de spraak.	0	1	2	3	4
18	Geraakt gefrustreerd of geeft het op wanneer hij of zij niet wordt verstaan.	0	1	2	3	4
19	Is verlegen of teruggetrokken omwille van de spraak.	0	1	2	3	4
<b>Waarneming door anderen (problemen met...)</b>						
20	Wordt behandeld alsof hij of zij niet erg slim is omwille van de spraak.	0	1	2	3	4
21	Anderen negeren mijn kind omwille van zijn of haar spraak.	0	1	2	3	4
22	Anderen houden er niet van om te telefoneren met mijn kind omwille van zijn of haar spraak.	0	1	2	3	4
23	Familie of vrienden hebben de neiging om in de plaats van mijn kind te spreken.	0	1	2	3	4
<b>Impact op verzorgers (problemen met...)</b>						
24	Ik ben ongerust of bezorgd over de spraak van mijn kind.	0	1	2	3	4
25	Ik vind het moeilijk om mijn kind te verstaan.	0	1	2	3	4
26	Mijn kind zijn of haar spraakprobleem vertraagt mij of veroorzaakt ongemak voor mij.	0	1	2	3	4

Bijlage 4: VELO-kindervragenlijst (kinderen vanaf 8 jaar oud) (Bruneel et al., 2017).

Hoe vaak heb je **gedurende de laatste vier weken** problemen ondervonden met... (omcirkel één antwoord voor elke vraag)

		Nooit	Bijna nooit	Soms	Vaak	Bijna altijd
<b>Spreken (problemen met...)</b>						
1	Er komt lucht uit mijn neus terwijl ik spreek.	0	1	2	3	4
2	Ik geraak buiten adem terwijl ik spreek.	0	1	2	3	4
3	Het is moeilijk om in lange zinnen te spreken.	0	1	2	3	4
4	Mijn spraak klinkt te stil.	0	1	2	3	4
5	Ik ben moeilijk te verstaan wanneer ik gehaast ben.	0	1	2	3	4
6	Mijn spraak wordt slechter tegen het einde van de dag.	0	1	2	3	4
7	Mijn spraak klinkt anders dan bij andere kinderen.	0	1	2	3	4
<b>Slikken (problemen met...)</b>						
8	Vloeistof komt uit mijn neus tijdens het drinken.	0	1	2	3	4
9	Voedsel komt uit mijn neus tijdens het eten.	0	1	2	3	4
10	Anderen lachen met mij wanneer voedsel of vloeistof uit mijn neus komt.	0	1	2	3	4

<b>Momenten waarop ik het moeilijk heb (problemen met...)</b>						
11	Mijn spraak is moeilijk te verstaan voor onbekenden.	0	1	2	3	4
12	Mijn spraak is moeilijk te verstaan voor vrienden.	0	1	2	3	4
13	Mijn spraak is moeilijk te verstaan voor familie.	0	1	2	3	4
14	Ik ben moeilijk te verstaan wanneer anderen mijn gezicht niet kunnen zien, bijvoorbeeld in de auto.	0	1	2	3	4
15	Ik ben moeilijk te verstaan aan de telefoon.	0	1	2	3	4
<b>Hoe ik mij voel (problemen met...)</b>						
16	Ik word geplaagd omwille van mijn spraak.	0	1	2	3	4
17	Ik word triestig omwille van mijn spraak.	0	1	2	3	4
18	Ik ben gefrustreerd of geef het op wanneer anderen mij niet verstaan.	0	1	2	3	4
19	Ik ben verlegen omwille van mijn spraak.	0	1	2	3	4
<b>Hoe anderen zich voelen over mij (problemen met...)</b>						
20	Ik word behandeld alsof ik niet erg slim ben omwille van mijn spraak.	0	1	2	3	4
21	Anderen negeren mij omwille van mijn spraak.	0	1	2	3	4
22	Anderen vinden het niet leuk om met mij te telefoneren omwille van mijn spraak.	0	1	2	3	4
23	Mijn familie of vrienden lijken in mijn plaats te spreken.	0	1	2	3	4

