

LANGETERMIJNEFFECT VAN EENTIJDIGE PALATALE SLUITING OP DE SPRAAK BIJ PATIENTEN MET SCHISIS – VERZAMELING BELGISCHE DATA

Aantal woorden: 11645

Tine Papeleu (Stamnummer: 01608094)

Promotor: dr. K. Bettens

Copromotor: prof. dr. K. Van Lierde

Masterproef voorgelegd tot het behalen van de graad van Master in de richting Logopedische en Audiologische wetenschappen.

Academiejaar: 2020 – 2021

Dankwoord

Het schrijven van deze masterproef bood mij de opportuniteit om kennis te maken met de doelgroep van kinderen met schisis en om mij te verdiepen in wetenschappelijk onderzoek. Het was een leerrijke ervaring die heel wat inspanning en toewijding heeft gevraagd. Graag wil ik een aantal mensen bedanken die mij hielpen in het tot stand brengen van dit mooie resultaat.

In eerste instantie wil ik mijn promotor en copromotor, dr. Kim Bettens en prof. Kristiane Van Lierde, bedanken voor de professionele begeleiding en ondersteuning tijdens het schrijven van dit werk. Zij gaven mij voldoende vrijheid om zelfstandig werk te leveren. In het bijzonder wil ik dr. Bettens bedanken voor de constructieve feedback en voor de rekrutering van de patiënten.

Een woord van dank gaat uit naar de professoren en lesgevers binnen de opleiding. In het bijzonder wil ik prof. dr. Peter Tomassen bedanken voor de kennis omtrent chirurgie bij schisis en om mij de chirurgische technieken van dichtbij te laten ervaren. Daarnaast wil ik prof. Evelien D'haeseleer bedanken om mij inzichten te bieden in wetenschappelijk onderzoek. Ook prof. Youri Maryn verdient enige bedanking om mij vaardig te leren zijn met het programma Praat.

Mijn dank gaat ook uit naar Merel Claeys, niet alleen voor het beoordelen van de spraakstalen, maar ook om mij steeds met raad en daad bij te staan.

Tot slot wil ik mijn naaste omgeving bedanken voor hun steun en motivatie tijdens het schrijven van mijn masterproef alsook doorheen het hele opleidingstraject.

Abstract (Nederlandstalige versie)

Achtergrond: Een verhemeltespleet al dan niet in combinatie met een lip- en/of kaakspleet kan heel wat implicaties hebben op de ontwikkeling van een kind, in het bijzonder op de spraakontwikkeling. De functionaliteit van de velofarynx kan immers beperkt zijn, wat leidt tot een onvolledige afsluiting van de velofaryngale sfincter tijdens het spreken (i.e. velofaryngale insufficiëntie (VFI)). Dit kan aanleiding geven tot nasale luchtontsnapping tijdens de orale consonantproductie en/of hypernasaliteit. Teneinde deze schisisgerelateerde complicaties te voorkomen, wordt palatale sluiting uitgevoerd. De spraakuitkomst is een van de belangrijkste factoren om het succes van palatoplastie te bepalen.

Doelstelling: In dit onderzoek werden de articulatie, resonantie, spraakverstaanbaarheid en spraakaanvaardbaarheid van 8 patiënten met schisis (gemiddelde leeftijd 9,3 jaar), die eentijdige palatale sluiting ondergingen rond de leeftijd van 12 maanden, vergeleken met een controlegroep bestaande uit 16 kinderen (gemiddelde leeftijd 8,4 jaar) zonder schisis.

Methode: De spraakparameters werden perceptueel beoordeeld volgens de richtlijnen van het CAPS-A-NL protocol van Bruneel et al. (2020). Ter objectivering van de perceptuele beoordeling van de resonantie werd instrumenteel onderzoek uitgevoerd door middel van de Nasometer. Persoonlijke en medische gegevens werden verzameld a.d.h.v. een oudervragenlijst en inzage in de patiëntendossiers.

Resultaten: De spraak werd bij 50% van de kinderen met schisis beoordeeld als normaal verstaanbaar en bij 25% als normaal aanvaardbaar. Bij 75% van de patiënten was er hypernasaliteit in de spraak aanwezig en nasale luchtstroom (zowel nasale emissie als nasale turbulentie) in 25% van de gevallen. Passieve *cleft speech characteristics* (CSCs) werden bij 62% gedetecteerd en anterieur orale CSCs bij 87%. Posterieur orale CSCs en non-orale CSCs waren bij iedereen afwezig. De controlegroep scoorde significant beter voor de parameters: spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid, hypernasaliteit en passieve CSCs. Daarentegen verschilden nasale luchtstroom en anterieur orale CSCs niet significant tussen beide groepen.

Conclusie: De resultaten voor de nasale luchtstroom van deze studie zijn vergelijkbaar met de resultaten van andere studies bij dezelfde populatie. Daarentegen werden voor de parameters resonantie, passieve CSCs, spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid minder goede resultaten gevonden. De kinderen met schisis kwamen bijgevolg niet tot leeftijdsadequate spraak. De afwezigheid van compensatoire articulatie onder de vorm van posterieur orale CSCs en non-orale CSCs was een opvallende bevinding. Dit was vermoedelijk het resultaat van postoperatieve spraaktherapie. Er is nood aan toekomstig onderzoek dat rekening houdt met de beperkingen van deze studie en dat longitudinaal te werk gaat om het langetermijneffect van eentijdige palatale sluiting op de spraak te bepalen

Abstract (English version)

Background: A cleft palate with or without a cleft lip and/or alveolus may result in multiple complications, in particular regarding speech development. The functionality of the velopharynx may be limited, resulting in an incomplete closure of the velopharyngeal sphincter during speech production (i.e. velopharyngeal insufficiency (VFI)). This results in nasal airflow during oral consonant production and/or hypernasality. To prevent these cleft-related complications, palatal closure is performed. Speech outcome is considered one of the most important factors to determine the success of palatoplasty.

Objective: In this study, articulation, resonance, speech intelligibility and acceptability of 8 patients (mean age 9,3 years) with a cleft palate, who underwent a one-stage palatal closure around the age of 12 months, were compared with a control group consisting of 16 children (mean age 8,4 years) without a cleft palate.

Method: The speech parameters were perceptually assessed according to the guidelines of the CAPS-A-NL protocol (Bruneel et al., 2020). Instrumental research was performed to objectify the perceptual assessment of the resonance by using the Nasometer. Personal and medical data were collected using a parent questionnaire and patient files.

Results: Normal speech understandability was observed in 50% of the children with a cleft palate and 25% were judged with normal speech acceptability. Hypernasality was present in 6 patients (75%) and nasal airflow (both nasal emission and nasal turbulence) in 25% of the cases. Passive cleft speech characteristics (CSCs) were detected in 5 patients (62%) and anterior oral CSCs in 7 patients (87%). In contrast, no posterior oral CSCs and non-oral CSCs were observed. For the following speech parameters a significant difference between the patient group and control group was observed: speech intelligibility and acceptability, hypernasality and passive CSCs. Nasal airflow and anterior oral CSCs did not differ significantly between the two groups.

Conclusion: This study showed comparable results for the nasal airflow as reported by other studies in the literature. In contrast, less good results were found for the parameters resonance, passive CSCs, speech intelligibility and acceptability. The group of patients did not reach an age-appropriate speech. Especially the absence of compensatory articulation (posterior oral CSCs and nonoral CSCs) was a remarkable finding. This was most likely the result of postoperative speech therapy. Future research is necessary to take the limitations of this study into account. A longitudinal study may determine the long-term effect of one-stage palatal closure on speech.

Inhoudstafel

Inleiding	6
Methode	12
1. Proefpersonen	12
2. Onderzoeksprocedure	13
2.1. Perceptuele beoordeling van de spraak	14
2.2. Instrumentele beoordeling van de spraak	18
3. Statistische analyse	19
Resultaten	20
1. Medische informatie	20
2. Perceptuele beoordeling van de spraakparameters	22
2.1. Onderzoeksresultaten betrouwbaarheid	22
2.2. Onderzoeksresultaten categorische spraakvariabelen	23
3. Instrumentele beoordeling van de resonantie	28
Discussie	29
Conclusie	36
Referenties	37
Appendices	41

Inleiding

Deze masterproef kadert in een groter onderzoeksproject met als titel 'Het langetermijneffect van vroege primaire palatale sluiting (voor de leeftijd van 6 maanden) op spraakkenmerken bij kinderen met een aangeboren, geïsoleerde schisis in Oeganda'.

Schisis is een aangeboren malformatie van het gelaat, met een prevalentie van 1.7 per 1000 levendgeborenen (Mossey, Little, Munger, Dixon, & Shaw, 2009). De term 'schisis' verwijst naar een spleet in de bovenlip, het verhemelte en/of de tandenboog (Wirtz, Sidman, & Block, 2016; Worley, Patel, & Kilpatrick, 2018). Een gespleten verhemelte kan heel wat implicaties hebben op de ontwikkeling van een kind, in het bijzonder op de spraakontwikkeling (Dorf & Curtin, 1982). De functionaliteit van de velofarynx kan immers beperkt zijn, wat leidt tot een onvolledige afsluiting van de velofaryngale sfincter tijdens het spreken (i.e. velofaryngale insufficiëntie (VFI)). Dit kan aanleiding geven tot nasale luchtontsnapping tijdens de orale consonantproductie en/of hypernasaliteit. Velofaryngale insufficiëntie heeft bijgevolg invloed op quasi alle spraakklanken (Dorf & Curtin, 1982). In de Engelse literatuur wordt er gesproken over *cleft palate speech*, een term die gebruikt wordt om te verwijzen naar de spraak bij schisispatiënten (Hutters & Brøndsted, 1987). Binnen *cleft palate speech* wordt er een onderscheid gemaakt tussen spraakkenmerken die al dan niet het gevolg zijn van de aanwezige verhemeltespleet, respectievelijk *cleft speech characteristics* (CSCs) en *developmental speech characteristics* (DSCs). Bovendien wordt er een onderscheid gemaakt tussen passieve en actieve CSCs (Sell et al., 2009) (Appendix 1). Passieve CSCs zijn obligatoir het gevolg van VFI (i.e. obligatoire articulatiestoornissen), zoals bijvoorbeeld nasale of zwakke productie van plosieven. Actieve CSCs daarentegen zijn geen direct gevolg van VFI, maar zijn pogingen om de gevolgen van VFI te camoufleren of te compenseren (i.e. compensatoire articulatiestoornissen) (Lohmander et al., 2017). Voorbeelden van actieve CSCs zijn o.a. palatalisatie, backing naar een velaire/uvulaire articulatieplaats en glottale stop. Doelklanken krijgen hierbij een andere articulatieplaats en worden doorgaans meer posterieur gearticuleerd al dan niet in de orale caviteit, respectievelijk actief orale en actief non-orale CSCs. Tot slot zijn er spraakkenmerken die niet geassocieerd kunnen worden met de aanwezige verhemeltespleet, i.e. *developmental speech characteristics* (DSCs). Voorbeelden van DSCs zijn: stopping, fronting, /s/-deviaties en verstemlozing (Willadsen et al., 2017).

In de hoop dat deze schisisgerelateerde complicaties worden voorkomen, wordt palatale sluiting uitgevoerd. Hierbij worden de orale en nasale caviteit van elkaar gescheiden, teneinde de functionaliteit van de velofarynx tijdens het spreken te verbeteren. Bijgevolg is de spraakuitkomst een van de belangrijkste factoren om het succes van de chirurgie te bepalen.

Momenteel is er in de literatuur voornamelijk informatie beschikbaar over de spraakuitkomst bij jonge kinderen (i.e. rond de leeftijd van 5 jaar) (Bruneel et al., 2018; Nyberg, Peterson, & Lohmander, 2014; Sell et al., 2015; Willadsen et al., 2017). Nyberg et al. (2014) includeerden 69 kinderen met een niet-syndromale,

complete unilaterale lip- en verhemeltespleet (UCLP) die op de gemiddelde leeftijd van 13 maanden primaire palatoplastie ondergingen. De onderzoekers gingen postoperatief het langetermijneffect op de spraak na, op de gemiddelde leeftijd van 5,1 jaar. Van deze kinderen had 19 - 22% een milde tot ernstige hypernasaliteit, zwakke drukconsonanten (plosieven en fricatieven) en een incompetente velofaryngale functie. Bij 40% was er sprake van hoorbare nasale emissie en/of nasale turbulentie tijdens het spreken. Dertig procent vertoonde frequent of bijna altijd compensatoire articulatiestoornissen. Algemeen werd bij 57% van de 5-jarigen de spraak als normaal beoordeeld. Volgens de beoordelaars had de helft van deze kinderen nood aan een additionele behandeling (i.e. spraaktherapie en/of secundaire chirurgie). Sell et al. (2015) includeerden eveneens kinderen met een niet-syndromale, complete UCLP. Voor de Cleft Care UK studie van Sell et al. (2015) werden 248 kinderen met een gemiddelde leeftijd van 5,5 jaar geïncludeerd die primaire palatoplastie ondergingen rond de leeftijd van 12 maanden. Bij 56% van deze kinderen werden de spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid als normaal beoordeeld. De meeste kinderen vertoonden een normale resonantie. Bij 10% was er sprake van hypernasaliteit en bij 12% van hyponasaliteit. Nasale emissie was aanwezig bij 15% en bij dubbel zoveel kinderen (30%) was er sprake van nasale turbulentie. Actieve CSCs kwamen meer voor (23% anterieur orale CSCs; 15% posterieur orale CSCs; 10% non-orale CSCs) in vergelijking met passieve CSCs (7%). Hierbij was er vooral sprake van actieve CSCs zoals lateralisatie en backing naar een velaire/uvulaire articulatieplaats. Willadsen et al. (2017) includeerden 55 geïsoleerde UCLP-patiënten die eentijdige palatale sluiting ondergingen op de gemiddelde leeftijd van 12 maanden. Deze onderzoekers gingen de invloed van chirurgie op de articulatie na. De mediaan van het percentage correcte consonanten (PCC) bedroeg iets meer dan 80%. Bij deze groep van kinderen kwamen evenveel actieve als passieve CSCs voor (mediaan actieve CSCs: 2; mediaan passieve CSCs: 2). De actieve CSCs werden nog verder opgedeeld in posterieur orale CSCs, non-orale CSCs en glottale stops. Tweeëntwintig procent produceerde 3 of meer posterieure orale CSCs. Daarnaast produceerde 20% non-orale CSCs en 15% glottale stops.

In deze studies werd geen controlegroep van typisch ontwikkelende kinderen geïmplementeerd. Dit in tegenstelling tot een recent onderzoek van Bruneel et al. (2018). Hierdoor was men in staat na te gaan in welke mate de spraak van kinderen met schisis die eentijdige palatale sluiting ondergingen, verschilde van de spraak van kinderen zonder schisis. Zij includeerden 16 kinderen (gemiddelde leeftijd 5,4 jaar) met een gespleten verhemelte (8 UCLP; 4 bilaterale lip- en verhemeltespleet (BCLP); 4 geïsoleerde palatoschisis (CP)) die primaire palatale sluiting ondergingen op de gemiddelde leeftijd van 12 maanden. De controlegroep werd gematcht aan de patiëntengroep voor leeftijd (gemiddelde leeftijd 5,3 jaar) en geslacht (10 meisjes en 6 jongens). De parameters spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid, resonantie, nasale luchtstroom en articulatie werden perceptueel beoordeeld. Bij 7 patiënten (44%) was er sprake van een gestoorde spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid. Hypernasaliteit werd gedetecteerd bij 12 (75%) patiënten en nasale emissie en nasale turbulentie respectievelijk bij 13 (81%) en 5 (31%) patiënten. Twaalf procent van de patiëntengroep liet nasale grimassen zien in die mate dat de beoordelaar erdoor afgeleid werd. Uit de vergelijking met de controlegroep bleek dat de patiënten significant minder goed scoorden op de perceptuele en instrumentele beoordeling van de spraak dan de controleproefpersonen. Er werden significant meer

substituties, omissies, alsook deleties van de finale consonanten, clusterreducties, fronting, backing en stopping gevonden bij de patiëntengroep in vergelijking met de controlegroep. Daarnaast werden de spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid significant meer als gestoord beoordeeld. Milde tot matige hypernasaliteit, nasale emissie en nasale turbulentie kwamen significant meer voor bij de patiëntengroep in vergelijking met de controlegroep. Ten slotte werden significant minder goede nasometrische waarden en *Nasality Severity Index 2.0* (NSI 2.0) - waarden gevonden voor de kinderen met een gespleten verhemelte.

