



Faculteit Geneeskunde en Gezondheidswetenschappen

Academiejaar 2014-2015

Spraakoutcome na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad

Laura Bruneel

Promotor: Prof. Dr. K. Van Lierde

Copromotor: Dr. K. Bonte

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

Dankwoord

Een masterproef schrijf je niet alleen; ik heb hierbij de hulp en steun gekregen van verschillende personen die ik via deze weg graag wil bedanken.

Eerst en vooral gaat bijzondere dank uit naar Prof. Dr. Van Lierde en Dr. Bonte voor de goede begeleiding en feedback. Bovendien heeft hun expertise op het vlak van schisispatiënten mij enorm veel bijgeleerd. Daarom wil ik hen graag bedanken voor de fijne samenwerking.

Drs. Bettens en Dr. Luyten verdienen zeker ook een vermelding in dit dankwoord. Ik kon bij hen terecht voor zowel praktische als inhoudelijke ondersteuning. Ook was hun gedegen expertise een motivatie en inspiratie om deze masterproef tot een goed einde te brengen.

Bij het uitvoeren van de statistische bewerkingen werd ik ondersteund door Dr. Buysse. Graag wil ik haar hiervoor bedanken.

Ten slotte wil ik heel graag mijn ouders, stiefouders, zussen, stiefzus en mijn vriend Dian bedanken. Zij hadden oeverloos geduld, luisterden naar al mijn muizenissen en ondersteunden mij met motiverende feedback.

Abstract (Nederlandstalige versie)

In de zoektocht naar de palatoplastiek met de beste outcome, werd de optimale techniek nog niet gevonden. Meer en meer wordt in de literatuur de toevoeging van intravelaire palatoplastiek gesuggereerd. Momenteel wordt in het U.Z. Gent de Sommerladtechniek toegepast, die gebruikt maakt van radicale intravelaire veloplastiek. Een uitgebreide beschrijving, zoals voorzien in deze masterproef, van de spraakresultaten na toepassing van deze techniek, was nog niet voorhanden. In deze masterproef werd de spraak van zestien schisispatiënten (gemiddelde leeftijd: 5.4 jaar), na toepassing van de primaire palatoplastiek volgens Sommerlad, beschreven en vergeleken met een controlegroep, gecontroleerd voor leeftijd (gemiddelde leeftijd: 5.3 jaar) en geslacht. De controlegroep bestond uit kinderen zonder schisis of andere craniofaciale afwijkingen en zonder cognitieve en/of motorische achterstand. De schisispatiënten hadden een significant verminderde spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid, en een hoger voorkomen van (nasale emissie), en ernstigere (hypernasaliteit en nasale emissie) resonantiestoornissen i.v.m. de controlegroep. Bovendien werden significant hogere nasometrische waarden en lagere NSI-waarden gevonden bij de schisispatiënten i.v.m. de controlegroep. Articulatorisch bevatte de spraak van de schisispatiënten significant meer compensatoire en obligatoire fouten, substituties en omissies, en waren bepaalde fonologische processen vaker aanwezig dan bij de controlegroep. Deze resultaten waren vergelijkbaar met eerder gerapporteerde resultaten na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad. Een vergelijking met resultaten na andere technieken bleek onmogelijk gezien de verscheidenheid in methodologie. Idealiter zou, om een besluit te kunnen vormen over de meest optimale techniek, een onderzoek moeten opgezet worden waarbij verschillende technieken ter sluiting van het verhemelte op dezelfde wijze beschreven worden en waarbij dezelfde variabelen gecontroleerd worden.

Abstract (English version)

The ideal technique for closure of the cleft palate hasn't been found yet. The use of intravelar palatoplasty has been suggested in recent literature. Currently the Sommerlad technique, including a radical intravelar veloplasty, is being applied in the University Hospital of Ghent. The results of this technique have never been described as detailed, as they are in this paper. In this dissertation the speech of sixteen patients with cleft palate (average age: 5.4 year) is described and compared with the speech results of a control group, controlled for age (average age: 5.3 year) and gender. The control group consists of children without a cleft palate or other craniofacial anomalies and without cognitive and/or motor delays. Patients with a cleft palate had a significant minor speech intelligibility and acceptability and a higher occurrence (nasal emission) and severity (hypernasality and nasal emission) of resonance disorders in comparison with the control group. Significantly higher nasalance values and lower NSI values were also found in the patient group. The speech of children with cleft palate contained significantly more compensatory and obligatory articulatory disorders, substitutions and omissions and several phonological processes were more present in comparison with the control group. These results were to the utmost content similar to previous results reported after primary palatoplasty following Sommerlad. A comparison with results after other techniques wasn't possible due to differences in methodology. Ideally a large investigation including patients after different techniques should be set up, using the same protocol to describe the results of these techniques and controlling for the same variables, to be able to point out the most ideal technique.

Inhoudsopgave

1. Inleiding	7
1.1. Schisis en articulatie	7
1.2. Behandeling schisis	8
1.3. Palatoplastiek: bestaande technieken	10
1.4. Palatoplastiek volgens Sommerlad	16
1.5. Spraakoutcome na primaire en secundaire palatoplastiek volgens Sommerlad	18
2. Methodologie	25
2.1. Proefpersonen	25
2.2. Werkwijze	29
2.2.1. Testafname.....	29
2.2.2. Anamnesegeprek.....	30
2.2.3. Dataverzameling	30
2.2.4. Evaluatie en analyse van de verzamelde data.....	32
Perceptuele beoordeling van spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid.....	33
Perceptuele beoordeling van nasaliteit.....	34
Articulatie.....	36
2.2.5. Statistische verwerking.....	38

3. Resultaten	39
3.1. Spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid	39
3.2. Perceptuele beoordeling van nasaliteit	40
Onderzoeksgroep.....	40
Controlegroep.....	40
Het verschil tussen onderzoeks- en controlegroep	41
3.3. Objectieve beoordeling van nasaliteit	41
3.3.1. Nasometrie	41
3.3.2. Nasality severity index	43
3.4. Articulatie	44
3.4.1. Compensatoire en obligatoire stoornissen	44
3.4.2. Fonetische stoornissen.....	46
Post-hoc analyse: omissies	47
Post-hoc analyse: substituties.....	48
3.4.3. Fonologische stoornissen	49
4. Discussie	52
5. Besluit	65
6. Referentielijst	66
7. Appendix	71

1. Inleiding

1.1. Schisis en articulatie

Schisis, een spleet in lip, kaak en/of verhemelte, is een relatief vaak voorkomende congenitale stoornis met een incidentie van 1 op 600 (Sommerlad, 2002). In België worden ongeveer honderdzestig kinderen per jaar geboren met schisis (De Pauw, 2014). Naast de voedingsproblematiek bij neonaten, gekenmerkt door o.a. nasale regurgitatie en zuigproblemen (Reid, 2004), worden spraakstoornissen gerapporteerd bij deze kinderen (Kummer, 2011). Ook wordt er in de literatuur notie gemaakt van gehoorstoornissen (meestal als gevolg van een deficiënte middenoorfunctie) (Schönweiler et al., 1999), malocclusies, een verminderde en/of verstoorde maxillofaciale groei en psychische problemen (Sandy et al., 1998). De etiologie van deze stoornis is multifactorieel: zowel genetische invloeden als omgevingsfactoren hebben hierop een impact (Patel et al., 2014).

De spraak van kinderen met schisis wordt gekenmerkt door een afwijkende resonantie en articulatie als gevolg van velofaryngale stoornissen, gezien de spleet voorkomt ter hoogte van de resonantieruimte (Luyten, Bettens, Hodges, Vermeersch & Van Lierde, 2012). Deze afwijkende spraak kan worden onderverdeeld in obligatoire en compensatoire stoornissen (Kummer, 2008). Bij een obligatoire stoornis is er een distorsie van de klank of een afwijkende resonantie als gevolg van een abnormale structuur. Bij dit type stoornissen is de articulatieplaats correct terwijl de patiënt de klank niet correct kan produceren (Kummer, 2011). Bijgevolg kunnen bepaalde obligatoire stoornissen enkel geëlimineerd worden door correctie van de structuren (Kummer, 2011). Zowel resonantiestoornissen als bepaalde articulatorische stoornissen zijn obligatoir. “De meest voorkomende obligatoire stoornissen zijn de aanwezigheid van hypernasaliteit, nasale emissie of andere resonantiestoornissen, de productie van plosieven met verminderde intraorale drukopbouw en verminderde fricatie bij de fricatieven” (Luyten et al., 2012, p.85).

Niet alle resonantiestoornissen zijn echter obligatoir. Zo kan bij een schisispatiënt een afwijkende resonantie opgemerkt worden terwijl er een normale sluiting van het velofaryngale mechanisme is en er verder geen fistels zijn. Articulatorisch kan compensatoir een wijziging van de articulatieplaats optreden, namelijk een meer naar achteren gelegen articulatieplaats (Kuehn en Moller, 2000). Voorbeelden van zo'n compensatoire stoornissen zijn faryngaal of laryngaal geproduceerde plosieven en fricatieven en glottale stopconsonanten (Kummer, 2008). Compensatoire stoornissen worden best aangepakt met logopedische therapie, meer bepaald met aandacht voor resonantie of articulatie (Kummer, 2011; Kuehn & Moller, 2000).

1.2. Behandeling schisis

Een schisisproblematiek wordt best multidisciplinair benaderd (Sommerlad, 2002). In het schisisteam van het universitair ziekenhuis, U.Z., Gent zijn de volgende disciplines vertegenwoordigd: stomatologie en maxillofaciale heelkunde, hoofd- en halschirurgie, plastische heelkunde, medische genetica, bijzondere tandheelkunde, neus- keel- en oorheelkunde, orthodontie, logopedie, psychologie en sociale verpleegkunde.