In deze studies die de spraakuitkomst bij kinderen met schisis nagingen op de gemiddelde leeftijd van 5 jaar, werd de spraak beoordeeld als verstaanbaar en/of aanvaardbaar bij iets meer dan de helft van de patiëntengroep. Daarentegen vonden de studies tegenstrijdige resultaten voor de resonantie en nasale luchtstroom. De spraak van de kinderen met schisis uit de studie van Bruneel et al. (2018) bevatte een beduidend hogere graad van hypernasaliteit en meer nasale luchtstroom. Daarnaast werden obligatoire articulatiestoornissen bij een beperkte hoeveelheid van de patiëntengroep vastgesteld in alle studies, gaande van 7% tot 22%. In alle studies werden compensatoire articulatiestoornissen gedetecteerd in de spraak van kinderen met schisis. Hierbij dient opgemerkt te worden dat Bruneel et al. (2018) een andere foutenanalyse voor de articulatie gebruikten en geen onderscheid maakten tussen CSCs en DSCs, in tegenstelling tot de andere studies. Tot slot konden Bruneel et al. (2018) concluderen dat de spraak van de schisispatiënten, op de gemiddelde leeftijd van 5 jaar, significant minder goed was dan de spraak van hun leeftijdsgenootjes zonder schisis.

De vraag is hoe de spraak van kinderen met schisis, die eentijdige palatale sluiting ondergingen, verder evolueert tegen de leeftijd van 9 jaar. Op deze leeftijd wordt verwacht dat de spraakontwikkeling beëindigd is (Gangji, Pascoe, & Smouse, 2015). In tegenstelling tot de spraakuitkomst op jonge leeftijd is er weinig gekend over de spraakuitkomst na primaire palatale sluiting bij oudere kinderen (i.e. rond de leeftijd van 9 jaar) (Bettens et al., 2020; Nyberg et al., 2014; Pulkkinen, Haapanen, Paaso, Laitinen, & Ranta, 2001). In een longitudinaal onderzoek onderzochten Nyberg et al. (2014) het langetermijneffect van primaire eentijdige palatale sluiting op de spraak op de gemiddelde leeftijd van 5,1 jaar en 10,5 jaar. Bij minder dan 5% van de 10-jarige kinderen was er sprake van een milde tot ernstige hypernasaliteit, zwakke drukconsonanten (plosieven en fricatieven) en een incompetente velofaryngale functie. Daarnaast waren hoorbare nasale emissie en/of nasale turbulentie bij 32% aanwezig. Zes procent vertoonde op de leeftijd van 10 jaar nog frequent of bijna altijd compensatoire articulatiestoornissen. Algemeen werd bij 89% de spraak als normaal verstaanbaar/aanvaardbaar beoordeeld en had volgens de beoordelaars 11% nood aan een additionele behandeling (i.e. spraaktherapie en/of secundaire chirurgie). Pulkkinen et al. (2001) includeerden 65 kinderen (30 UCLP; 35 CP) die tussen de leeftijd van 1 en 2 jaar een eentijdige palatale sluiting ondergingen. Zij onderzochten eveneens de spraak op lange termijn, meer bepaald op de leeftijd van 3, 6 en 8 jaar. Tegen de leeftijd van 8 jaar werd bij geen enkel kind compensatoire articulatie vastgesteld en slechts bij 1,5% was er sprake van zwakke drukconsonanten. Bij een aantal kinderen was er hypernasaliteit en/of nasale emissie aanwezig in de spraak, respectievelijk bij 29% en 22%. Nyberg et al. (2014) en Pulkkinen et al. (2001) gingen

beiden het langetermijneffect van primaire palatale sluiting op de spraak na. Beiden vonden ze een significante verbetering van de articulatie, meer bepaald een afname van de passieve en actieve articulatiestoornissen. Er was geen eensgezindheid over de evolutie van de resonantie en de nasale luchtstroom. Volgens Nyberg et al. (2014) nam de graad van hypernasaliteit af tegen de leeftijd van 10 jaar, terwijl Pulkkinen et al. (2001) net meer hypernasaliteit waarnamen naarmate de leeftijd toenam. Daarentegen vonden Pulkkinen et al. (2001) wel een afname van de nasale emissie, hoewel Nyberg et al. (2014) geen significante verbetering van de nasale luchtstroom konden vaststellen. Ondanks deze tegenstrijdigheid konden de onderzoekers van beide studies concluderen dat de spraak significant verbeterde naargelang de kinderen ouder werden.

Nyberg et al. (2014) en Pulkkinen et al. (2001) implementeerden geen controlegroep, bestaande uit typisch ontwikkelende kinderen zonder schisis. Bettens et al. (2020) deden dit wel in hun onderzoek. Zij includeerden 24 Oegandese kinderen (gemiddelde leeftijd 8,4 jaar) die geboren werden met een gespleten verhemelte en/of lip (18 UCLP; 4 BCLP; 2 CP). Deze kinderen ondergingen primaire palatale sluiting op de gemiddelde leeftijd van 2,5 maanden. De controlegroep (n=24) werd gematcht aan de patiëntengroep voor leeftijd (gemiddelde leeftijd 8,6 jaar) en geslacht (15 jongens en 9 meisjes). De spraak van beide groepen werd perceptueel beoordeeld, waarna de spraakparameters van beide groepen vergeleken werden. Milde tot matige hypernasaliteit werd bij 30% van de patiënten gedetecteerd. Bij 1 patiënt (4%) was er zelden sprake van nasale emissie. Daarentegen kwam nasale turbulentie bij 37% van de patiënten zelden voor en bij 13% frequent. Voor wat de articulatie betreft, waren passieve articulatiestoornissen bij 46% aanwezig. Ook actieve articulatiestoornissen werden geïdentificeerd bij de patiëntengroep, vooral anterior orale CSCs (79%). Dit in tegenstelling tot posterior orale CSCs en non-orale CSCs die minder frequent voorkwamen, namelijk bij 8% van de patiënten. Een kenmerkende/afwijkende stemkwaliteit en nasale grimas werden bij een beperkt aantal patiënten gedetecteerd, respectievelijk bij 8% en 4%. De spraak werd bij 42% als verstaanbaar beschouwd en bij 38% als aanvaardbaar. Uit de vergelijking tussen beide groepen bleek dat voor de volgende spraakparameters de controlegroep significant beter scoorde in vergelijking met de patiëntengroep: spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid, resonantie, nasale turbulentie, anterior orale CSCs en passieve orale CSCs. Daarentegen werd voor nasale emissie, nasale grimas, stem, posterior orale CSCs en non-orale CSCs geen significant verschil gevonden. De onderzoekers konden, op basis van deze onderzoeksresultaten en op basis van vergelijking met andere studies, concluderen dat de kinderen met schisis een zeker niveau van adequate spraak bereikten. Hierbij was het opmerkelijk dat compensatoire articulatiestoornissen minder aanwezig waren. Over het algemeen kwamen de resultaten van Nyberg et al. (2014) en Pulkkinen et al. (2001) grotendeels overeen met de resultaten van Bettens et al. (2020) voor de resonantie, nasale luchtstroom en articulatie. Daarentegen werd er op vlak van spraakverstaanbaarheid en spraakaanvaardbaarheid in de studie van Bettens et al. (2020) minder goed gescoord. Het onderzoek van Bettens et al. (2020) werd uitgevoerd in een land waarin de interdisciplinaire zorg zeer beperkt is (o.a. afwezigheid van gehoorcontroles, beperkte toegang tot logopedische therapie, beperkte toegang tot

secundaire/spraakverbeterende chirurgie). Dit had mogelijks een invloed op de langetermijnresultaten van de spraak bij de Oegandese kinderen met schisis.

Opvallend in deze onderzoeken is het verschil qua tijdstip waarop de primaire palatoplastie werd uitgevoerd. Deze varieerde van een gemiddelde leeftijd van 2,5 maanden (standaarddeviatie (SD) 1,38, range 0 – 6 maanden) in de studie van Bettens et al. (2020) over een gemiddelde leeftijd van 13 maanden (SD 1,8, range 10 – 20 maanden) (Nyberg et al., 2014) tot een leeftijd tussen 1 en 2 jaar (Pulkkinen et al., 2001). In de literatuur is er geen eenduidigheid omtrent het tijdstip waarop een verhemeltespleet idealiter gesloten wordt. Dit heeft tot gevolg dat de diversiteit aan chirurgische protocollen groot is (Semb et al., 2017). Sommige onderzoekers stellen dat hoe vroeger de ingreep plaatsvindt, hoe beter de spraakuitkomst zal zijn (Copeland, 1990; De Mey, Swennen, Malevez, George, & Mansbach, 2006; Ysunza et al., 1998). Wanneer kinderen met schisis in hun prelinguïstische fase reeds een hersteld spraakmechanisme hebben, kunnen ze het vocaliseren en brabbelen aanvatten zonder anatomische en fysiologische afwijkingen in hun spraakmechanisme. Bijgevolg komen deze kinderen tot adequaat canonisch brabbelen zonder verstoring van de klankpatronen, wat een belangrijke voorwaarde is om tot een leeftijdsadequate spraakontwikkeling te komen (Chapman et al., 2008; Dorf & Curtin, 1982; Ziak, Fedeles, Fekiacova, Hulin, & Fedeles, 2010). De meeste kinderen met schisis starten met canonisch brabbelen tegen de leeftijd van 9 maanden (Chapman, Hardin-Jones, Schulte, & Halter, 2001). Bijgevolg zou men idealiter het verhemelte voor deze leeftijd sluiten. Momenteel is er in de literatuur onvoldoende bewijs om de hypothese 'hoe vroeger, hoe beter' als algemene standaard te aanvaarden.

In België wordt het verhemelte chirurgisch gesloten tegen het einde van het eerste levensjaar. In Europa is het immers algemeen aanvaard om het verhemelte op de gemiddelde leeftijd van 12 maanden te sluiten (Shaw et al., 2019). In België werd het langetermijneffect (i.e. op de leeftijd van 9 jaar of ouder) van primaire palatale sluiting op de spraak in beperkte mate onderzocht. Er is bijgevolg nood aan onderzoek in België dat de invloed van eentijdige palatale sluiting op de spraak van patiënten met schisis op de gemiddelde leeftijd van 9 jaar nagaat. Men kan dan bepalen in welke mate de onderzoeksresultaten overeenkomen met deze van het Zweedse onderzoek van Nyberg et al. (2014), waarin men eveneens het langetermijneffect (i.e. op de gemiddelde leeftijd van 10,5 jaar) op de spraak onderzocht bij kinderen die eentijdige palatale sluiting ondergingen op de gemiddelde leeftijd van 13 maanden.

Vermoedelijk zijn er, naast toegang tot de gezondheidszorg en tijdstip van eentijdige palatale sluiting, nog andere factoren die een invloed hebben op de spraakuitkomst. Er zijn immers studies die suggereren dat (intensieve) logopedische interventie een positieve invloed heeft op de spraakontwikkeling van schisispatiënten, meer bepaald op de articulatie (Alighieri et al., 2019; Sell et al., 2017). Desondanks is er nog steeds nood aan verder onderzoek (Bessell et al., 2013). Ook de aanwezigheid van een palatale fistel kan een invloed hebben op de spraak, meer bepaald op de graad van hypernasaliteit (Karling, Larson, & Henningson, 1993). Daarnaast kan secundaire chirurgie de spraak beïnvloeden, zoals bijvoorbeeld een palatale re-repair (Elsherbiny, Amerson, Sconyers, & Grant III, 2018) of een velofaryngoplastie (Haapanen,

1992). De vraag is of het verbeteren van de spraak, tegen de gemiddelde leeftijd van 9 jaar, een resultaat is van bijkomende interventies of dat het te wijten is aan de natuurlijke maturatie van het kind.

Het doel van deze masterproef is nagaan in welke mate de spraakkenmerken zoals articulatie, resonantie, alsook spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid, van kinderen die geboren werden met een geïsoleerde schisis en eentijdige palatale sluiting ondergingen op de gemiddelde leeftijd van 12 maanden, verschillen van de spraakkenmerken van kinderen die geboren werden zonder schisis op de gemiddelde leeftijd van 9 jaar. De verscheidende spraakparameters werden verzameld a.d.h.v. perceptuele beoordeling gebaseerd op het CAPS-A-NL protocol van Bruneel et al. (2020). De beoordeling van de resonantie werd geobjectiveerd d.m.v. een instrumenteel onderzoek (Nasometrie). Tevens werd er informatie verzameld over de frequentie, duur en inhoud van postoperatieve spraaktherapie, over de aanwezigheid van palatale fistels en over secundaire chirurgie. Hypothetisch zou men kunnen stellen dat schisispatiënten, die eentijdige palatale sluiting ondergingen op de gemiddelde leeftijd van 12 maanden, leeftijdsadequate spraakkenmerken verwerven tegen de gemiddelde leeftijd van 9 jaar die aansluiten bij de spraak van kinderen zonder schisis.

Methode

Het onderzoeksprotocol van deze masterproef werd goedgekeurd door de Commissie voor Medische Ethiek van het Universitair Ziekenhuis Gent (BC-07651) op 8/05/2020 (Appendix 2). De ouders van de participanten gaven geïnformeerde toestemming door een informatie- en toestemmingsformulier te ondertekenen.

1. Proefpersonen

Voorafgaand aan het onderzoek werden in- en exclusiecriteria opgesteld, teneinde de participanten nauwkeurig te kunnen rekruteren. Voor de patiëntengroep werden kinderen geïncludeerd die geboren werden met een niet-syndromale vorm van een gespleten verhemelte al dan niet in combinatie met een gespleten lip. Bij de aanwezigheid van andere, congenitale afwijkingen werd het kind niet geïncludeerd voor verder onderzoek. Tevens werden kinderen met een submuceuze verhemeltespleet geëxcludeerd. Ook de leeftijd waarop het kind primaire palatoplastiek onderging, was een belangrijk criterium om in rekening te brengen. De minimale leeftijd van 9 maanden werd gehanteerd als inclusiecriteria. Op die manier trachtte men kinderen die preoperatief nog niet brabbelden uit te sluiten. Daarnaast waren er verscheidene in- en exclusiecriteria die zowel voor de patiëntengroep als voor de controlegroep golden. Alle proefpersonen moesten Nederlands als moedertaal hebben. Tevens moest het gehoor van elk kind normaal worden bevonden (i.e. een gehoordrempel van 15 - 20 dB aan het beste oor) (Walker, Cleveland, Davis, & Seales, 2013). Kinderen met een matig tot ernstig gehoorverlies of volledige doofheid (i.e. een gehoordrempel \geq 40 dB aan het beste oor) werden geëxcludeerd (Ens-Dokkum, 2003). Een goede ontwikkeling zowel op vlak van intelligentie, taal als psychomotoriek, was een belangrijk inclusiecriteria om tot een adequate beoordeling van de spraak te komen. Kinderen wiens leeftijd niet binnen de vooropgestelde range (i.e. tussen 6 en 12 jaar) viel en/of onvoldoende medewerking leverden tijdens het onderzoek, werden niet geïncludeerd. De controleproefpersonen mochten geen geschiedenis van nasale en/of laryngale pathologieën, noch spraak- en/of taalstoornissen hebben. Kinderen die tijdens het onderzoek een verkoudheid of een opstoot van allergie hadden, werden eveneens uitgesloten.

De patiëntengroep werd gerekruteerd via het Centrum voor Craniofaciale Afwijkingen van het Universitair Ziekenhuis te Gent. Deze groep bestond uit 8 kinderen (5 meisjes en 3 jongens) met een gemiddelde leeftijd van 9,3 jaar (SD 1,29, range 7,1 - 11,0 jaar). Al deze kinderen werden geboren met een niet-syndromale vorm van schisis (4 UCLP; 4 CP). De patiënten ondergingen primaire palatale sluiting volgens Sommerlad op de gemiddelde leeftijd van 12 maanden (SD 2,9, range 9 – 16 maanden) (Sommerlad, 2003), uitgevoerd in het UZ Gent. Eén kind werd geboren met een milde faciale dysmorphie. Alle patiënten hadden Nederlands als moedertaal en 1 patiënt werd tweetalig (Nederlands – Frans) opgevoed. Een subjectief verminderd gehoor werd bij 1 patiënt vastgesteld. Alle ouders meldden een geschiedenis van frequente

middenoorontstekingen bij hun kind, welke hiervoor reeds in behandeling waren. Teneinde een goede middenoorverluchting te garanderen, werden er bij deze kinderen minstens 1 keer trommelvliesbuisjes geplaatst. Eén kind maakte op kleuterleeftijd een vertraagde motorische ontwikkeling door, maar haalde deze achterstand in. Een ander kind had, op het moment van onderzoek, nog moeilijkheden op schools vlak. De controlegroep werd gerekruteerd door een masterstudente in de logopedische wetenschappen (T.P.). De controleproefpersonen werden gerekruteerd via een oproep op sociale media en contact via scholen. Deze groep bestond uit 16 kinderen (5 meisjes en 11 jongens) met een gemiddelde leeftijd van 8,4 jaar (SD 0,78, range 7,1 – 10,0 jaar), welke statistisch significant verschilde ($t(22) = -2,226; p = 0,037$) van de gemiddelde leeftijd van de patiëntengroep. Deze kinderen werden geboren zonder een craniofaciale aandoening en kenden geen medische voorgeschiedenis, zoals nasale en/of laryngale pathologieën, spraak- en/of taalstoornissen, gehoorverlies en/of middenoorafwijkingen. Alle controleproefpersonen hadden Nederlands als moedertaal en maakten een normale ontwikkeling door op vlak van intelligentie, taal en psychomotoriek. Eén kind werd geëxcludeerd voor verder onderzoek omwille van een verkoudheid op het testmoment. Al deze informatie werd verzameld a.d.h.v. een oudervragenlijst (Appendix 3). Bijkomende informatie over de patiënten kon verkregen worden door inzage in de patiëntendossiers.