Naast ondersteuning bij voeding ligt neonataal de nadruk op de chirurgische aanpak. Met primaire chirurgie (sluiting van zowel lip als verhemelte) moet een optimale functie bekomen worden (Sommerlad, 2002), meer bepaald is het doel van palatoplastiek "het scheiden van de orale en nasale caviteiten, het verzorgen van een functioneel velofaryngaal mechanisme opdat de spraakontwikkeling en functie van de buis van Eustachius optimaal zijn en het minimaliseren van elk negatief effect op de dentomaxillofaciale groei" (Andrades et al., 2008, p.1121). Het uiteindelijke doel van de multidisciplinaire aanpak is het goed functioneren in de maatschappij (John, Sell, Sweeny, Harding-Bell & Williams, 2006), met belangrijke aandacht voor de spraakoutcome en maxillofaciale groei (Leow & Lun-Jou, 2007; Agrawal, 2009).

Het behandelingsplan van een kind met schisis beperkt zich niet alleen tot een neonatale aanpak. Het tijdstip waarop een bepaalde discipline intervenueert wordt bepaald door de ontwikkeling van het kind. Uiteraard wordt het behandelingsplan steeds individueel opgesteld, afhankelijk van de noden. In de appendix, bijlage 1, is een schematisch overzicht terug te vinden, opgesteld door het schisisteam van het U.Z. Gent, waarin duidelijk wordt op welk tijdstip een bepaalde discipline intervenueert.

Afhankelijk van het type schisis en de uitgebreidheid ervan worden verschillende chirurgische ingrepen gebruikt. Uit het Eurocleft project (Shaw et al., 2001) kwam naar voor dat 42.8% van de procedures in Europa als volgt gaat: tijdens de eerste operatie wordt een lipsluiting uitgevoerd, gevolgd door een sluiting van zowel het harde als het zachte verhemelte (palatoplastiek) tijdens een tweede operatie. Wel werd benadrukt dat er in Europa geen uniform protocol gehanteerd wordt: zeventien verschillende sequenties bleken in Europa te worden toegepast. Deze variabele aanpak werd ook door Sommerlad (2002, p.46) omschreven: “het protocol en sequentie van de behandeling varieert sterk bij patiënten met schisis”. Zo opteren sommige chirurgen ervoor in een eerste stadium het zachte verhemelte aan te pakken en pas later het harde verhemelte om op die manier een normale midfaciale groei te bekomen (Leow & Lun-Jou, 2007).

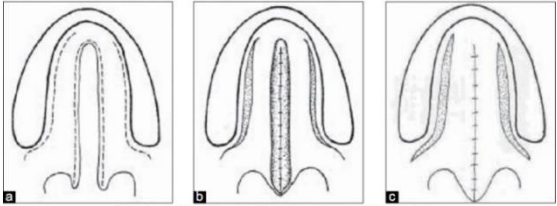
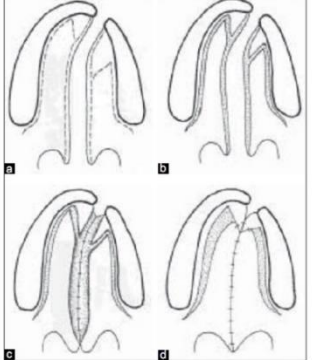
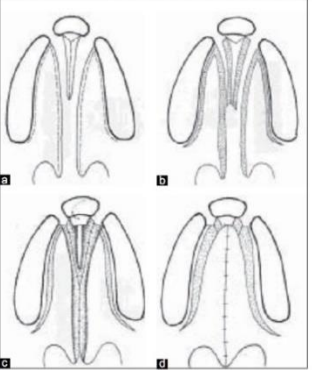
In de literatuur was heel wat discussie omtrent de optimale timing van palatoplastiek: voorstanders van een vroege sluiting van het verhemelte gaven een betere spraakontwikkeling als argument. Anderen prefereerden laattijdige sluiting om zo de midfaciale groei niet te belemmeren. Uit de literatuurreview van Leow & Lun-Jou (2007) bleek dat de algemene consensus het uitvoeren van palatoplastiek voor de leeftijd van 18 maanden is. Deze consensus geeft voorrang aan een normale spraakontwikkeling; “de uitdaging een normale spraak te bekomen bij kinderen die op een latere leeftijd palatoplastiek ondergingen is veel groter dan het bekomen van een correcte occlusie door een combinatie van orthodontische behandeling en orthognatische chirurgie” (Leow & Lun-Jou, 2007, p. 341). Verdere verdieping omtrent timing van palatoplastiek valt buiten het bestek van deze masterproef.

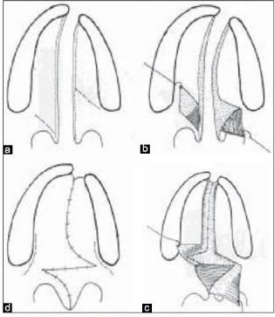
1.3. Palatoplastiek: bestaande technieken

Al sinds de 19^e eeuw wordt nagedacht over mogelijke chirurgische technieken om de lip-, kaak- en/of verhemeltespleet te sluiten bij patiënten met schisis (Morley, 1954). Gedurende de geschiedenis was er een groeiende belangstelling voor functieherstel bij sluiting van een schisis. Meer en meer werd het resultaat op gebied van spraak, met in het bijzonder articulatie en resonantie, belangrijker (Morley, 1954). Vandaag de dag wordt de efficiëntie van een sluiting van het palatum voornamelijk beoordeeld op basis van spraakresultaten zoals resonantie en articulatie, en op het fysiologisch herstel van de weefsels zoals de velofaryngale sluiting.

Er bestaan momenteel heel wat verschillende technieken voor de sluiting van een gespleten hard en/of zacht verhemelte. Tabel 1 geeft een overzicht van de voornaamste technieken ter sluiting van het verhemelte, al is het overzicht zeker niet volledig. Elke methode heeft kenmerkende onderdelen in de procedure die ook de voor- en nadelen van de techniek impliceren. Bovendien bestaan er van elke techniek talrijke modificaties. Heel wat onderzoek werd reeds uitgevoerd om de effecten van elke techniek in kaart te brengen. Uiteindelijk is het de chirurg die op basis van onderzoeksresultaten en klinische ervaring de gepaste techniek kiest (Agrawal, 2009).

Tabel 1: Overzicht van de voornaamste technieken voor verhemeltesluiting (hard en/of zacht verhemelte) (Moore, Lawrence, Ptak & Trier, 1988; Leow & Lun-Jou, 2007; Agrawal, 2009; Wiet, Biavati & Rocha-Worley, 2013; Patel, 2014).

Sluiting van het harde palatum	
<p>Von Langenbeck palatoplastiek</p>	<p>Kenmerkend aan de techniek: mediale sluiting met bipedculaire mucoperiostale flappen van hard en zacht verhemelte, eventueel in combinatie met laterale relaxatie-incisie (ter vereenvoudiging van de sluiting).</p> <p>Voordelen: eenvoudig en minder dissectie</p> <p>Nadelen: anterieure fistula's; geen verlenging van het palatum (inferieure spraak); luchtwegobstructie tijdens spraak.</p> <p>Opmerking: de basisprincipes van deze techniek werden overgenomen voor andere technieken. Heel wat modificaties van de Langenbeckmethode zijn beschreven.</p> <div style="text-align: right;">  <p style="font-size: small;">Figure 1a-c: Line diagram of von Langenbeck palatoplasty for an isolated complete cleft palate</p> </div>
<p>Figuur 1: Techniek Von Langenbeck (Agrawal, K., 2009)</p>	
<p>Veau-Wardill-Kilner palatoplastiek (VY Pushback)</p>	<p>Kenmerkend aan de techniek: V tot Y vormige incisie tot op het palatumbot; nasale en orale mucoperiostale flappen met dissectie van bloedvaten; retropositie en repair van levator veli palatini</p> <p>Voordelen: verlenging van het palatum en retropositie van de m. levator veli palatini</p> <p>Nadelen: blootstellen van het palatumbot zorgt voor een negatieve invloed op midfaciale groei. Hoger voorkomen van fistula's.</p> <div style="text-align: right;">  <p style="font-size: small;">Figure 2a-d: Line diagram showing the Veau-Wardill-Kilner technique of palate repair in a unilateral cleft lip and palate</p> </div>
<p>Figuur 2 Veau-Wardill-Kilner palatoplastiek (Agrawal, K., 2009)</p>	
<p>Palatoplastiek volgens Bardach (2-flap palatoplasty)</p>	<p>Kenmerkend aan de techniek: mucoperiostale flappen bepaald door de palatale bloedvaten; incisie langs de rand van de spleet en alveolus</p> <p>Voordelen: minimale blootlegging bot</p> <p>Nadelen: geen additionele verlenging om tot normale spraakproductie te komen</p> <p>Opmerking: latere modificaties van deze techniek houden een meer extensieve dissectie in en verlenging van relaxatie-incisies gezien de originele techniek enkel geschikt is voor vrij nauwe spleten.</p> <div style="text-align: right;">  <p style="font-size: small;">Figure 3a-d: Line diagram showing Bardach two-flap technique of palatoplasty in a bilateral cleft lip and palate</p> </div>
<p>Figuur 3: Palatoplastiek volgens Bardach (Agrawal, K., 2009)</p>	