2. Onderzoeksprocedure

Van elke participant werden verschillende spraakstalen verzameld. Deze spraakstalen werden opgenomen gebruikmakend van de JVC Camcorder GZ-R415WE. De camera werd zodanig geplaatst dat het mondbeeld van de deelnemer goed in beeld was en zonder tegenlicht. Daarnaast werd een unidirectionele condensatormicrofoon (Samson C01U) gebruikt. De microfoon werd op tafel geplaatst in een hoek van 45 – 90°. De afstand mond – microfoon bedroeg telkens ongeveer 30 cm, tenzij er veel reverberatie in de ruimte aanwezig was. Dan werd de microfoon dicht bij de mond geplaatst (5 – 10 cm). De signaal-ruisverhouding werd bepaald teneinde een kwalitatief goede spraakopname te bekomen. Hiervoor was het van belang om zoveel mogelijk ruisbronnen uit te schakelen, zoals bijvoorbeeld het geluid van een televisie of radio en lawaai in de ruimte. Het geluidsniveau van de microfoon werd ingesteld op 85 dB.

Vervolgens werden de spraakstalen gepseudonimiseerd teneinde de anonimiteit te garanderen. De naam van de proefpersonen werd vervangen door versleutelde gegevens, meer bepaald door een cijfer. Op die manier was de blinde beoordelaar (M.C.) niet in staat om de proefpersonen te identificeren. Alleen de onderzoeker van deze masterproef (T.P.) was in staat om a.d.h.v. de sleutels de spraakstalen te koppelen aan de bijhorende proefpersoon.

2.1. Perceptuele beoordeling van de spraak

Verschillende spraakparameters zoals spraakverstaanbaarheid- en aanvaardbaarheid, resonantie en nasale luchtstroom, alsook articulatie, nasale grimas en stem werden perceptueel beoordeeld. Hiervoor stelde men een luisterprotocol (Tabel 1) en een beoordelingsprotocol (Appendix 4) op, gebaseerd op het Cleft Audit Protocol for Speech – Augmented (CAPS-A) (John, Sell, Sweeney, Harding-Bell, & Williams, 2006), na vertaling en aanpassing door Bruneel et al. (2020). De volgorde waarin de spraakstalen aangeboden werden, zou immers de beoordeling kunnen beïnvloed hebben. Het luister- en beoordelingsprotocol van Bruneel et al. (2020) werd door de onderzoeker van deze masterproef (T.P.) aangepast aan het onderzoek van Bettens et al. (2020), om vergelijking tussen de Oegandese en Belgische data te faciliteren.

Tabel 1: gestructureerd luisterprotocol voor de perceptuele beoordeling van de spraakstalen, gebaseerd op het CAPS-A-NL protocol van Bruneel et al. (2020), mits aanpassing aan het onderzoek van Bettens et al. (2020).

	Spraakstaal	Spraakparameters beoordeeld op de ordinale schalen		
1.	Audio: spontane spraak	Spraakverstaanbaarheid		
2.	Audio: <ul style="list-style-type: none"> • Automatische reeksen (tellen + dagen) • SNAP-zinnen 	<ul style="list-style-type: none"> • Resonantie: hypernasaliteit + hyponasaliteit • Nasale luchtstroom: nasale emissie + nasale turbulentie 	Stem	Spraak-aanvaardbaarheid
3.	Video (inclusief audio): Utrechts Articulatie Onderzoek	Consonantproductie (CSCs)		+ Schisis-gerelateerde logopedische interventie?
4.	Video: <ul style="list-style-type: none"> • Automatische reeksen (tellen + dagen) • SNAP-zinnen 	Revisie resonantie en nasale luchtstroom	Nasale grimas	

De data werden grotendeels gecollecteerd door de onderzoeker van deze masterproef (T.P.). Teneinde de betrouwbaarheid van dit onderzoek te verhogen, werd de perceptuele beoordeling van de spraak door een externe persoon uitgevoerd. Een masterstudente in de logopedische wetenschappen (M.C.), die eveneens een onderzoek deed bij schisispatiënten in het kader van haar masterproef, trad op als blinde beoordelaar. Het feit dat de onderzoeker de spraakstalen reeds zelf collecteerde en bewerkte, zou er immers kunnen voor gezorgd hebben dat de onderzoeker vertrouwd raakte met de spraakstalen en zo de beoordeling ervan beïnvloed werd. De spraakstalen van de participanten werden via een hoofdtelefoon (Beats Solo 3) en in een willekeurige volgorde

aangeboden. In functie van het nagaan van de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid werd 25% van de spraakstalen door beide masterstudenten (M.C. en T.P.), weliswaar afzonderlijk, beluisterd en beoordeeld. Wanneer een goede interbeoordelaarsbetrouwbaarheid werd gevonden, werd de perceptuele spraakbeoordeling van de blinde beoordelaar (M.C.) gebruikt voor verdere statistische analyse. Daarnaast werd de intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid van de blinde beoordelaar nagegaan. Vijfentwintig procent van de spraakstalen werd 2 keer aan de blinde beoordelaar aangeboden.

Alvorens de masterstudenten met de spraakstalen daadwerkelijk aan de slag konden gaan, vond er een trainingsmoment plaats onder leiding van de promotor van deze masterproef en deskundige in het beoordelen van de spraak van schisispatiënten (K.B.). Tijdens deze training, van ongeveer 2 uren, werd er geoefend op het scoren van de verschillende spraakparameters volgens de richtlijnen van Bruneel et al. (2020). Verscheidene spraakstalen werden beoordeeld en vervolgens trachtte men tot een consensusevaluatie te komen. Dit trainingsmoment werd ingelast teneinde een vergelijkbare interne standaard bij beide beoordelaars (M.C. en T.P.) te verzekeren.

Hieronder wordt er per spraakparameter een gedetailleerde beschrijving gegeven van de datacollectie en -analyse.

Spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid

De spraakverstaanbaarheid werd geëvalueerd a.d.h.v. een spontaan spraakstaal. De onderzoeker voerde een spontaan gesprek met het kind (i.e. een gesprek over de vakantie, hobby's,...), wat opgenomen werd met een unidirectionele condensatormicrofoon (Samson C01U). Deze audio-opname werd afgespeeld en bewerkt d.m.v. Praat-software versie 6.1.16 (Boersma en Weenink, 2020). Uitingen van de conversatiepartner werden uit het spraakstaal gefilterd en het spraakstaal duurde ongeveer 1 minuut. Op basis van alle spraakstalen, zowel audio- als video-opnames, diende de beoordelaar een oordeel te vellen over de spraakaanvaardbaarheid, namelijk in welke mate de spraak van de participant afweek van de normale spraak. Voor het perceptueel beoordelen van de spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid werden de scoringsrichtlijnen van het CAPS-A-NL protocol van Bruneel et al. (2020) gehanteerd. Men maakte voor beide parameters gebruik van een ordinale schaal, waarbij de score kon variëren van 0 tot 3 volgens de graad van ernst. Tabel 2 omvat een referentiekader van de scoringsrichtlijnen voor het beoordelen van de spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid (Bruneel et al., 2020).

Resonantie en nasale luchtstroom

Voor het perceptueel beoordelen van de resonantie en de nasale luchtstroom, kreeg elke proefpersoon de instructie om te tellen van 1 tot 20 en de dagen van de week op te sommen (i.e. automatische reeksen). Daarnaast kregen ze de instructie om de zinnen van de *Simplified Nasometric Assessment Procedures (SNAP-) test* (MacKay & Kummer, 1994), meer bepaald de vertaalde en aangepaste versie te herhalen (van Lierde, De Bodt, van Borsel, Wuyts, & van Cauwenberge, 2002) (Appendix 5). Een ordinale schaal werd gebruikt om de graad van hypernasaliteit, hyponasaliteit, alsook nasale emissie en nasale turbulentie te beoordelen. Daarvoor werden eveneens de scoringsrichtlijnen van Bruneel et al. (2020) gehanteerd. Telkens werd eerst de audio-opname beluisterd, aangezien de videobeelden de beoordeling zouden kunnen beïnvloeden hebben. Vervolgens werden de resonantie en nasale luchtstroom een tweede keer beoordeeld a.d.h.v. de video-opname. De beoordelaar kreeg op die manier de mogelijkheid om de scores aan te passen. In tabel 2 wordt een overzicht van de scoringsrichtlijnen voor de resonantie en nasale luchtstroom weergegeven.

Articulatie

Voor het beoordelen van de articulatie werd gebruikgemaakt van het Utrechts Articulatie Onderzoek (Peddemors-Boon, Van Der Meulen, & De Vries, 1977). Daaruit werden een aantal woorden geselecteerd die de consonanten [p], [b], [t], [d], [k], [ɣ], [h], [s], [z], [f], [v], [w], [j], [l], [r], [n], [m] en [ŋ] en de clusters [st], [sp] en [ks] in alle mogelijke syllabeposities die voorkomen in het Nederlands (i.e. initiaal, mediaal en finaal) bevatten (Appendix 6). De proefpersonen moesten tijdens het articulatieonderzoek zwart-wit tekeningen benoemen. Indien de proefpersoon niet in staat was om de tekeningen spontaan te benoemen, gaf de onderzoeker een semantische cue (i.e. een aanvulzin). Wanneer het kind er nog steeds niet in sloeg om de tekening te benoemen, werd geopteerd voor het reserve-item (Appendix 6). Het articulatieonderzoek werd opgenomen, gebruikmakende van de JVC Camcorder GZ-R415WE. Vervolgens werden de doelklanken op gedetailleerde wijze getranscribeerd. Hierbij werd er gebruikgemaakt van symbolen uit het *International Phonetic Alphabet (IPA)* (Association & Staff, 1999). Voor de fonetische analyse werden de richtlijnen van Bruneel et al. (2020) gehanteerd. De fonetische stoornissen werden hierbij ingedeeld in vier categorieën: anterieur orale CSCs, posterieur orale CSCs, non-orale CSCs en passieve CSCs (Appendix 1). Vervolgens ging men per categorie het aantal gestoorde consonanten na, teneinde de ernst van de schisisgerelateerde articulatiestoornissen in kaart te brengen. Ten slotte werd in de fonologische analyse bij elke proefpersoon nagegaan of hij/zij al dan niet fonologische fouten (i.e. niet-schisisgerelateerde articulatiestoornissen) maakte. Tabel 2 geeft een overzicht van de richtlijnen voor het beoordelen van de articulatie.

Stem en nasale grimas

Tot slot dienden de stem en de aanwezigheid van nasale grimas beoordeeld te worden. De audio-opnames stelden de beoordelaar in staat om de stem te evalueren, meer bepaald of er al dan niet sprake was van een kenmerkende/afwijkende stemkwaliteit. De aanwezigheid van nasale grimas, in die mate dat deze de aandacht van de luisteraar trok, kon nagegaan worden a.d.h.v. de video-opnames. Bij elk van deze parameters werd er gebruikgemaakt van een ordinale schaal. Tabel 2 omvat een referentiekader van de scoringsrichtlijnen voor het beoordelen van de stem en nasale grimas (Bruneel et al., 2020).

Nood aan schisisgerelateerde logopedische interventie

Op basis van de evaluatie van de verschillende spraakparameters werd in een laatste fase door de beoordelaar een eindoordeel uitgebracht. Hierbij gaf de blinde beoordelaar aan of de proefpersonen al dan niet nood hadden aan schisisgerelateerde logopedische interventie.

Tabel 2: een overzicht van de beoordelingsschalen voor de perceptuele beoordeling van de spraakparameters volgens Bruneel et al. (2020).

Spraakparameter	Beoordelingsschaal
Spraakverstaanbaarheid	0 = binnen de norm 1 = mild; soms moeilijk verstaanbare spraak 2 = matig; vaak moeilijk verstaanbare spraak 3 = ernstig; meestal of altijd moeilijk verstaanbare spraak
Spraakaanvaardbaarheid	0 = binnen de norm 1 = mild; spraak wijkt in milde mate af van normale spraak 2 = matig; spraak wijkt in matige mate af van normale spraak 3 = ernstig; spraak wijkt in ernstige mate af van normale spraak
Hypernasaliteit	0 = afwezig; binnen de norm 1 = borderline/minimaal; enige verhoging nasale resonantie 2 = mild; hypernasaliteit bij gesloten vocalen 3 = matig; hypernasaliteit bij gesloten en open vocalen 4 = ernstig; hypernasaliteit bij vocalen en stemhebbende consonanten
Hyponasaliteit	0 = afwezig; binnen de norm 1 = mild aanwezig; nasale consonanten gedeeltelijk gedenasaleerd 2 = duidelijk aanwezig; nasale consonanten frequent gedenasaleerd
Nasale emissie	0 = afwezig 1 = zelden; nasale emissie bij <10% van de drukconsonanten 2 = frequent; nasale emissie bij >10% van de drukconsonanten
Nasale turbulentie	0 = afwezig 1 = zelden; nasale turbulentie bij <10% van de drukconsonanten 2 = frequent; nasale turbulentie bij >10% van de drukconsonanten

Anterieur orale CSCs; Posterieur orale CSCs; Non-orale CSCs; Passieve CSCs	0 = afwezig 1 = bij 1 of 2 consonanten 2 = bij 3 of meer consonanten
DSCs	0 = afwezig 1 = aanwezig
Stem	0 = geen afwijkende stemkwaliteit 1 = kenmerkende of afwijkende stemkwaliteit
Nasale grimas	0 = afwezig 1 = aanwezig; voldoende om de luisteraar af te leiden
Logopedische interventie	0 = neen; geen nood aan logopedische interventie 1 = ja; nood aan logopedische interventie

2.2. Instrumentele beoordeling van de spraak

Voor het beoordelen van de resonantie werd er bijkomend een instrumenteel onderzoek gedaan. Hiervoor werd de Kay Pentax Nasometer II (Model 6450) gehanteerd (Fletcher & Bishop, 1970). De proefpersonen kregen de instructie om de fonemen [a:], [i:], [u:] en [m] 3 keer aangehouden te foneren en een oronasale, orale en nasale tekst te lezen (Van de Weijer & Slis, 1991; Van Lierde, Wuyts, De Bodt, & Van Cauwenberge, 2003) (Appendix 7). Aan de proefpersonen werd gevraagd om de uitingen op een normaal intensiteits- en frequentieniveau te produceren, opdat deze factoren de verkregen informatie niet zouden beïnvloeden. Ter objectivering van de perceptuele beoordeling van de hypernasaliteit, werd de NSI 2.0 bepaald. Deze waarde werd berekend a.d.h.v. drie parameters waarvan twee bepaald werden m.b.v. de Nasometer, namelijk het nasaliteitspercentage van de klank [u:] en van de orale tekst (Bettens, Van Lierde, Corthals, Luyten, & Wuyts, 2016). De *voice low tone to high tone ratio* (VLHR) was de derde parameter nodig voor het bepalen van de NSI 2.0. De VLHR werd bepaald gebruikmakend van Praat-software, versie 6.1.16 (Boersma en Weenink, 2020). Elke proefpersoon kreeg de instructie om de [i:] gedurende 3 seconden aan te houden terwijl deze klank opgenomen werd met een microfoon (Samson C01U). Vervolgens werd er een stabiel geluidsfragment van 0,5 seconden geselecteerd uit het groter fragment (hamming window). Ten slotte werd hierop een beschikbaar Praat-script gerund (Bettens et al., 2016). Hoe negatiever de NSI 2.0-waarde, hoe meer hypernasaliteit er in de spraak aanwezig was.