Sluiting van het zachte verhemelte	
<p>Palatoplastiek volgens Furlow (double opposing Z-palatoplasty)</p>	<p>Kenmerkend aan de techniek: orale en nasale musculomucosale flappen worden posterieur gebracht, orale en nasale mucosale flappen anterieur; retropositie van de velaire spieren; laterale relaxatie-incisies worden vermeden.</p> <p>Voordelen: verlengd palatum</p> <p>Nadelen: fistulaformatie</p> <div style="text-align: right;">  <p style="font-size: small;">Figure 4e-d: Line diagram showing Furlow Z-plasty technique of palatoplasty in a unilateral cleft lip and palate patient</p> </div>
<p>Figuur 4: Palatoplastiek volgens Furlow (Agrawal, K., 2009)</p>	
<p>Intravelaire palatoplastiek (levator muscle repositioning)</p>	<p>Kenmerkend aan de techniek: dissectie van m. levator veli palatini van de posterieure rand van het harde palatum om functie te herstellen</p> <p>Voordelen: Betere velofaryngale competentie en functie van de buis van Eustachius, minder nood aan een secundaire faryngale flap</p> <p>Nadelen: meer nood aan bloedtransfusies</p>
<p>Palatoplastiek volgens Sommerlad</p>	<p>Kenmerkend aan de techniek: minimale dissectie van het harde palatum in combinatie met radicale retropositie van de velaire musculatuur, tensor tenotomie en herstel van de m. levator slinger</p> <p>Voordelen: minder nood aan secundaire faryngale flap, significant minder velofaryngale insufficiëntie</p> <p>Nadelen: fistula's als gevolg van het vermijden van relaxatie-incisies</p> <p>Opmerking: de techniek van Sommerlad kan ondergebracht worden in de categorie van technieken voor intravelaire palatoplastiek</p>

Uit de literatuur blijkt dat de evaluatie van het succes van een type palatoplastiek vaak gebeurt door de postoperatieve resultaten onderling te vergelijken (McWilliams et al., 1996; Van Lierde, Monstrey, Bonte, Van Cauwenberge & Vinck, 2004; Koh, Kang & Seo, 2009), en minder ten opzichte van een controlegroep (Luyten et al., 2013, 2014). Op die manier kan worden nagegaan welke techniek de voorkeur draagt om toegepast te worden in de klinische praktijk. Bij deze evaluatie kunnen verscheidene parameters in beschouwing genomen worden. De meest relevante parameters zijn spraakoutcome en medische complicaties zoals fistulaformatie, nood aan secundaire ingrepen en postoperatieve otitis media (Moore et al., 1988; Leow & Lun-Jou, 2008). Een belangrijk doel bij het sluiten van een gespleten verhemelte is het bekomen van functionele spraak met een goede spraakverstaanbaarheid (Andrades et al., 2008). Vanuit dat opzicht is het dan ook evident dat spraakoutcome, en in het bijzonder resonantie, een belangrijk deel van het onderzoek vormt omtrent de resultaten na palatoplastiek. Gezien deze chirurgische technieken zich onderling onderscheiden door bepaalde chirurgische specificaties moeten ook de complicaties die ze met zich meedragen, geëvalueerd worden.

Mc Williams et al. (1996) toonde aan dat patiënten na een palatoplastiek volgens Furlow significant betere spraakresultaten hadden dan anderen (Wardill-Kilnerpalatoplastiek, Langenbecktechniek en twee niet verder gespecificeerde operatietechnieken). Zo zouden patiënten na een Furlowpalatoplastiek significant minder hypernasaliteit vertonen en waren zowel de articulatie- als de totaalscores van de spraak significant beter. Bovendien bleek dat bij gebruik van deze techniek significant minder patiënten nood hadden aan een secundaire faryngale flap. Spauwen, Goorhuis-Brouwer en Schutte (1992) vonden een significant betere velofaryngale competentie bij patiënten na Furlowpalatoplastiek dan bij patiënten na palatoplastiek van Langenbeck. Beide technieken werden in dit onderzoek uitgevoerd in twee fases. Wong, Courtemanche, Tisington & Robinson (1993) beschreven een significant betere nasaliteit na de palatoplastiek volgens Furlow dan na de VY-pushback palatoplastiek.

Daarentegen werd in een vergelijking tussen de Furlow- en Wardill-Kilnertechniek door Van Lierde et al. (2004) significant meer hypernasaliteit gerapporteerd na de Furlowtechniek. Belangrijk hierbij te vermelden is dat de Wardill-Kilnertechniek in één fase werd uitgevoerd, terwijl de Furlowpalatoplastiek werd toegepast in twee fases. Ook bij analyse van resonantie en velofaryngale competentie na toepassing van de Furlowtechniek werden (pre- en) postoperatief goede resultaten gerapporteerd. Furlow (1986) bekam bij achttien van de twintig patiënten velofaryngale competentie postoperatief. Door Sie, Tampakopoulou, Sorom, Gruss en Eblen (2001) werd eveneens een significante verbetering van de velofaryngale competentie gevonden na palatoplastiek volgens Furlow. Deze vaststelling werd ook gemaakt door Perkins, Lewis, Gruss, Eblen en Sie (2005). Deze vonden een verbetering van de velofaryngale competentie bij 72% van de patiënten (148 patiënten werden onderzocht). Onderzoek van Perkins et al. (2005) toonde een belangrijk verband aan tussen de grootte van de afstand van het zacht velum met de posterieure farynxwand bij velofaryngale sluiting (velopharyngeal gap size) en post-operatieve velofaryngale insufficiëntie.