3. Statistische analyse

Voor de statistische data-analyse werd SPSS Statistics software (versie 26.0) gebruikt. In eerste instantie werden de inter- en intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid bepaald. Bij ordinale spraakparameters werd, i.f.v. de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid, de intraclass correlatiecoëfficiënt (ICC) (two way random, absolute agreement) berekend. Tevens werd de ICC (two way mixed, absolute agreement) berekend om de intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid te controleren. In het geval van dichotome variabelen (bv. nasale grimas: 0 = afwezig; 1 = aanwezig) werd i.f.v. de intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid de Cohen's kappa coëfficiënt (κ) berekend. Ten slotte werden de ICC-waarden geïnterpreteerd volgens de richtlijnen van Cicchetti (1994). In een tweede fase werden de patiëntengroep en de controlegroep voor verscheidene variabelen met elkaar vergeleken. In het geval van categorische data, meer bepaald ordinale variabelen (i.e. spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid, resonantie en nasale luchtstroom, stem, CSCs, DSCs en nasale grimas), werd de Chi-kwadraattest (X^2) uitgevoerd indien aan de voorwaarden voldaan werd (i.e. de verwachte frequentie binnen elke cel was minimaal 1 en hoogstens 20% van de verwachte frequenties was kleiner dan 5). Indien niet aan deze voorwaarden voldaan werd, werd de Fisher's exact test uitgevoerd. In het geval van continue variabelen (i.e. nasaliteitspercentages en NSI 2.0-waarden) werd in eerste instantie de normaliteit, als voorwaarde, nagegaan. Hiervoor werd gebruikgemaakt van de Shapiro-Wilk test, QQ-plot en boxplot. Indien de verdeling normaal werd bevonden, werd de ongepaarde students t-test uitgevoerd voor het nagaan van een eventueel significant verschil tussen de patiëntengroep en de controlegroep. In het geval van een niet-normale verdeling werd de niet-parametrische variant, de Mann-Whitney U test, uitgevoerd. Voor het interpreteren van de statistische resultaten werd als significantieniveau $\alpha \leq 0.05$ vooropgesteld.

Resultaten

1. Medische informatie

De patiëntengroep bestond uit 8 kinderen, waarvan er 4 geboren werden met een unilaterale lip- en verhemeltespleet (UCLP) en 4 met een geïsoleerde palatoschisis (CP). Bij de kinderen met een UCLP werd de lip gesloten op de gemiddelde leeftijd van 3 maanden (SD 1,3; range 2 – 5 maanden). Bij 3 van de 4 UCLP-patiënten werd gelijktijdig met de lipplastie een vomerflap gebruikt om de nasale laag van het verhemelte te sluiten. Teneinde de verhemeltespleet te sluiten, onderging de volledige patiëntengroep een primaire palatale sluiting volgens Sommerlad op de gemiddelde leeftijd van 12 maanden (SD 2,9; range 9 – 16 maanden). Eén patiënt (12%) kreeg een revisie palatoplastiek (i.e. secundaire chirurgie) op de leeftijd van 1,10 jaar en 2,3 jaar. Additionele operaties (i.e. revisie lipplastiek, fistel repair en/of frenulotomie) vonden plaats bij 2 patiënten (25%). Voor wat de anatomie van het verhemelte betreft, hadden 2 kinderen (25%) een palatale fistel op het moment van onderzoek. Bij het ene kind werd deze gelokaliseerd t.h.v. het harde verhemelte en bij het andere kind t.h.v. het middendeel van het verhemelte. Er werd bij deze kinderen tevens een kort verhemelte vastgesteld. Hoewel er bij sommige kinderen in het verleden sprake was van nasale regurgitatie, was dit op het moment van onderzoek bij iedereen verdwenen. Vier van de 8 patiënten (50%) volgden (n=1) of hadden reeds (n=3) schisisgerelateerde logopedische therapie gevolgd. Twee kinderen volgden dit (reeds) gedurende 5 jaar, voor de andere 2 kinderen was de therapieduur onbekend. Voor slechts twee kinderen was er informatie beschikbaar over de frequentie en inhoud van de logopedische interventie. Het ene kind kreeg aanvankelijk 2 keer 30 minuten per week logopedische interventie, waarna de therapiefrequentie afgebouwd werd. Dit kind kreeg op het moment van onderzoek 30 minuten per week articulatietherapie volgens Van Riper, teneinde de compensatoire articulatiestoornissen te behandelen. Het andere kind kreeg 2 keer 30 minuten per week logopedische therapie, met als doel de hypernasaliteit te verminderen en de compensatoire en obligatoire articulatiestoornissen te verhelpen. Daarnaast kreeg 1 kind als kleuter logopedische therapie, echter niet in het kader van een schisisgerelateerde problematiek. Het kind volgde logopedische therapie omwille van stotteren. Dit werd reeds op kleuterleeftijd succesvol afgerond. Voor wat de controlegroep betreft, in deze groep had geen enkel kind nasale en/of laryngale pathologieën of een voorgeschiedenis hiervan. Tevens was er geen enkele controleproefpersoon die op het moment van onderzoek logopedische therapie kreeg of een voorgeschiedenis van logopedische therapie had in het kader van spraak- en/of taalstoornissen. Een overzicht van de medische informatie voor de patiëntengroep is weergegeven in tabel 3.

Tabel 3: een overzicht van de medische informatie voor de patiëntengroep.

	Schisistype	Leeftijd lipplastiek in maanden (techniek)	Leeftijd palatoplastie (in maanden)	Secundaire chirurgie (leeftijd)	Additionele chirurgie (leeftijd)	Anatomie verhemelte	Schisis-gerelateerde logopedische interventie (duur; frequentie)
1	UCLP ¹	2 (Millard)	16	-	Revisie lipplastiek (7 maanden)/ fistel repair (10,1 jaar)	-	Ja (5 jaar; n.g ¹ .)
2	UCLP ¹	3	15	Revisie palatoplastie (1,10 jaar)/ Re-repair palatoplastie (2,3 jaar)	-	Fistel t.h.v. harde verhemelte + kort verhemelte	Ja (n.g ¹ .; n.g. ¹)
3	CP ¹	-	9	-	-	-	Neen
4	UCLP ¹	5 (Millard)	12	-	-	-	Ja (5 jaar; 30 min/week)
5	CP ¹	-	9	-	-	-	Ja (n.g. ¹ ; 2x30 min/week))
6	UCLP ¹	3 (Millard)	15	-	-	-	Neen
7	CP ¹	-	9	-	Frenulotomie (19 dagen)	Fistel t.h.v. middendeel verhemelte + kort verhemelte	Neen
8	CP ¹	-	12	-	-	-	Neen

¹Afkortingen: UCLP, unilateral cleft lip and palate (i.e. unilaterale lip- en verhemeltespleet), CP, cleft palate (i.e. geïsoleerde verhemeltespleet), n.g., niet gekend

2. Perceptuele beoordeling van de spraakparameters

2.1. Onderzoeksresultaten betrouwbaarheid

De resultaten voor de inter- en intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid worden weergegeven in tabel 4 en 5. Uit de interpretatie volgens Cicchetti (1994) bleek dat er voor de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid louter uitstekende ICC-waarden ($> 0,75$) werden gevonden voor alle spraakparameters. Tevens werden er alleen uitstekende waarden gevonden voor de intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid van de blinde beoordelaar.

Tabel 4: resultaten van de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid voor de verschillende spraakparameters

Spraakparameter	ICC ^{1,3}	95% BI ¹
Spraakverstaanbaarheid ²	0,950	0,703 – 0,993
Spraakaanvaardbaarheid ²	0,946	0,678 – 0,992
Hypernasaliteit ²	0,921	0,372 – 0,989
Hyponasaliteit ²	N.U. ^{1,4}	N.U. ^{1,4}
Nasale emissie ²	1,00	-
Nasale turbulentie ²	1,00	-
Anterieur orale CSCs ^{1,2}	0,935	0,611 – 0,991
Posterieur orale CSCs ^{1,2}	N.U. ^{1,4}	N.U. ^{1,4}
Non-orale CSCs ^{1,2}	N.U. ^{1,4}	N.U. ^{1,4}
Passieve CSCs ^{1,2}	1,00	-
DSCs ^{1,2}	N.U. ^{1,4}	N.U. ^{1,4}
Stem ²	N.U. ^{1,4}	N.U. ^{1,4}
Nasale grimas ²	0,762	-0,440 – 0,966
Logopedische interventie ²	1,00	-

¹ Afkortingen: ICC, intraclass correlatiecoëfficiënt; BI, betrouwbaarheidsinterval; CSCs, cleft speech characteristics; DSCs, developmental speech characteristics, N.U., niet uitvoerbaar

² Ordinale parameters: 2-way random ICC, absolute agreement, average measures

³ Interpretatie volgens Cicchetti (1994): $<0,40$ onaanvaardbaar; $0,40 - 0,59$ aanvaardbaar; $0,60 - 0,74$ goed; $0,75 - 1,00$ uitstekend.

⁴ Niet mogelijk om de ICC te berekenen door nulvariantie of negatieve variantie.

Tabel 5: resultaten van de intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid voor de verschillende spraakparameters.

Spraakparameter	ICC ¹ /k
Spraakverstaanbaarheid ²	1,00
Spraakaanvaardbaarheid ²	1,00
Hypernasaliteit ²	1,00
Hyponasaliteit ²	N.U. ^{1,4}
Nasale emissie ²	N.U. ^{1,4}
Nasale turbulentie ²	N.U. ^{1,4}
Anterieur orale CSCs ^{1,2}	1,00
Posterieur orale CSCs ^{1,2}	N.U. ^{1,4}
Non-orale CSCs ^{1,2}	N.U. ^{1,4}
Passieve CSCs ^{1,2}	0,80
DSCs ^{1,2}	N.U. ^{1,4}
Stem ²	1,00
Nasale grimas ²	1,00
Logopedische interventie ²	1,00

¹ Afkortingen: ICC, intraclass correlatiecoëfficiënt; CSCs, cleft speech characteristics; DSCs, developmental speech characteristics, N.U., niet uitvoerbaar

² Ordinale parameters: 2-way mixed ICC, absolute agreement, single measures

³ Interpretatie volgens Cicchetti (1994): <0,40 onaanvaardbaar; 0,40-0,59 aanvaardbaar; 0,60-0,74 goed; 0,75-1,00 uitstekend.

⁴ Niet mogelijk om de ICC/k te berekenen door nulvariantie of negatieve variantie.

2.2. Onderzoeksresultaten categorische spraakvariabelen

Tabel 6 geeft een overzicht weer van de spraakparameters na verzameling en analyse van de spraakstalen. De data voor de patiëntengroep en controlegroep worden afzonderlijk weergegeven evenals de resultaten van de vergelijking tussen beide groepen.

Tabel 6: resultaten van de perceptuele spraakbeoordeling voor de patiëntengroep (n=8) en controlegroep (n=16) en de resultaten van de Fisher's exact test.

Spraakparameter en schaal	Patiëntengroep	Controlegroep	X ²	p
	Absolute waarden (%)			
Spraakverstaanbaarheid binnen de norm mild matig ernstig	4 (50) 1 (12) 2 (25) 1 (12)	16 (100) 0 (0) 0 (0) 0 (0)	9,600	0,007*
Spraakaanvaardbaarheid binnen de norm mild matig ernstig	2 (25) 3 (38) 3 (38) 0 (0)	15 (94) 1 (6) 0 (0) 0 (0)	12,684	0,001*
Hypernasaliteit afwezig borderline mild matig ernstig	2 (25) 1 (12) 4 (50) 1 (12) 0 (0)	16 (100) 0 (0) 0 (0) 0 (0) 0 (0)	16,000	<0,001*
Hyponasaliteit afwezig mild matig ernstig	8 (100) 0 (0) 0 (0) 0 (0)	16 (100) 0 (0) 0 (0) 0 (0)	N.U. ¹	N.U. ¹
Nasale emissie afwezig zelden frequent	6 (75) 2 (25) 0 (0)	16 (100) 0 (0) 0 (0)	4,364	0,101
Nasale turbulentie afwezig zelden frequent	6 (75) 1 (12) 1 (12)	16 (100) 0 (0) 0 (0)	4,364	0,101
Anterieur orale CSCs¹ afwezig 1 of 2 consonanten 3 of meer consonanten	1 (12) 1 (12) 6 (75)	1 (6) 6 (38) 9 (56)	1,693	0,413
Posterieur orale CSCs¹ afwezig 1 of 2 consonanten 3 of meer consonanten	8 (100) 0 (0) 0 (0)	16 (100) 0 (0) 0 (0)	N.U. ¹	N.U. ¹
Non-orale CSCs¹ afwezig 1 of 2 consonanten 3 of meer consonanten	8 (100) 0 (0) 0 (0)	16 (100) 0 (0) 0 (0)	N.U. ¹	N.U. ¹
Passieve CSCs¹ afwezig 1 of 2 consonanten 3 of meer consonanten	3 (38) 4 (50) 1 (12)	15 (94) 1 (6) 0 (0)	9,150	0,007*
DSCs¹ afwezig aanwezig	0 (0) 8 (100)	0 (0) 16 (100)	N.U. ¹	N.U. ¹

Stem geen afwijking afwijkend	5 (62) 3 (38)	13 (81) 3 (19)	1,000	0,362
Nasale grimas afwezig aanwezig	3 (38) 5 (62)	16 (100) 0 (0)	12,632	0,001*
Nood aan schisisgerelateerde logopedische interventie neen ja	3 (38) 5 (62)	16 (100) 0 (0)	12,632	0,001*

¹Afkortingen: CSCs, cleft speech characteristics, DSCs, developmental speech characteristics, N.U., niet uitvoerbaar

* Statistische significantie, $p \leq 0,05$

Spraakverstaanbaarheid- en aanvaardbaarheid

Er werd een statistisch significant verschil gevonden tussen de patiëntengroep en de controlegroep voor de spraakverstaanbaarheid (Fisher exact test, $X^2 = 9,600$, $p = 0,007$) en de spraakaanvaardbaarheid (Fisher exact test, $X^2 = 12,684$, $p = 0,001$). De helft van de patiëntengroep (4/8) werd beoordeeld als normaal verstaanbaar. De volledige controlegroep kreeg de score 'binnen de norm'. Bij 25% (2/8) van de patiënten en 94% (15/16) van de controleproefpersonen was de spraak normaal aanvaardbaar.

Resonantie en nasale luchtstroom

Een statistisch significant verschil werd gevonden tussen de patiëntengroep en de controlegroep voor de hypernasaliteit (Fisher exact test, $X^2 = 16,000$, $p < 0,001$). Hypernasaliteit werd als afwezig beschouwd bij alle controleproefpersonen. De perceptuele beoordeling van de hypernasaliteit bij de patiënten was eerder gevarieerd: 25% afwezig (2/8), 12% borderline (1/8), 50% mild (4/8) en 12% matig (1/8). Een ernstige hypernasaliteit werd niet weerhouden. Hyponasaliteit werd noch bij de patiëntengroep noch bij de controlegroep vastgesteld. Voor wat de nasale luchtstroom betreft, werden er geen statistisch significante verschillen gevonden tussen de patiënten en de controles, zowel voor nasale emissie (Fisher exact test, $X^2 = 4,364$, $p = 0,101$) als voor nasale turbulentie (Fisher exact test, $X^2 = 4,364$, $p = 0,101$). Bij 2 patiënten (25%) werd er zelden nasale emissie gedetecteerd en bij 1 patiënt (12%) zelden nasale turbulentie. Frequentie aanwezigheid van nasale turbulentie werd bij 1 patiënt (12%) geobserveerd.

Articulatie

Anterieur orale CSCs waren afwezig bij 1 patiënt (12%) en 1 controleproefpersoon (6%). Tussen beide groepen werd er geen statistisch significant verschil gevonden voor dit type CSCs (Fisher exact test, $X^2 = 1,693$, $p = 0,413$). Zowel posterieur orale CSCs als non-orale CSCs werden bij geen enkele participant gedetecteerd. Voor de passieve CSCs werd er wel een statistisch significant verschil (Fisher exact test, $X^2 = 9,150$, $p = 0,007$) gevonden tussen de patiëntengroep en de controlegroep. Bij 1 controleproefpersoon (6%) was er bij minstens 1 consonant sprake van een passieve articulatiestoornis. Bij de schisispatiënten daarentegen werd dit gedetecteerd bij 62% (5/8). Alle kinderen, zowel uit de patiëntengroep als uit de controlegroep, vertoonden in hun spraak DSCs (i.e. niet-schisisgerelateerde articulatiestoornissen). Tabel 7 geeft een overzicht van de schisisgerelateerde en niet-schisisgerelateerde articulatiestoornissen die voorkwamen bij de patiëntengroep en de controlegroep.

Tabel 7: overzicht van de schisisgerelateerde en niet-schisisgerelateerde articulatiestoornissen voor de patiëntengroep (n=8) en de controlegroep (n=16).

	Patiëntengroep	Controlegroep
	Absolute waarden (%)	
<i>Schisisgerelateerde articulatiestoornissen</i>		
Anterieur orale CSCs¹		
Dentalisatie (addentaliteit/interdentaliteit)	7 (88)	15 (94)
Lateralisatie	2 (25)	1 (6)
Palatalisatie	1 (12)	0 (0)
Passieve CSCs¹		
Zwakke/genasaliseerde consonanten	5 (62)	1 (6)
<i>Niet-schisisgerelateerde articulatiestoornissen (DSCs¹)</i>		
Rotacisme non vibrans	8 (100)	9 (56)
Gliding	2 (25)	0 (0)
Addentaliteit/interdentaliteit	8 (100)	14 (88)
Foneemsubstitutie	1 (12)	1 (6)
<i>Algemene opmerkingen bij observatie</i>		
Dialectinvloed	1 (12)	7 (44)
Geringe verticaliteit	1 (12)	5 (31)

¹Afkortingen: CSCs, cleft speech characteristics, DSCs, developmental speech characteristics.