Uit onderzoek van Van Demark en Hardin (1985) bleek dat patiënten die een primaire palatoplastiek volgens von Langenbeck ondergingen, een grotere kans hebben op secundaire palatoplastiek, namelijk een faryngale flap, dan patiënten met een schisis gesloten met de Wardill pushback-techniek. Later onderzoek (Hardin-Jones, Brown, Van Demark & Morris, 1993) vond gelijke spraakresultaten bij zowel de techniek van von Langenbeck als Wardill en Bardach. Van Lierde et al. (2010) beschreef een significant mindere spraakverstaanbaarheid van kinderen na een Wardill-Killnerpalatoplastiek in vergelijking met hun controlegroep. Opvallend was wel dat dit enkel gold voor spraakverstaanbaarheid op woord- en zinsniveau. Bij het vertellen van verhalen bleek de spraakverstaanbaarheid van de schisispatiëntjes gelijkaardig aan die van leeftijdsgenootjes zonder schisis.

Uit bovenstaand beknopt overzicht blijkt dat er vaak geen eenduidig antwoord is over de meest optimale techniek ter sluiting van het verhemelte. Algemeen blijkt de chirurgische techniek weldegelijk een belangrijke variabele te zijn voor de spraakoutcome. Verscheidene andere variabelen kunnen bijkomend de resultaten beïnvloeden zoals: gender (Schönweiler et al., 1999), tijdstip van palatoplastiek (Leow & Lun-Jou, 2008), type schisis (Schönweiler et al., 1999; Hardin-Jones et al., 1993) en ervaring van de chirurg (Bearn et al., 2001). Concluderend wordt volgens Leow & Lun-Jou (2008) de Furlowpalatoplastiek tegenwoordig het vaakst uitgevoerd. Het gebruik ervan wordt volgens deze auteur gerechtvaardigd door zowel de goede spraakoutcome als de positieve invloed op de maxillofaciale groei die de techniek met zich meebrengt.

Desalniettemin blijken sommige patiënten na toepassing van de palatoplastiek volgens Furlow nog spraakproblemen te vertonen. Een techniek ter sluiting van het palatum met optimale outcome blijkt dus nog niet gevonden te zijn. Een mogelijke oplossing hiervoor is, volgens de literatuur, de toevoeging van intravelaire palatoplastiek, meer bepaald de palatoplastiek volgens Sommerlad.

1.4. Palatoplastiek volgens Sommerlad

Met de palatoplastiek volgens Sommerlad wordt gepoogd de normale anatomie te benaderen en een zo optimaal mogelijke functie van het velum te bekomen. Doel is een betere extensie van het weke verhemelte waardoor de velofaryngale sluiting verbeterd wordt (Sommerlad, 2003). Hiertoe werden verschillende kenmerkende onderdelen in de procedure beschreven door Sommerlad (2003).

De Sommerladtechniek, beschreven door Sommerlad (2003), wordt gekenmerkt door een minimale dissectie van het harde palatum gecombineerd met een radicale retropositie van de velaire musculatuur, een tensor tenotomie en het herstel van de m. levator slinger. De m. levator veli palatini is de belangrijkste spier voor de velofaryngale sluiting. Deze zorgt namelijk voor de retractie en heffing van het velum richting de posterieure farynxwand (Perry, 2011). Doordat de m. levator veli palatini gepaard is en deze twee delen samenkomen t.h.v. het zachte verhemelte, wordt deze in de literatuur beschreven als de m. levator slinger. Een tensor tenotomie, het doorsnijden van de pees van de m. tensor veli palatini, wordt door Sommerlad (2003) aanbevolen ter vereenvoudiging van de sluiting, doordat op die manier de spanning verminderd wordt, en ter vermijding van laterale relaxatieincisies.

Er wordt gestart met een incisie langs de randen van de spleet en een scheiding van de orale en nasale mucosa. Vervolgens wordt de posterieure wand van het harde palatum blootgelegd. Alvorens de musculatuur los te maken en te retropositioneren wordt eerst de nasale mucosalaag blootgelegd en vervolgens gehecht. Na het uitvoeren van een tensor tenotomie, wordt de orale mucosa losgemaakt van de velaire musculatuur. Vervolgens wordt de velaire musculatuur meer naar achteren gebracht door een rotatie over de middellijn. De palatoplastiek houdt een aparte hechting van de m. levator palatini in. Tot slot wordt de orale mucosa gehecht. Origineel wordt deze palatoplastiek uitgevoerd op de leeftijd van zes maanden (Sommerlad, 2003). In het U.Z. Gent wordt de palatoplastiek uitgevoerd binnen de range van zeven tot vijftien maanden, afhankelijk van het type spleet (Bonte, 2014).