Stem en nasale grimas

De stemkwaliteit van 3 patiënten (38%) en 3 controleproefpersonen (19%) werd perceptueel beoordeeld als kenmerkend of afwijkend. Er was geen statistisch significant verschil (Fisher exact test, $X^2 = 1,000$, $p = 0,362$) tussen de patiëntengroep en de controlegroep voor wat de stem betreft. Echter werd er tussen beide groepen een statistisch significant verschil (Fisher exact test, $X^2 = 12,632$, $p = 0,001$) gevonden, meer bepaald voor de aanwezigheid van nasale grimas. Vijf patiënten (62%) vertoonden tijdens het spreken voldoende nasale grimas om de luisteraar af te leiden. Bij de controlegroep werd dit niet gedetecteerd.

Nood aan schisisgerelateerde logopedische interventie

Volgens de blinde beoordelaar had 62% van de patiënten (5/8), op basis van de evaluatie van de hierboven besproken spraakparameters, nood aan schisisgerelateerde logopedische interventie. Deze kinderen zouden nood hebben aan logopedische therapie, meer bepaald in het kader van articulatie- en/of resonantiestoornissen. Bij de controlegroep werd bij geen enkele proefpersoon 'nood aan schisisgerelateerde logopedische interventie' geïdentificeerd. Bijgevolg was er sprake van een statistisch significant verschil (Fisher exact test, $X^2 = 12,632$, $p = 0,001$) tussen beide groepen. Echter hadden volgens de blinde beoordelaar 11 controleproefpersonen (69%) nood aan niet-schisisgerelateerde logopedische interventie. Bij deze kinderen zou logopedische therapie kunnen ingesteld worden, teneinde niet-schisisgerelateerde articulatiestoornissen te behandelen zoals geringe verticaliteit (n=1), dentalisatie (n=10), lateralisatie (n=1) en/of rotacisme non vibrans (n=1).

3. Instrumentele beoordeling van de resonantie

Tabel 8 geeft een overzicht van de nasaliteitspercentages op foneem- en tekstniveau verkregen a.d.h.v. Nasometrie en de NSI 2.0-waarden. De waarden worden voor de patiëntengroep en de controlegroep afzonderlijk weergegeven, evenals de vergelijking tussen beide groepen.

Tabel 8: beschrijvende statistiek (mediaan, kwartielen en range) van de instrumentele beoordeling van de resonantie voor de patiëntengroep (n=8) en controlegroep (n=16) en de resultaten van de Mann-Whitney U test.

	Patiëntengroep				Controlegroep					
	Med.	Q1	Q3	Range	Med.	Q1	Q3	Range	U	p
Nasometrie fonemen										
[u:]	57,00	47,00	63,00	37-73	16,50	15,00	21,75	6-24	112,00	<0,001*
[i:]	72,00	52,00	84,00	41-88	25,50	18,50	34,50	13-43	110,50	<0,001*
[a:]	26,00	22,00	31,00	19-35	9,50	7,25	17,75	4-25	106,00	0,001*
[m]	94,00	94,00	96,00	87-97	94,50	94,00	95,00	85-96	58,50	0,863
Nasometrie teksten										
oronasaal	45,50	42,50	57,25	35-63	33,00	28,25	34,00	25-38	125,50	<0,001*
oraal	34,50	30,00	48,25	24-52	13,00	10,25	15,00	8-20	128,00	<0,001*
nasaal	62,00	56,25	66,25	51-70	55,00	49,25	56,75	44-60	107,00	0,008*
NSI 2.0	-4,97	-10,95	-4,11	(-12,53)- (-1,25)	+3,24	+2,09	+3,84	(+1,35)- (+6,81)	0,00	<0,001*

* Statistische significantie, $p \leq 0,05$

Er was sprake van een statistisch significant verschil tussen de patiëntengroep en de controlegroep voor de nasaliteitspercentages op foneem- en tekstniveau, behalve voor het foneem [m] ($U = 58,50$, $p = 0,863$). Tevens werd er een statistisch significant verschil gevonden voor de NSI 2.0-waarden ($U = 0,00$, $p < 0,001$). De mediaan van de NSI 2.0 bedroeg -4,97 voor de patiëntengroep en +3,24 voor de controlegroep.

Discussie

Het doel van deze studie bestond erin na te gaan in welke mate de spraakkenmerken van kinderen die geboren werden met een geïsoleerde schisis en eentijdige palatale sluiting ondergingen op de gemiddelde leeftijd van 12 maanden, verschilden van de spraakkenmerken van kinderen die geboren werden zonder schisis op de gemiddelde leeftijd van 9 jaar. De spraak van 8 kinderen met schisis werd beschreven a.d.h.v. verschillende spraakparameters: spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid, articulatie, alsook resonantie en nasale luchtstroom. Tevens werd in deze studie een controlegroep geïmplementeerd, waarvan de spraakparameters eveneens werden beschreven en vervolgens vergeleken werden met deze van de patiëntengroep. De parameters spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid waren significant beter in de controlegroep. Daarnaast waren de parameters hypernasaliteit, passieve CSCs en nasale grimas significant meer aanwezig in de patiëntengroep dan in de controlegroep. Daarentegen verschilden de aanwezigheid van nasale luchtstroom, anterieur orale CSCs en stem niet significant tussen beide groepen. De afwezigheid van compensatoire articulatie onder de vorm van posterieur orale CSCs en non-orale CSCs was een opvallende bevinding. Opmerkelijk was ook de grote hoeveelheid anterieur orale CSCs en DSCs en de hoge graad van afwijkende stemkwaliteit die geïdentificeerd werden bij de patiënten en de controleproefpersonen. Ten slotte werden nasale grimassen bij opvallend veel patiënten gedetecteerd.

Dit was de eerste Belgische studie die de invloed van eentijdige palatale sluiting op de spraak van kinderen met schisis op de gemiddelde leeftijd van 9 jaar onderzocht. Eerder werd dit onderzoek uitgevoerd in andere landen (Bettens et al., 2020; Nyberg et al., 2014; Pulkkinen et al., 2001). Op basis van deze literatuur werd een cross-linguïstische vergelijking gemaakt, om na te gaan of de spraak van de Belgische kinderen met schisis op de gemiddelde leeftijd van 9 jaar verschilde van de spraak van de kinderen uit andere landen.

In de huidige studie werd bij 50% van de patiënten de spraak als normaal verstaanbaar beschouwd en bij 25% als normaal aanvaardbaar. Bettens et al. (2020) toonden gelijkaardige resultaten. Daarentegen werd in het onderzoek van Nyberg et al. (2014) de spraak bij beduidend meer kinderen (89%) als normaal verstaanbaar/aanvaardbaar beschouwd. Uit de vergelijking van de patiëntengroep en de controlegroep van de huidige studie bleek dat de spraak van de controleproefpersonen significant beter verstaanbaar en aanvaardbaar was dan de spraak van de patiënten. Dit kwam overeen met de bevindingen van Bettens et al. (2020), waarin de spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid eveneens significant beter werden beoordeeld bij de controleproefpersonen.

Bij 75% van de Belgische patiënten werd de spraak als hypernasaal beschouwd. Dit was in contrast met de buitenlandse studies die mindere hoge percentages vonden voor de graad van hypernasaliteit (< 5% Nyberg et al., 2014; 29% Pulkkinen et al., 2001; 30% Bettens et al., 2020). Voor wat betreft de nasale luchtstroom

werd bij 25% van de kinderen met schisis die deelnamen aan de huidige studie nasale emissie gedetecteerd en ook bij 25% nasale turbulentie. De studies waarmee vergeleken werd, toonden gelijkaardige resultaten. Uitgezonderd Bettens et al. (2020) stelden meer nasale turbulentie en minder nasale emissie vast. Uit de vergelijking tussen de controlegroep en de patiëntengroep van de huidige studie bleek er een statistisch significant verschil te zijn voor de graad van hypernasaliteit. Dit kon bevestigd worden door instrumenteel onderzoek. De patiëntengroep behaalde significant hogere nasometrische waarden, uitgezonderd voor het foneem [m], en lagere NSI 2.0-waarden. Deze bevinding strookte met de resultaten van Bettens et al. (2020). Daarentegen werd er in de huidige studie geen statistisch significant verschil gevonden voor de nasale luchtstroom. Bettens et al. (2020) vonden eveneens geen significant verschil voor de nasale emissie, maar wel voor de nasale turbulentie.

Voor de schisisgerelateerde articulatiestoornissen werd in de huidige studie, net zoals bij Bruneel et al. (2020), een onderscheid gemaakt tussen actieve of compensatoire articulatiestoornissen en passieve of obligatoire articulatiestoornissen. De actieve articulatiestoornissen werden nog verder opgedeeld in 3 categorieën (anterieur orale CSCs, posterieur orale CSCs en non-orale CSCs). Bij 87% van de patiënten uit de huidige studie was er bij minstens 1 consonant sprake van anterieur orale CSCs. Ook in de studie van Bettens et al. (2020) werden anterieur orale CSCs bij de meerderheid van de patiënten vastgesteld. Daarnaast vond men in de huidige studie bij 62% van de kinderen met schisis passieve CSCs. Dit in tegenstelling tot de andere studies waarin passieve articulatiestoornissen minder frequent voorkwamen (<5% Nyberg et al., 2014; 1,5% Pulkkinen et al., 2001). Bettens et al. (2020) daarentegen vonden vergelijkbare resultaten. Noch posterieur orale CSCs, noch non-orale CSCs werden gedetecteerd bij de patiëntengroep uit de huidige studie. Pulkkinen et al. (2001) vonden tevens geen compensatoire articulatiestoornissen, hetgeen wel kon gedetecteerd worden bij Bettens et al. (2020) en Nyberg et al. (2014). In de huidige studie kwamen passieve CSCs significant meer voor in de patiëntengroep. Voor de anterieur orale CSCs werd er geen significant verschil gevonden tussen beide groepen. Echter vonden Bettens et al. (2020) ook voor de anterieur orale CSCs een statistisch significant verschil.

In België werd dit onderzoek reeds uitgevoerd bij 5-jarige kinderen met schisis (Bruneel et al., 2018). De onderzoeksresultaten van de huidige studie werden vergeleken met deze van Bruneel et al. (2018), om na te gaan of de spraak van de kinderen met schisis stabiliseerde op de leeftijd van 5 jaar of er alsnog een verdere evolutie was tegen de leeftijd van 9 jaar. Uit de vergelijking van beide studies bleek dat de spraakverstaanbaarheid en spraakaanvaardbaarheid stagneerden op de leeftijd van 5 jaar. Ook de resonantie evolueerde niet, met een opmerkelijk hoge graad van hypernasaliteit (75%). In vergelijking met andere studies die de spraakuitkomst nagingen bij 5-jarige kinderen met schisis (19 – 22% Nyberg et al., 2014; 10% Sell et al., 2015), nam de graad van hypernasaliteit zelfs toe. Daarnaast stagneerde ook de aanwezigheid van nasale turbulentie, hoewel de aanwezigheid van nasale emissie verbeterde tegen de leeftijd van 9 jaar. Passieve CSCs waren in de huidige studie beduidend meer aanwezig dan in de studie

van Bruneel et al. (2018). Ten slotte kon men geen compensatoire articulatie, onder de vorm van posterieur orale CSCs en non-orale CSCs, detecteren bij de patiënten van de huidige studie. In vergelijking met andere studies die de spraak bij 5-jarige kinderen met schisis nagingen (Nyberg et al., 2014; Sell et al., 2015; Willadsen et al., 2017) was er een positieve evolutie van de compensatoire articulatie. In deze studies konden er nog compensatoire articulatiestoornissen (posterieur orale CSCs en non-orale CSCs) gedetecteerd worden op de gemiddelde leeftijd van 5 jaar, hetgeen niet meer gedetecteerd kon worden op de leeftijd van 9 jaar.

Op basis van deze vergelijking met Bruneel et al. (2018) kon vermoed worden dat er een positieve evolutie was van de nasale emissie en de compensatoire articulatie tegen de leeftijd van 9 jaar. Daarentegen stagneerden de resonantie, nasale turbulentie, spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid op de leeftijd van 5 jaar en was er een achteruitgang van de passieve articulatiestoornissen. Deze laatste bevindingen waren tegen de verwachtingen in, aangezien de spraak nog verder ontwikkelt tegen de leeftijd van 9 jaar (Gangji et al., 2015) en heel wat kinderen logopedische therapie kregen tussen de leeftijd van 5 en 9 jaar. Echter dienen deze conclusies voorzichtig geïnterpreteerd te worden, aangezien de resultaten van beide studies niet statistisch vergeleken werden en het hier om een cross-sectionele vergelijking gaat. Dit in tegenstelling tot longitudinaal onderzoek zoals Nyberg et al. (2014) en Pulkkinen et al. (2001) deden, waarbij spraakanalyses bij eenzelfde groep van kinderen op achtereenvolgende tijdstippen herhaald werden. Cross-sectioneel onderzoek is niet evenwaardig aan longitudinaal onderzoek (Rindfleisch, Malter, Ganesan, & Moorman, 2008). De grote hoeveelheid aan beïnvloedende factoren (o.a. in- en exclusiecriteria (bv. schisistype), heterogeniteit en steekproefgrootte) bij cross-sectioneel onderzoek mag niet onderschat worden. De vergelijking van de onderzoeksresultaten van de huidige studie met deze van Bruneel et al. (2018) kan een idee geven over de evolutie van de spraak van kinderen met schisis, maar laat niet toe om sterke conclusies te trekken over de spraakevolutie zoals Nyberg et al. (2014) en Pulkkinen et al. (2001) dat deden. Verder onderzoek is bijgevolg aangewezen.

Beïnvloedende factoren

De vergelijking van de huidige studie met de studies die eveneens de spraakuitkomst na eentijdige palatale sluiting bij kinderen met schisis op de gemiddelde leeftijd van 9 jaar nagingen, resulteerde niet in eenduidige bevindingen. Behalve voor de resonantie kon men concluderen dat er in de huidige studie een hogere graad van hypernasaliteit was dan in de andere studies. Voor de articulatie, nasale luchtstroom, spraakverstaanbaarheid en spraakaanvaardbaarheid daarentegen werden tegenstrijdige resultaten gevonden. Tal van beïnvloedende factoren kunnen een mogelijke verklaring bieden voor deze tegenstrijdige resultaten.

Een eerste beïnvloedende factor is het verschil in tijdstip waarop de eentijdige palatale sluiting werd uitgevoerd. Dit tijdstip varieerde van een gemiddelde leeftijd van 2,5 maanden (SD 1,38, range 0 – 6

maanden) in de studie van Bettens et al. (2020) over een gemiddelde leeftijd van 12 (SD 2,9; range 9 – 16 maanden) (huidige studie) - 13 maanden (Nyberg et al., 2014) tot een leeftijd tussen 1 en 2 jaar (Pulkkinen et al., 2001). Dit verschil in tijdstip was een mogelijke verklaring voor het verschil in spraakuitkomst tussen de studies. Desondanks is er binnen de literatuur geen eenduidigheid omtrent het tijdstip waarop een verhemeltespleet idealiter gesloten wordt.

Nyberg et al. (2014) was de enige studie die, net zoals in de huidige studie, kinderen met schisis includeerde die primaire palatale sluiting ondergingen tegen het einde van het eerste levensjaar en bovendien de invloed daarvan op de spraak naging. Desalniettemin vonden Nyberg et al. (2014) beduidend betere waarden voor de hypernasaliteit, spraakverstaanbaarheid en passieve articulatiestoornissen in tegenstelling tot de huidige studie. De graad van hypernasaliteit was in de studie van Nyberg et al. (2014) lager dan in de huidige studie. Vermoedelijk kon dit verklaard worden door de grote hoeveelheid kinderen met velofaryngale insufficiëntie (VFI) die reeds voor het spraakonderzoek op de gemiddelde leeftijd van 10,5 jaar een velofaryngale flap kregen (Nyberg et al., 2014). Drieënveertig procent van de participanten onderging velofaryngoplastie voor de leeftijd van 10 jaar om de gevolgen van VFI te verhelpen. Bijgevolg was er in de studie van Nyberg et al. (2014) bij 7% sprake van VFI op het moment van onderzoek op de leeftijd van 10 jaar. Dit was een mogelijke verklaring voor de significante verbetering van de hypernasaliteit tegen de leeftijd van 10,5 jaar en indirect ook een significante verbetering van de passieve articulatiestoornissen en de spraakverstaanbaarheid. Dit kwam overeen met de bevindingen van Haapanen et al. (1992) die eveneens vaststelden dat een velofaryngale flap een positief effect had op de graad van hypernasaliteit. Van de kinderen die deelnamen aan de huidige studie kreeg geen enkel kind een velofaryngale flap of een andere vorm van spraakverbeterende chirurgie voor het spraakonderzoek. In de praktijk is men vandaag de dag voorzichtig bij het informeren van de patiënt en de ouders over velofaryngale chirurgie en maakt men een afweging tussen de voor- en nadelen van dit type chirurgie. Velofaryngale flaps kunnen immers nadelen teweegbrengen zoals mondademhaling, snurken, slaapapneu en hyponasaliteit (Riski, 2011). Ook bij andere types van spraakverbeterende (secundaire) chirurgie maakt men deze afweging. Wanneer de resonantiestoornissen geen probleem vormen voor het kind en/of de ouders of geen impact hebben op de maatschappelijke participatie, zal men de noodzaak van secundaire chirurgie minder benadrukken (Nyberg et al., 2014). Dit kan een verklarende factor zijn voor het feit dat spraakverbeterende chirurgie minder wordt uitgevoerd bij kinderen met schisis.

Daarnaast was de afwezigheid van posterieur orale CSCs en non-orale CSCs in de huidige studie opmerkelijk. Mogelijks was dit een gevolg van postoperatieve spraaktherapie. De helft van de kinderen met schisis (4/8) uit de huidige studie kreeg postoperatief spraaktherapie, waar er geoefend werd op dit type articulatiefouten. Alighieri et al. (2019) en Sell et al. (2017) vonden eveneens een positief resultaat van (intensieve) logopedische therapie op de spraak van kinderen met schisis, meer bepaald op de articulatie. Ondanks dit vermoeden is er nog geen zekerheid omtrent de invloed van (intensieve) postoperatieve

logopedische interventie op de spraak van kinderen met schisis en is er volgens Bessell et al. (2013) nog steeds nood aan verder onderzoek.

Ook de grote hoeveelheid anterieure CSCs was opvallend. Interdentaliteit en addentaliteit werden zowel in de patiëntengroep als in de controlegroep frequent geïdentificeerd. Ook Bettens et al. (2020) kwamen bij de Oegandese kinderen tot dezelfde bevinding. Volgens hen zou dit vermoedelijk kunnen verklaard worden door een beperking in de midfaciale groei, wat vaak voorkomt bij kinderen met een gespleten verhemelte. Desondanks bood dit geen verklaring voor de controlegroep, waarbij de apico-alveolaire consonanten eveneens frequent addentaal of interdentaal geproduceerd werden.

In de huidige studie werden opvallend veel nasale grimassen, niet-schisisgerelateerde articulatiestoornissen en een hoge graad van afwijkende stemkwaliteit gedetecteerd. Nasale grimassen werden beduidend veel geobserveerd door de blinde beoordelaar en kwamen significant meer voor in de patiëntengroep. Vijf van de 8 kinderen met schisis kregen een score 'aanwezig' voor nasale grimas. Dit was in contrast met andere studies (Bettens et al., 2020; Bruneel et al., 2018). Tevens werden afwijkende stemkwaliteit en niet-schisisgerelateerde articulatiestoornissen frequent als 'aanwezig' beoordeeld, zowel bij de patiënten als bij de controleproefpersonen. De stem werd vaker als afwijkend beoordeeld (38% patiëntengroep; 19% controlegroep), in tegenstelling tot de beoordelaars uit het onderzoek van Bettens et al. (2020) dat deden. Daarnaast werden bij alle kinderen niet-schisisgerelateerde articulatiestoornissen gedetecteerd, zowel fonetische stoornissen (interdentaliteit/addentaliteit en rotacisme non vibrans) als fonologische stoornissen (gliding en foneemsubstitutie). Fonetische stoornissen werden bij de patiënten alsook bij de controleproefpersonen frequent gedetecteerd. Daarentegen kwamen de fonologische stoornissen voornamelijk bij de kinderen met schisis voor. Op de leeftijd van 9 jaar zijn fonologische processen niet meer aanvaardbaar. Op deze leeftijd wordt verwacht dat de fonologische ontwikkeling voltooid is (van Haften, Diepeveen, van den Engel-Hoek, de Swart, & Maassen, 2020). Tot slot was de nood aan schisisgerelateerde logopedische interventie in de huidige studie hoger in vergelijking met de studie van Nyberg et al. (2014). Mogelijks waren de 'strengere' beoordelingen van de nasale grimas, stem en niet-schisisgerelateerde articulatiestoornissen en de hoge nood aan schisisgerelateerde logopedische interventie te wijten aan de beperkte ervaring van de blinde beoordelaar. Dit in tegenstelling met de andere studies (Bettens et al., 2020; Bruneel et al., 2018; Nyberg et al., 2014), waar de spraakevaluaties uitgevoerd werden door logopedisten die ervaring hadden met de doelgroep van kinderen met schisis en met het beoordelen van spraakstalen.

Bovendien zijn er nog een aantal beïnvloedende factoren. Allereerst het verschil in in- en exclusiecriteria tussen de studies. In de meeste studies werden, net zoals in de huidige studie, kinderen met een unilaterale lip- en verhemeltespleet en kinderen met een geïsoleerde verhemeltespleet geïnccludeerd. Daarentegen includeerden Bruneel et al. (2018) en Bettens et al. (2020) ook kinderen met een bilaterale lip- en verhemeltespleet. Dit zou mogelijks een impact kunnen gehad hebben op de onderzoeksresultaten, hoewel van Lierde et al. (2002) vonden dat de spraak van UCLP- en BCLP-patiënten niet significant van elkaar

verschillen. De steekproefgrootte zou eveneens een invloed kunnen gehad hebben op de onderzoeksresultaten. In de huidige studie werden 8 kinderen met schisis geïnccludeerd, in tegenstelling tot de andere studies die een grotere steekproef konden verzamelen (zie beperkingen). Daarnaast werden in de verschillende studies andere chirurgische protocollen en spraakprotocollen gebruikt. In de huidige studie werd het verhemelte gesloten volgens de techniek van Sommerlad (Sommerlad, 2003). Ook in de studies van Bruneel et al. (2018) en Bettens et al. (2020) was dit het geval. Daarentegen werden in sommige studies andere chirurgische technieken gebruikt (Nyberg et al., 2014; Pulkkinen et al., 2001) of was er geen informatie beschikbaar over het type palatoplastie (Sell et al., 2015; Willadsen et al., 2017). Het type palatoplastie zou een mogelijke invloed kunnen gehad hebben op het verschil in spraakuitkomst tussen de verschillende studies (Leow & Lo, 2008). Tevens maakten de studies gebruik van andere spraakprotocollen of onderzochten ze andere spraakparameters, wat eventueel de onderzoeksresultaten kon beïnvloed hebben. In de huidige studie werd bijvoorbeeld de spraakparameter 'stem' opgenomen in het beoordelingsprotocol. Deze spraakparameter werd niet opgenomen in de protocollen van de andere studies, uitgezonderd in de studie van Bettens et al. (2020). De stemkwaliteit werd in de huidige studie frequent als afwijkend beoordeeld. Dit zal vermoedelijk een invloed gehad hebben op de spraakuitkomst van de kinderen met schisis, in tegenstelling tot de studies die deze spraakparameter niet opnamen in hun spraakprotocol. Tot slot was 'toegang tot de gezondheidszorg' een beïnvloedende factor. De onderzoeksresultaten van de huidige studie werden vergeleken met de onderzoeksresultaten van Bettens et al. (2020), die een gelijkaardig onderzoek deden bij Oegandese kinderen met schisis. In Oeganda waren er beïnvloedende factoren aanwezig die minder of niet aanwezig waren in België, zoals een minder toegankelijke gezondheidszorg. Bij vergelijking met de studie van Bettens et al. (2020) diende rekening gehouden te worden met deze beïnvloedende factoren.

Beperkingen

Aanvankelijk had de huidige studie als doel om 24 schisispatiënten en 24 controleproefpersonen te includeren. De rekrutering van de patiënten verliep moeizaam gezien de heersende COVID-19 maatregelen. Hierdoor gingen verscheidene schisisteam niet door of kwamen ouders en hun kind niet opdagen, waardoor men nauwelijks de kans kreeg om schisispatiënten te rekruteren. Gelijktijdig vond de rekrutering van de controleproefpersonen plaats. Oorspronkelijk was het de bedoeling dat de controleproefpersonen gematcht zouden worden aan de patiënten voor leeftijd en geslacht. Desondanks was dit niet mogelijk door de moeizame rekrutering van de patiënten. Dit leverde een minder goede matching op, met een verschil in leeftijd en geslacht tussen de patiëntengroep en de controlegroep. Om de rekrutering van de patiënten vlotter te laten verlopen, werden de in- en exclusiecriteria versoepeld. Aanvankelijk trachtte men uitsluitend kinderen met een lip- en verhemeltespleet op te nemen in de studie. Na enige tijd werd besloten om ook kinderen met een geïsoleerde palatoschisis te includeren, hoewel onderzoek reeds aantoonde dat het schisistype de spraak, meer bepaald de articulatie, kan beïnvloeden (Laitinen et al., 1998). Tevens werden patiënten

geïnccludeerd die niet voldeden aan een inclusiecriteria, waardoor de heterogeniteit van de patiëntengroep toenam. Zo werd een kind met een congenitale aandoening, namelijk met een milde faciale dysmorphie, geïnccludeerd. Normaliter trachtte men kinderen te includeren die een normale ontwikkeling doormaakten en Nederlands als moedertaal hadden. Desondanks werden er 2 kinderen die vertraagd ontwikkelden geïnccludeerd en 1 kind dat tweetalig (Nederlands – Frans) opgevoed werd. Ook al werden de in- en exclusiecriteria versoepeld, de rekrutering bleef moeizaam verlopen. Uiteindelijk kon men 8 patiënten verzamelen. Teneinde aan deze kleine steekproef tegemoet te komen en de power van het onderzoek te verhogen, werden per patiënt 2 controleproefpersonen geïnccludeerd. Uiteindelijk kon men 24 spraakstalen verzamelen van 8 patiënten en 16 kinderen zonder schisis. Door de kleine, heterogene steekproef is de generaliseerbaarheid naar de volledige populatie van kinderen met schisis eerder beperkt.

De onderzoeksresultaten van deze studie werden bekomen a.d.h.v. perceptuele beoordeling van de spraakstalen uitgevoerd door 1 blinde beoordelaar. Ondanks dat ons oor de gouden standaard is voor de perceptuele beoordeling van de spraak, blijft dit een subjectieve methode. Instrumenteel onderzoek is aangewezen ter objectivering van de perceptuele beoordeling. Nasometrisch onderzoek werd reeds gebruikt voor de instrumentele beoordeling van de resonantie. Ook voor andere spraakparameters zijn er mogelijkheden voor instrumenteel onderzoek, zoals de *Dysphonia Severity Index* (DSI) voor de stemkwaliteit. Slechts 25% van de spraakstalen werd geëvalueerd door 2 beoordelaars, weliswaar afzonderlijk, teneinde de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid te bepalen. Beiden hadden ze weinig of geen ervaring met de doelgroep van kinderen met schisis en met het beoordelen van spraakstalen. Hieraan trachtte men tegemoet te komen door een 2 uur durend trainingsmoment in te lassen. Dit resulteerde in uitstekende ICC-waarden voor de inter- en intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid. Desalniettemin waren er, zoals reeds aangehaald, een aantal bevindingen die wezen op onvoldoende ervaring bij de blinde beoordelaar. Het feit dat men zich voor de onderzoeksresultaten van de huidige studie louter gebaseerd heeft op de (subjectieve) bevindingen van 1 onervaren beoordelaar, is een beperking van deze studie.

Klinische implicaties en toekomstig onderzoek

In deze studie was de afwezigheid van compensatoire articulatiestoornissen onder de vorm van posterieur orale CSCs en non-orale CSCs opvallend. Een mogelijke verklaring hiervoor was de invloed van postoperatieve spraaktherapie. Bij heel wat kinderen met schisis kunnen er postoperatief compensatoire en obligatoire articulatiestoornissen geïdentificeerd worden. In postoperatieve logopedische therapie tracht men deze spraakstoornissen te elimineren. Uit dit onderzoek bleek dit te resulteren in een positieve evolutie van de compensatoire articulatie. Ondanks het beperkte onderzoek hierover, waren er reeds studies die dit konden bevestigen (Alighieri et al., 2019; Sell et al., 2017). Hoewel er nood is aan verder onderzoek, is dit een implicatie voor de praktijk om in te zetten op postoperatieve spraaktherapie.

Toekomstig onderzoek naar het langetermijneffect van palatoplastie op de spraak zou wenselijk zijn, waarbij rekening gehouden wordt met de beïnvloedende factoren en de beperkingen die aanwezig waren in dit onderzoek. In eerste instantie zou een grotere en meer homogene steekproef de betrouwbaarheid doen toenemen. De in- en exclusiecriteria zouden mooi afgebakend moeten blijven om zo controle te kunnen uitoefenen op de heterogeniteit van de steekproef. Daarnaast zou de controlegroep gematcht moeten worden aan de patiëntengroep voor leeftijd en geslacht, opdat deze factoren de onderzoeksresultaten niet zouden beïnvloeden. Daarnaast is instrumenteel onderzoek aangewezen ter objectivering van de perceptuele beoordeling. Vermoedelijk kunnen ook beoordelaars die ervaring hebben met de doelgroep van kinderen met schisis en met het beoordelen van spraakstalen de validiteit van de onderzoeksresultaten verhogen. Longitudinaal onderzoek is aangewezen om tegemoet te komen aan de beperkingen van cross-sectioneel onderzoek. Het is aanbevelingswaardig om een groep van kinderen met schisis gedurende verschillende jaren op te volgen en metingen herhaaldelijk op achtereenvolgende tijdstippen uit te voeren. Wanneer in toekomstig onderzoek rekening gehouden wordt met deze factoren, zal dit mogelijks tot meer betrouwbare onderzoeksresultaten leiden. Op die manier kan het langetermijneffect van eentijdige palatale sluiting op de spraak van kinderen met schisis met toegenomen betrouwbaarheid bepaald worden.

Conclusie

In dit onderzoek werd nagegaan in welke mate de spraakkenmerken zoals articulatie, resonantie, alsook spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid, van kinderen die geboren werden met een geïsoleerde schisis en eentijdige palatale sluiting ondergingen op de gemiddelde leeftijd van 12 maanden, verschilden van de spraakkenmerken van kinderen die geboren werden zonder schisis op de gemiddelde leeftijd van 9 jaar. De controlegroep scoorde significant beter dan de patiëntengroep voor de parameters: spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid, hypernasaliteit en passieve CSCs. Daarentegen verschilden nasale luchtstroom en anterieur orale CSCs niet significant tussen beide groepen. De resultaten van deze studie voor de nasale luchtstroom zijn vergelijkbaar met de resultaten van andere studies bij dezelfde populatie. Voor de parameter resonantie werden minder goede resultaten gevonden, met een hoge graad van hypernasaliteit in de patiëntengroep (75%). Dit resulteerde vermoedelijk in een groot aantal passieve CSCs (62%) en een minder goede spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid. De helft van de patiënten hun spraak werd als normaal verstaanbaar beschouwd en slechts 25% als normaal aanvaardbaar. Bijgevolg kon geconcludeerd worden dat de schisispatiënten, die primaire palatale sluiting ondergingen op de gemiddelde leeftijd van 12 maanden, geen leeftijdsadequate spraak verwierven tegen de gemiddelde leeftijd van 9 jaar. Dit was in contrast met de vooropgestelde hypothese. De afwezigheid van compensatoire articulatie onder de vorm van posterieur orale CSCs en non-orale CSCs was een opvallende bevinding. Dit bevredigende resultaat was vermoedelijk het gevolg van postoperatieve spraaktherapie. Er is nood aan toekomstig onderzoek dat rekening houdt met de beperkingen van deze studie en dat longitudinaal te werk gaat om het langetermijneffect van eentijdige palatale sluiting op de spraak op een betrouwbare wijze te bepalen.