In het kader van een re-repair kan de Sommerladtechniek ook secundair worden toegepast bij patiënten die reeds een sluiting van het palatum ondergingen met een andere techniek, maar die persisterende velofaryngale insufficiëntie vertonen (Sommerlad, 1994; Sommerlad 2002). Bij een re-repair volgens Sommerlad (1994, 2003) wordt secundair een radicale retropositie van de velaire musculatuur uitgevoerd in combinatie met de bovenbeschreven kenmerken eigen aan de Sommerladtechniek (Sommerlad, 2003). De sluiting van het verhemelte werd echter reeds uitgevoerd voor de re-repair. Deze secundaire aanpak wordt bevestigd door Yang et al. (2013, p.923): “Eén van de belangrijkste doelen van palatoplastiek bij schisispatiënten is het verkrijgen van een adequate velofaryngale sluiting opdat normale spraak bekomen wordt. Nochtans vertoont 5% tot 45% van de patiënten na primaire palatoplastiek velofaryngale insufficiëntie waardoor een secundaire operatie nodig is, ter verbetering van de spraak.” Met een re-repair zou in 80% van de gevallen faryngoplastiek, die gepaard gaat met een hogere morbiditeit van hyponasaliteit, chronisch mondademen en slaapapneu (Sommerlad, 1994), vermeden worden (Sommerlad, 2003).

1.5. Spraakoutcome na primaire en secundaire palatoplastiek volgens Sommerlad

In tabel 2 wordt een overzicht gegeven van de beschikbare spraakresultaten na zowel primaire als secundaire toepassing van de palatoplastiek volgens Sommerlad. Opvallend is dat alle studies een verbetering van nasaliteitsstoornissen aantonen.

In de studies van Sommerlad (1994, 2002, 2004) werden nasaliteitsstoornissen en spraakverstaanbaarheid perceptueel beoordeeld. Sommerlad et al. (1994) toonde een significante daling aan van de scores voor nasale emissie en hypernasaliteit na het uitvoeren van een re-repair. Onderzoek van Sommerlad et al. (2002) bewees een significante verbetering van hypernasaliteit, nasale emissie, nasale turbulentie en spraakverstaanbaarheid na een re-repair van Sommerlad m.b.v. een operatiemicroscoop. Belangrijke opmerking bij deze resultaten is dat bij 84% van de proefpersonen reeds een vorm van spierdissectie en/of retropositie was uitgevoerd tijdens voorgaande operatie(s). Ook bij patiënten met een submuceuze verhemeltespleet werd na primaire veloplastiek volgens Sommerlad een verbetering van de mate van hypernasaliteit en nasale emissie gevonden (Sommerlad et al., 2004).

Andrades et al. (2008) toonde een significant verbeterde spraakoutcome aan na toevoeging van radicale intravelaire veloplastie volgens Sommerlad (2003) aan de palatoplastiek volgens Bardach. Een significant verminderd voorkomen van hypernasaliteit, nasale emissie en articulatiestoornissen werd bekomen en toegeschreven aan het toevoegen van deze radicale intravelaire veloplastie. In een vergelijking van het Malekprotocol (zonder intravelaire veloplastie) en het Talmantprotocol (met intravelaire veloplastie) van Doucet et al. (2013) werden eveneens resultaten gevonden in het voordeel van deze intravelaire veloplastie (naar Sommerlad, 2003). Een significant betere spraakverstaanbaarheid en objectief beoordeelde nasale emissie werden gevonden na toepassing van het Talmantprotocol. Articulatorisch bleken patiënten na het Talmantprotocol minder vaak een achterstand in de articulatoire ontwikkeling te hebben en hadden ze reeds meer consonanten verworven dan patiënten na het Malekprotocol. Dit protocol resulteerde bovendien in een significant verminderd voorkomen van velofaryngale insufficiëntie.

Yang et al. (2013) bevestigde voorgaande resultaten: 59.6 % van de patiënten die een primaire palatoplastiek volgens Sommerlad ondergingen, hadden velofaryngale sufficiëntie. In dit onderzoek werd velofaryngale (in)sufficiëntie perceptueel beoordeeld in combinatie met (50% van de gevallen) de objectieve beoordeling van videonasofaryngoscopie.