Referenties

- Alighieri, C., Bettens, K., Bruneel, L., Vandormael, C., Musasizi, D., Ojok, I., . . . Van Lierde, K. (2019). Intensive speech therapy in Ugandan patients with cleft (lip and) palate: a pilot-study assessing long-term effectiveness. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, *123*, 156-167. doi:<https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2019.05.007>
- Association, I. P., & Staff, I. P. A. (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. doi:10.1597/11-202
- Bettens, K., Bruneel, L., Alighieri, C., Sseremba, D., Musasizib, D., Ojok, I., . . . D'haeseleer, E. (2020). Perceptual Speech Outcomes After Early Primary Palatal Repair in Ugandan Patients With Cleft Palate. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 1055665620980249.
- Bettens, K., Van Lierde, K. M., Corthals, P., Luyten, A., & Wuyts, F. L. (2016). The Nasality Severity Index 2.0: Revision of an Objective Multiparametric Approach to Hypernasality. *The Cleft palate-craniofacial journal : official publication of the American Cleft Palate-Craniofacial Association*, *53*(3), e60-70. doi:10.1597/14-247
- Boersma, W., & Weeninck, D. (2020). PRAAT: Doing phonetics by computer (Version 6.16.1).
- Bruneel, L., Bettens, K., De Bodt, M., D'haeseleer, E., Thijs, Z., Roche, N., & Van Lierde, K. (2020). Stages in the Development and Validation of a Belgian Dutch Outcome Tool for the Perceptual Evaluation of Speech in Patients With Cleft Palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *57*(1), 43-54. Retrieved from <https://journals.sagepub.com/doi/pdf/10.1177/1055665619862726>
- Bruneel, L., Bettens, K., De Bodt, M., Roche, N., Bonte, K., & Van Lierde, K. (2018). Speech outcomes following Sommerlad primary palatoplasty: Results of the Ghent University Hospital. *Journal of Communication Disorders*, *72*, 111-121. doi:<https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2018.01.004>
- Chapman, K. L., Hardin-Jones, M., Schulte, J., & Halter, K. A. (2001). Vocal development of 9-month-old babies with cleft palate. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*.
- Chapman, K. L., Hardin-Jones, M. A., Goldstein, J. A., Halter, K. A., Havlik, R. J., & Schulte, J. (2008). Timing of palatal surgery and speech outcome. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *45*(3), 297-308. doi:10.1597/06-244
- Cicchetti, D. V. (1994). Guidelines, criteria, and rules of thumb for evaluating normed and standardized assessment instruments in psychology. *Psychological Assessment*, *6*(4), 284-290. doi:<http://dx.doi.org/10.1037/1040-3590.6.4.284>
- Copeland, M. (1990). The effects of very early palatal repair on speech. *British Journal of Plastic Surgery*, *43*(6), 676-682. doi:[https://doi.org/10.1016/0007-1226\(90\)90188-6](https://doi.org/10.1016/0007-1226(90)90188-6)
- De Mey, A., Swennen, G., Malevez, C., George, M., & Mansbach, A.-L. (2006). Long-term follow-up of UCLP at the Reine Fabiola Children's Hospital. *B ENT*, *2*(4), 44-50.
- Dorf, D. S., & Curtin, J. W. (1982). EARLY CLEFT-PALATE REPAIR AND SPEECH OUTCOME. *Plastic and reconstructive surgery*, *70*(1), 74-79. doi:10.1097/00006534-198207000-00015

- Elsherbiny, A., Amerson, M., Sconyers, L., & Grant III, J. H. (2018). Time course of improvement after re-repair procedure for VPI management. *Journal of Plastic, Reconstructive & Aesthetic Surgery*, 71(6), 895-899.
- Ens-Dokkum, M. H. (2003). Risico's, risicofactoren en kansen in de ontwikkeling van kinderen met een gehoorstoornis. *Tijdschrift voor kindergeneeskunde*, 71(5), 53-60. doi:10.1007/BF03061428
- Fletcher, S. G., & Bishop, M. E. (1970). Measurement of nasality with TONAR. *The Cleft palate journal*, 7(2), 610-621.
- Gangji, N., Pascoe, M., & Smouse, M. (2015). Swahili speech development: preliminary normative data from typically developing pre-school children in Tanzania. *International journal of language & communication disorders*, 50(2), 151-164.
- Haapanen, M. L. (1992). FACTORS AFFECTING SPEECH IN PATIENTS WITH ISOLATED CLEFT-PALATE - A METHODIC, CLINICAL AND INSTRUMENTAL STUDY. *Scandinavian journal of plastic and reconstructive surgery and hand surgery*, 1-61. Retrieved from <Go to ISI>://WOS:A1992KD53000001
- Hutters, B., & Brøndsted, K. (1987). Strategies in cleft palate speech--with special reference to Danish. *The Cleft palate journal*, 24(2), 126-136.
- 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. doi:10.1597/04-141.1
- Karling, J., Larson, O., & Henningsson, G. (1993). Oronasal fistulas in cleft palate patients and their influence on speech. *Scandinavian journal of plastic and reconstructive surgery and hand surgery*, 27(3), 193-201.
- Laitinen, J., Haapanen, M. L., Paaso, M., Pulkkinen, J., Heliövaara, A., & Ranta, R. (1998). Occurrence of Dental Consonant Misarticulations in Different Cleft Types. *Folia Phoniatica et Logopaedica*, 50(2), 92-100. doi:10.1159/000021454
- Leow, A. M., & Lo, L. J. (2008). Palatoplasty: evolution and controversies. *Chang Gung medical journal*, 31(4), 335-345.
- Lohmander, A., Persson, C., Willadsen, E., Lundeborg, I., Alaluusua, S., Aukner, R., . . . Semb, G. (2017). Scandcleft randomised trials of primary surgery for unilateral cleft lip and palate: 4. Speech outcomes in 5-year-olds - velopharyngeal competency and hypernasality. *Journal of plastic surgery and hand surgery*, 51(1), 27-37. doi:10.1080/2000656x.2016.1254645
- MacKay, I., & Kummer, A. (1994). Simplified nasometric assessment procedures. *Lincoln Park, NJ: Kay Elemetrics*.
- 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. doi:10.1016/s0140-6736(09)60695-4
- Nyberg, J., Peterson, P., & Lohmander, A. (2014). Speech outcomes at age 5 and 10 years in unilateral cleft lip and palate after one-stage palatal repair with minimal incision technique – A longitudinal perspective. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 78(10), 1662-1670. doi:<https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2014.07.016>

- Peddemors-Boon, M., Van Der Meulen, S., & De Vries, A. (1977). Utrechts articulatieonderzoek [Utrecht's articulation research]. In: Amsterdam, The Netherlands: Swets & Zeitlinger BV.
- Pulkkinen, J., Haapanen, M. L., Paaso, M., Laitinen, J., & Ranta, R. (2001). Velopharyngeal Function from the Age of Three to Eight Years in Cleft Palate Patients. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 53(2), 93-98. doi:10.1159/000052659
- Rindfleisch, A., Malter, A. J., Ganesan, S., & Moorman, C. (2008). Cross-sectional versus longitudinal survey research: Concepts, findings, and guidelines. *Journal of marketing research*, 45(3), 261-279.
- Riski, J. E. (2011). Secondary management and speech outcome. *Cleft Palate Speech: Assessment and intervention*. Chichester, West Sussex: Wiley-Blackwell.
- 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. doi:10.1080/13682820802196815
- Sell, D., Mildinhal, S., Albery, L., Wills, A., Sandy, J., & Ness, A. (2015). The Cleft Care UK study. Part 4: perceptual speech outcomes. *Orthodontics & craniofacial research*, 18, 36-46.
- Sell, D., Southby, L., Wren, Y., Wills, A., Hall, A., Mahmoud, O., . . . Ness, A. (2017). Centre-level variation in speech outcome and interventions, and factors associated with poor speech outcomes in 5-year-old children with non-syndromic unilateral cleft lip and palate: The Cleft Care UK study. Part 4. *Orthodontics & craniofacial research*, 20, 27-39.
- Semb, G., Enemark, H., Friede, H., Paulin, G., Lilja, J., Rautio, J., . . . Worthington, H. (2017). A Scandcleft randomised trials of primary surgery for unilateral cleft lip and palate: 1. Planning and management. *Journal of plastic surgery and hand surgery*, 51(1), 2-13. doi:10.1080/2000656x.2016.1263202
- Shaw, W., Semb, G., Lohmander, A., Persson, C., Willadsen, E., Clayton-Smith, J., . . . Williamson, P. (2019). Timing Of Primary Surgery for cleft palate (TOPS): protocol for a randomised trial of palate surgery at 6 months versus 12 months of age. *Bmj Open*, 9(7), 8. doi:10.1136/bmjopen-2019-029780
- Sommerlad, B. C. (2003). A Technique for Cleft Palate Repair. *Plastic and reconstructive surgery*, 112(6), 1542-1548. doi:10.1097/01.Prs.0000085599.84458.D2
- Van de Weijer, J., & Slis, I. (1991). Nasality assessment using the Nasometer. *Logop Foniatr*, 63, 97-101.
- van Haften, L., Diepeveen, S., van den Engel-Hoek, L., de Swart, B., & Maassen, B. (2020). Speech sound development in typically developing 2–7-year-old Dutch-speaking children: A normative cross-sectional study. *International journal of language & communication disorders*, 55(6), 971-987.
- van Lierde, K. M., De Bodt, M., van Borsel, J., Wuyts, F. L., & van Cauwenberge, P. (2002). Effect of Cleft Type on Overall Speech Intelligibility and Resonance. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 54(3), 158-168. doi:10.1159/000063411
- Van Lierde, K. M., Wuyts, F. L., De Bodt, M., & Van Cauwenberge, P. (2003). Age-related patterns of nasal resonance in normal Flemish children and young adults. *Scandinavian journal of plastic and reconstructive surgery and hand surgery*, 37(6), 344-350. doi:10.1080/02844310310004307
- Walker, J. J., Cleveland, L. M., Davis, J. L., & Seales, J. S. (2013). Audiometry screening and interpretation. *American family physician*, 87(1), 41-47.

- Willadsen, E., Lohmander, A., Persson, C., Lundeborg, I., Alaluusua, S., Aukner, R., . . . Semb, G. (2017). Scandcleft randomised trials of primary surgery for unilateral cleft lip and palate: 5. Speech outcomes in 5-year-olds - consonant proficiency and errors. *Journal of plastic surgery and hand surgery*, 51(1), 38-51. doi:10.1080/2000656x.2016.1254647
- Wirtz, N., Sidman, J., & Block, W. (2016). Clefing of the Alveolus: Emphasizing the Distinction from Cleft Palate. *American journal of perinatology*, 33(6), 531-534. doi:10.1055/s-0036-1572537
- Worley, M. L., Patel, K. G., & Kilpatrick, L. A. (2018). Cleft Lip and Palate. *Clinics in Perinatology*, 45(4), 661-678. doi:<https://doi.org/10.1016/j.clp.2018.07.006>
- Ysunza, A., Pamplona, M. C., Mendoza, M., Garcia-Velasco, M., Aguilar, M. P., & Guerrero, M. E. (1998). Speech outcome and maxillary growth in patients with unilateral complete cleft lip/palate operated on at 6 versus 12 months of age. *Plastic and reconstructive surgery*, 102(3), 675-679. doi:10.1097/00006534-199809030-00009
- Ziak, P., Fedeles, J., Jr., Fekiacova, D., Hulin, I., Jr., & Fedeles, J. (2010). Timing of primary lip repair in cleft patients according to surgical treatment protocol. *Bratislavské lekárske listy*, 111(3), 160-162.

Appendices

Appendix 1: classificatie van schisisgerelateerde articulatiestoornissen (CSCs) met ondersteuning van afbeeldingen (Sell et al., 2009).



Passieve CSCs

1. Zwakke of genasaliseerde consonanten (vaak stemhebbende plosieven)
2. Nasale productie van plosieven, bv.: [b] → [m]; [d] → [n]; [g] → [ŋ] en/of vermoeden van passieve nasale fricatief
3. Gliding, bv.: [f] [v] → [w]; [s] [z] [ʃ] → [ʒ]



Anterieur orale CSCs

1. Dentalisatie addentaliteit/interdentaliteit
2. Lateralisatie
3. Palatalisatie



Posterieur orale CSCs

1. Dubbele articulatie van orale consonanten, bv. /tk/
2. Backing naar velaire/uvulaire articulatieplaats, bv.: [t] [d] [s] [n] [l] → [k] [ɣ] [x] [ŋ] (velair)



Non-orale CSCs

1. Faryngale articulatie
2. Glottale articulatie: glottale stop [ʔ] of fricatief [h]
3. Dubbele articulatie met glottale stop
4. Actieve nasale fricatief

Appendix 2: goedkeuring ethisch comité.

A/z.: Commissie voor Medische Ethiek			
Prof. dr. Kristiane Van Lierde VG Revalidatiewetenschappen - GE37 ALBIER			
contact	telefoon	e-mail	
Commissie voor medische Ethiek	+32 (0)9 332 41 81	ethisch.comite@uzgent.be	
Ons kenmerk	Uw kenmerk	datum	pagina
BC-07651	NVT	8/05/2020	1/2

Betreft: Advies voor monocentrische studie met als titel:

"Invoed van tijdstip: eenzijdige palatale sluiting op spraak bij patiënten met achisis - verzameling Belgische Data - Scriptie: Tine Papeleu"
S.U.N.: B6792020000234
Fase (Phase): NVT

- * Adviesaanvraagformulier Versie 1 dd. 7/4/2020 (Volledig ontvangen dd. 07/04/2020)
- * Begeleidende brief dd. 3/4/2020
- * Informatie- en waarschuwingsnota ondertekend door Tine Papeleu op 7/04/2020
- * Antwoord onderzoeker ontvangen via mail dd. 07/05/2020 op opmerkingen EC dd. 30/04/2020
- * Begeleidende brief ondertekend door Prof.dr. K. Van Lierde dd. 4/05/2020.
- * Antwoordbrief bij opmerkingen dd. 4/5/2020
- * Patiënteninformatie- en toestemmingsformulier versie 2 dd. 4/5/2020 patiëntengroep
- * Patiënteninformatie- en toestemmingsformulier versie 2 dd. 4/5/2020 controlegroep

Advies werd gevraagd door: Prof. dr. Kristiane Van Lierde

BOVENVERMELDE DOCUMENTEN WERDEN DOOR HET ETHISCH COMITÉ BEGROEPELD. ER WERD EEN POSITIEF ADVIES GEGEVEN OVER DIT PROTOCOL OP 8/05/2020. INDIEN DE STUDIE NIET WORDT OPGESTART VOOR 8/05/2021, VERVALT HET ADVIES EN MOET HET PROJECT TERUG INGEDIEND WORDEN.

Vooraleer het onderzoek te starten dient contact te worden genomen met HIRUZ CTU (09332 95 00).

THE ABOVE MENTIONED DOCUMENTS HAVE BEEN REVIEWED BY THE ETHICS COMMITTEE. A POSITIVE ADVICE WAS GIVEN FOR THIS PROTOCOL ON 8/05/2020. IN CASE THIS STUDY IS NOT STARTED BY 8/05/2021, THIS ADVICE WILL BE NO LONGER VALID AND THE PROJECT MUST BE RESUBMITTED.

Before initiating the study, please contact HIRUZ CTU (09332 95 00).

DIT ADVIES WORDT OPGENOMEN IN HET VERSLAG VAN DE VERGADERING VAN HET ETHISCH COMITÉ VAN 19/05/2020. THIS ADVICE WILL APPEAR IN THE PROCEEDINGS OF THE MEETING OF THE ETHICS COMMITTEE OF 19/05/2020.

- * Het Ethisch Comité werkt volgens 'ICH Good Clinical Practice'-regels
- * Het Ethisch Comité bevestigt dat een gunstig advies niet betekent dat het Comité de verantwoordelijkheid voor het onderzoek op zich neemt. Bovendien dient U er over te waken dat Uw mening als betrokken onderzoeker wordt weergegeven in publicaties, rapporten voor de overheid enz., die het resultaat zijn van dit onderzoek.
- * In het kader van 'Good Clinical Practice' moet de mogelijkheid bestaan dat het farmaceutisch bedrijf en de autoriteiten inzage krijgen van de originele data. In dit verband dienen de onderzoekers erover te waken dat dit gebeurt zonder schending van de privacy van de proefpersonen.
- * Het Ethisch Comité benadrukt dat het de promotor is die garant dient te staan voor de conformiteit van de onderstaande informatie- en toestemmingsformulieren met de nederlandsstalige documenten.
- * Geen enkele onderzoeker betrokken bij deze studie is lid van het Ethisch Comité.
- * prof. dr. K. VAN LIERDE heeft niet deelgenomen aan de bespreking van dit project.
- * Alle leden van het Ethisch Comité hebben dit project beoordeeld. (De ledenlijst is bijgevoegd)
- * The Ethics Committee is organized and operates according to the 'ICH Good Clinical Practice' rules.

ALGEMENE DIRECTIE Commissie voor Medische Ethiek
VOORZITTER Prof. dr. P. Dece
SECRETARIS Prof. dr. R. Peleman
STAFMEDICUS/REK Isabelle Fouquet T +32(0)9 332 53 06 Sara De Smet T +32(0)9 332 68 55 Sabine Van de Moortele T +32(0)9 332 68 04
SECRETARISAT Sébastien Calhwaert T +32(0)9 332 41 01 Melanie De Meyer T +32(0)9 332 65 08 Charlotte De Wolf T +32(0)9 332 32 08 Suzanne De Paepe T +32(0)9 332 29 88 Ana Vlaarboeckhe T +32(0)9 332 22 08
INGANG 15 ROUTE 1522

		
		Universitair Ziekenhuis Gent C. Heymanslaan 10 B 9000 Gent www.uzgent.be

- * The Ethics Committee stresses that approval of a study does not mean that the Committee accepts responsibility for it. Moreover, please keep in mind that your opinion as investigator is presented in the publications, reports to the government, etc., that are a result of this research.
- * In the framework of 'Good Clinical Practice', the pharmaceutical company and the authorities have the right to inspect the original data. The investigators have to assure that the privacy of the subjects is respected.
- * The Ethics Committee stresses that it is the responsibility of the promotor to guarantee the conformity of the non-dutch informed consent forms with the dutch documents.
- * None of the investigators involved in this study is a member of the Ethics Committee.
- * prof. dr. K. VAN LIERDE did not take part in the advisory committee for this project.
- * All members of the Ethics Committee have reviewed this project. (The list of the members is enclosed)

Namens het Ethisch Comité / On behalf of the Ethics Committee



Prof. dr. P. Deron
Voorzitter / Chairman

CC: UZ Gent – HIRUZ-CTU
FAGG – Research & Development, Victor Hortaplein 40, postbus 40 1000 Brussel

Ledenlijst 2019-2023:

Voorzitter: Prof. dr. P. DERON (UZG – chirurg, ♂)
 Secretaris: Prof. dr. R. PELEMAN (UZG – internist, ♂)
 Lid(e): Prof. dr. mr. T. BALTHAZAR (UG – jurist, ♂)
 Dhr. K. BENHADDOU (menswetenschapper, ♂)
 Prof. dr. W. CEBLEN (UZG – chirurg, ♂)
 Prof. dr. J. DECLUYENAERE (UZG – Internist, ♂)
 Dhr. C. DEMEESTERE (UZG – verpleegkundige, ic, Medisch sociale wetenschappen, ♂)
 Prof. dr. K. DHONDT (UZG – (kinder)psychiater, ♀)
 Prof. dr. D. DE BACQUER (UG – statistikus, ♂)
 Dr. K. DE GROOTE (UZG – kinder cardioloog, ♀)
 Prof. dr. M. De MUYNCK (UZG – fysiotherapeute, ♀)
 Dhr. G. DE SMET (UZG – verpleegkundige, - ic, Medisch sociale wetenschappen ♂)
 Mevr. M. FOUQUET (UZG – verpleegkundige, ♀)
 Dr. L. GOOSSENS (UZG – neonatoloog, ♀)
 Dr. S. JANSSENS (UZG – geneticus, ♀)
 Mevr. K. KINT (UZG – apotheker, ♀)
 Prof. dr. F. MORTIER (UG – moraal filosoof, ♂)
 Prof. dr. W. NOTERBAERT (UG – psycholoog, ♂)
 Dr. M. PETERS (UZG – fertilitidsarts, ♀)
 Prof. dr. R. PIERS (UZG – geriater, ♀)
 Prof. dr. R. RUBENS (UZG – endocrinoloog, ♂)
 Prof. dr. P. SCHELSTRAETE (UZG – kinderpneumoloog/infectioloog, ♀)
 Prof. dr. S. STERCKX (moraal filosoof, ♀)
 Mevr. C. VANCAENEGHEM (patiëntvertegenwoordiger)
 Dhr. B. VANDERHAGEN (UZG – moraal filosoof, ♂)
 Prof. dr. W. VAN BIESEN (UZG – nefroloog, ♂)
 Dr. J. VAN ELSEN (huisarts, ♂)
 Dr. G. VAN LANCKER (UZG – klinisch farmacoloog, ♀)
 Prof. dr. K. VAN LIERDE (UG – logopediste, ♀)
 Prof. dr. H. VERSTRAELEN (UZG – gynaecoloog, ♂)



Universitair Ziekenhuis Gent
C. Heymanslaan 10 | B 9000 Gent
www.uzgent.be

Appendix 3: oudervragenlijst teneinde gegevens van de controlegroep en de patiëntengroep te verzamelen.

Beste ouder,

In eerste instantie wil ik u bedanken voor uw deelname aan mijn onderzoek. Met onderstaande vragenlijst tracht ik zowel persoonlijke als medische gegevens van uw kind te verzamelen.

Naam en voornaam (kind) *:

Geboortedatum (kind) *:

1. Wat is de **moedertaal** van uw kind? (Welke taal/talen wordt/worden tegen uw kind gesproken?)

.....

2. Werd er bij uw kind een **gehoorverlies** vastgesteld of vermoedt u dat uw kind een verminderd gehoord heeft?

ja

neen

Zo ja, is uw kind hiervoor in behandeling of waarom vermoedt u dit?

3. Heeft uw kind een **middenoorafwijking** (bv. frequent middenoorontstekingen, ...)

ja

neen

Zo ja, is uw kind hiervoor in behandeling?

4. Verliep de **ontwikkeling** van uw kind, op vlak van motoriek en intelligentie, vertraagd?

ja

neen

Zo ja, wat verliep er trager en is/was uw kind hiervoor in behandeling?

5. Heeft uw kind **spraak- en/of taalstoornissen** of had uw kind dit in het verleden?

ja

neen

Zo ja, volgt uw kind daarvoor logopedie of heeft uw kind logopedie gevolgd?

6. Heeft uw kind **neus- en/of keelaandoeningen** of had uw kind dit in het verleden (bv. schisis, stembandknobbels, ...)?

ja

neen

Zo ja, is uw kind hiervoor in behandeling?

7. Heeft uw kind op het moment van het onderzoek een **verkoudheid** of een opstoot van **allergie**?

ja

neen

Appendix 4: beoordelingsprotocol volgens het CAPS-A-NL protocol (Bruneel et al., 2020), mits aanpassing aan de Oegandese studie (Bettens et al., 2020).

Spraakstaal nr.:	Datum:
Leeftijd en geslacht proefpersoon:	Beoordelaar:

1. Spontane spraak (audio) - Spraakverstaanbaarheid

SCORE	BESCHRIJVING
Spraakverstaanbaarheid	
0	Binnen de norm - de spraak is altijd gemakkelijk te verstaan
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. Automatische reeksen + SNAP-zinnen (audio) – Resonantie en nasale luchtstroom

2.a. Resonantie

SCORE	BESCHRIJVING
Hypernasaliteit	
0	Afwezig – de nasale resonantie ligt binnen de norm van de regio
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
Hyponasaliteit	
0	Afwezig - de nasale resonantie is binnen de norm van de regio
1	Mild aanwezig – nasale consonanten worden gedeeltelijk gedenasaleerd
2	Duidelijk aanwezig- nasale consonanten worden frequent gedenasaleerd zodat er een overwicht is aan gedenasaleerde consonanten

2.b. Nasale luchtstroom

Nasale emissie	
0	Afwezig bij de productie van drukconsonanten
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)
Nasale turbulentie	
0	Afwezig bij de productie van drukconsonanten
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)

Audio-opname totaal – Stem

Stem	
0	Geen afwijkende stemkwaliteit
1	Kenmerkende of afwijkende stemkwaliteit

3. Utrechts Articulatieonderzoek (video) - Articulatie

3.a. Observaties op basis van spontane spraak en automatische reeksen

3.b. Beoordeling van consonanten op basis van de woorden – Utrechts Articulatieonderzoek (video)

	/p/	/m/	/w/	/b/	/d/	/n/	/k/	/g/	/t/	/f/
Initiaal	Poes/ pak	Maan/ man	Wiel/ was	Beer/ Bal	Dak/ doos	Neus/ noot	Kam/ kaas	Gieter/ geit	Tas/ tak	Fiets/ fee
Mediaal	Appel/ lepel	Emmer/ bloemen	Geweer/ gewei	Glijbaan/ kabouter	/	Banaan/ Konijn	Beker/ eikel	Ogen/ regen	Auto/ foto	Tafel/ koffer
finaal	Aap/ kip	Boom/ duim	Mouw/ touw	/	/	Pan/ teen	Boek/ koek	/	Bed/ boot	Brief/ staf

	/h/	/ŋ/	/l/	/v/	/s/	/sp/	/ks/	/st/	/z/	/r/	/j/
Initiaal	Hoed/ hond	/	Lamp/ leeuw	Vis/ voet	Cent/ sok	Spin/ spijker	/	Step/ stoep	Zon/ zak	Rook/ raam	Jas/ jurk
Mediaal	/	Ring/ tong	Molen/ schillen	/	Vissen/ kussen	/	/	/	Bezem/ huizen	Toren/ paraplu	Viool/ breien
finaal	/	Vinger/ jongen	Bal/ bel	/	Muis/ huis	/	Heks/ boks	Kast/ kist	/	Oor/ deur	Kooi/ papegaai

3.c. Samenvatting van de schisisgerelateerde articulatiestoornissen

	Afwezig	Aanwezig bij 2 of minder consonanten	Aanwezig bij 3 of meer consonanten
Anterieur oraal			
Dentalisatie addentaliteit/interdentaliteit			
Lateralisatie			
Palatalisatie			
Posterieur oraal			
Dubbele articulatie van orale consonanten, bv. /tk/			
Backing naar velaire/uvulaire articulatieplaats, bv.: [t] [d] [s] [n] [l] → [k] [ŋ] [x] [ŋ] (velair)			
Non-oraal			
Faryngale articulatie			
Glottale articulatie: glottale stop [ʔ] of fricatief [h]			
Dubbele articulatie met glottale stop			
Actieve nasale fricatief			
Passief			
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]			

3.d. Samenvatting van de niet-schisisgerelateerde articulatiestoornissen

Score	Omschrijving
0	afwezig
1	aanwezig

4. **Automatische reeksen + SNAP-zinnen (video) – Resonantie en nasale luchtstroom (revisie: zie 2)**

Video-opname totaal – Nasale grimas

Score	Omschrijving
0	afwezig
1	Grimas aanwezig – voldoende om de luisteraar af te leiden

Totaal spraakstaal – Spraakaanvaardbaarheid

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

Algemene opmerkingen over de spraak of taal; beïnvloedende factoren (audio + video: totaal spraakstaal)

Nood aan logopedische interventie voor schisisgerelateerde spraakproblemen? (audio + video: totaal spraakstaal)

JA	NEE
----	-----

Appendix 5: Nederlandse vertaling (van Lierde et al., 2002) van de zinnen uit de SNAP-Test (MacKay & Kummer, 1994).

Bilabialen

Pak het boek
Pak de pot
Pak de baby

Alveolair

Tover de tafel
Tover de schildpad
Tover de teddybeer

Velair

Krijg ik een koek
Krijg ik een kar
Krijg ik een cake

Sibilant

Suzie ziet de schort
Suzie ziet de schaar
Suzie ziet de staart

Nasalen

Mama maakt mattentaart
Mama maakt handschoenen
Mama maakt limonade

Appendix 6: geselecteerde woorden (testitems en reserve-items) uit het Utrechtse Articulatie Onderzoek (Peddemors-Boon et al., 1977).

Initiale enkelvoudige medeklinker	Finale enkelvoudige medeklinker	Mediale enkelvoudige medeklinker
p <u>o</u> es p <u>a</u> k	a <u>a</u> p k <u>i</u> p	glij <u>b</u> aan k <u>a</u> bouter
b <u>e</u> er b <u>a</u> l	b <u>e</u> d bo <u>o</u> t	app <u>e</u> l lep <u>e</u> l
d <u>a</u> k d <u>o</u> os	bo <u>e</u> k ko <u>e</u> k	au <u>t</u> o fo <u>t</u> o
t <u>a</u> s t <u>a</u> k	bo <u>o</u> m du <u>i</u> m	b <u>e</u> ker e <u>i</u> kel
k <u>a</u> m k <u>a</u> as	pa <u>n</u> teen <u>n</u>	em <u>m</u> er bloem <u>e</u> n
m <u>a</u> an m <u>a</u> n	ri <u>n</u> g ton <u>g</u>	ban <u>a</u> an kon <u>i</u> jn
n <u>e</u> us n <u>o</u> ot	br <u>i</u> ef st <u>a</u> f	vin <u>g</u> er jon <u>g</u> en
v <u>i</u> s vo <u>e</u> t	mou <u>w</u> tou <u>w</u>	taf <u>e</u> l koff <u>e</u> r
f <u>i</u> ets f <u>e</u> e	muis <u>i</u> huis <u>i</u>	gew <u>e</u> er gew <u>e</u> i
w <u>i</u> el w <u>a</u> s	koo <u>i</u> papegaa <u>i</u>	bez <u>e</u> m huiz <u>e</u> n
z <u>o</u> n z <u>a</u> k	oor <u>r</u> deur <u>r</u>	viss <u>e</u> n kuss <u>e</u> n
c <u>e</u> nt sok	ba <u>l</u> be <u>l</u>	v <u>i</u> ool bre <u>i</u> en
j <u>a</u> s j <u>u</u> rk		og <u>e</u> n reg <u>e</u> n
gi <u>e</u> ter ge <u>i</u> t		to <u>r</u> en par <u>a</u> plu
h <u>o</u> ed h <u>o</u> nd		mo <u>l</u> en schill <u>e</u> n
r <u>o</u> ok r <u>a</u> am		
l <u>a</u> mp l <u>e</u> euw		

Initiaal meerledige medeklinkers	Finaal meerledige medeklinkers
step stoep	heks boks
spin spijker	kast kist

Appendix 7: Nederlandse vertaling (Van Lierde et al., 2003) van de oronasale, orale en nasale tekst van Van de Weijer en Slis (1991).

Oronasale tekst

Papa en Marloes staan op het station.
Ze wachten op de trein.
Eerst hebben ze een kaartje gekocht.
Er stond een hele lange rij, dus dat duurde wel even.
Nu wachten ze tot de trein eraan komt.
Het is al vijf over drie, dus het duurt nog vier minuten.
Er staan nog veel meer mensen te wachten.
Marloes kijkt naar links, in de verte ziet ze de trein al aankomen.

Orale tekst

Het is zaterdag.
Els heeft vrij.
Ze loopt door de stad.
Het is prachtig weer, de lucht is blauw.
Op straat ziet ze Bart op de fiets.
Hij wacht voor het rode licht.
Als Bart haar ziet, zwaait hij.
Els loopt weer verder.
Bij de bakker koopt ze brood, bij de slager koopt ze vlees.
Als het vijf uur is, gaat ze terug, zodat ze op tijd weer thuis is.

Nasale tekst

Vanmorgen ging meneer Van Dam naar de groenteman.
Namelijk om een mand mandarijnen te kopen.
Aan zijn arm nam hij een mand mee om de mandarijnen in te doen.
Na een minuut of tien stond meneer Van Dam in de winkel.
En hij nam een mand mandarijnen mee en ook maar meteen negen bananen en een mooie ananas. Met zijn mand aan zijn arm, ging hij toen snel naar huis.

Appendix 8: vertrouwelijkheid & overdracht van recht.



VERTROUWELIJKHEID & OVERDRACHT VAN RECHT EENZIJDIGE VERKLARING

--	--

Deze Verklaring wordt afgelegd ten aanzien van

Universiteit Gent, openbare instelling met rechtspersoonlijkheid, waarvan de bestuurszetel gevestigd is te 9000 Gent, Sint-Pietersnieuwstraat 25, gekend onder ondernemingsnummer 0248.015.142 voor wie optreedt bij delegatie ingevolge het besluit van de Raad van Bestuur, prof. dr. Rik Van de Walle, rector ("UGent")

Door:

Tine Papellu - woonachtig te N.ove
Student, ingeschreven aan UGent in de richting: <i>toppedische wetenschappen</i>

Project: <i>masterproef</i>

In het kader van zijn/haar opleiding aan UGent, zal ondergetekende kennis krijgen van bepaalde vertrouwelijke informatie toebehorend aan UGent of door derden toevertrouwd aan UGent.

Ondergetekende verbindt er zich toe om de aan hem/haar in het kader van het Project ter beschikking gestelde informatie op geen enkele manier publiek bekend te maken zonder voorafgaande uitdrukkelijke schriftelijke toelating van UGent. Deze verbintenis geldt voor een duur van tien (10) jaar te rekenen vanaf de datum van deze Eenzijdige Verklaring.

Ondergetekende draagt eveneens al zijn/haar rechten op onderzoeksresultaten behaald in het kader van het Project over aan UGent.

Deze Eenzijdige Verklaring vervangt alle schriftelijke en mondelinge overeenkomsten die de partijen eerder zijn aangegaan met betrekking tot haar voorwerp en omvat de enige en volledige overeenkomst ter zake tussen de partijen.

Aldus verklaart en tekent voor akkoord:

Naam	<i>Tine papellu</i>
Handtekening	Voorafgegaan door handgeschreven vermelding "gelezen en goedgekeurd" <i>gelezen en goedgekeurd</i> <i>Tine papellu</i>
Datum:	<i>2/10/2019</i>