In de onderzoeken van Luyten et al. (2013, 2014) werd voor het eerst de articulatie na palatoplastiek volgens Sommerlad meer in detail in kaart gebracht. In 2013 toonde Luyten et al. aan dat bij kinderen met schisis, die een primaire palatoplastiek volgens Sommerlad ondergingen, omissies, distorsies en substituties meer voorkomen dan bij kinderen zonder schisis. Bij al deze Oegandese schisispatiënten was bovendien minstens één fonologisch proces aanwezig. Daarentegen was er bij kinderen zonder schisis slechts in 55% van de gevallen minstens één fonologisch proces aanwezig. Ook op vlak van nasale resonantie (perceptueel beoordeeld) verschilden kinderen met schisis van de controlegroep: 82% van de schisispatiënten vertoonde hypernasaliteit, en bij 73% was nasale emissie aanwezig. Daarentegen werden geen significante verschillen gevonden tussen de objectieve nasaliteitswaarden (bekomen met de Nasometer) van onderzoeks- en controlegroep.

In 2014 werd door Luyten et al. een vergelijking gemaakt tussen Oegandese en Belgische proefpersonen met schisis, om zo het effect van palatoplastiek, volgens de Sommerladtechniek, na te gaan uitgevoerd voor (Oeganda) en na de leeftijd van 6 maanden (België). De Oegandese groep beheerste 89% van de consonanten en 92% van de patiënten had minstens 1 fonetische stoornis, de Belgische groep scoorde respectievelijk 81% en 100%. Alle Oegandese patiënten hadden minstens 1 fonologische stoornis, tegenover slechts 75% van de Belgische groep. Een normale resonantie werd in 67% van de gevallen geobserveerd bij de Oegandese groep. In de Belgische groep was hypernasaliteit afwezig in 50% van de gevallen, nasale emissie of turbulentie werd in 67% van de gevallen niet geobserveerd.

Tabel 2: literatuuroverzicht van de bestaande resultaten aangaande spraak na primaire of secundaire palatoplastiek volgens Sommerlad in chronologische volgorde

Aantal proefpersonen per type schisis	Chirurgische techniek en timing	Spraakonderzoek	Leeftijd en tijdstip spraakonderzoek	Controlegroep	Spraakresultaten
Sommerlad et al. (1994)					
3 BCGPS 9 UCGPS 20 PS	Re-repair van Sommerlad (secundaire palatoplastiek) Gemiddelde leeftijd: 14.4 jaar Leeftijdswaarde: 4-37 jaar	Perceptuele beoordeling van nasaliteit a.d.h.v. 4-puntenschaal (0 tot 3) voor nasale emissie en hypernasaliteit	Pre- en postoperatief resonantieonderzoek: geen informatie tijdstip pre-operatief onderzoek Post-operatief resonantieonderzoek niet vroeger dan 6 maanden na operatie	Nee	De gemiddelde scores voor nasale emissie (25/32 patiënten) en hypernasaliteit (31/32 patiënten) lagen 0.3-2.0 punten lager postoperatief in vergelijking met resultaten preoperatief.
Sommerlad et al. (2002)					
10 BCGPS 26 UCGPS 45 PS 4 SMPS	Re-repair van Sommerlad m.b.v. de microscoop (secundaire palatoplastiek) Gemiddelde leeftijd: 10.8 jaar Leeftijdswaarde: 3.2-48.8 jaar	Cleft Audit Protocol for Speech (CAPS) (Harding, Harland & Razzell, 1997)	Pre- en postoperatief resonantieonderzoek: geen informatie weergegeven. Post-operatief spraakonderzoek niet vroeger dan 6 maanden na operatie	Nee	Significante verbetering hypernasaliteit, nasale emissie, nasale turbulentie en spraakverstaanbaarheid. 4.7% milde consistente hyponasaliteit; 82.4% normale nasaliteit en airflow of milde en inconsistente hypernasaliteit, nasale emissie of turbulentie.
Sommerlad et al. (2004)					
40 SMPS	Primaire veloplastiek met radicale spiercorrectie (naar Sommerlad 1994 en 2002) Gemiddelde leeftijd: 8,2 jaar Leeftijdswaarde: 3-27 jaar	CAPS (nasaliteit en nasale emissie) (Harding et al., 1997)	Pre- en postoperatief resonantieonderzoek: geen informatie weergegeven. Post-operatief spraakonderzoek niet vroeger dan 6 maanden na operatie	Nee	85% verbetering nasaliteit: 33% normale nasaliteit, 30% milde occasionele hypernasaliteit. 63% verbetering nasale emissie: 68% afwezigheid of milde/inconsistente nasale emissie.

Aantal proefpersonen per type schisis	Chirurgische techniek en timing	Spraakonderzoek	Leeftijd en tijdstip spraakonderzoek	Controlegroep	Spraakresultaten
Andrades et al. (2008)					
13 BCGPS 41 UCGPS 49 PS Spraakonderzoek werd uitgevoerd bij 30 van deze patiënten (type schisis niet verder beschreven)	Palatoplastiek volgens Bardach in combinatie met radicale intravelaire veloplastie beschreven door Sommerlad Gemiddelde leeftijd (totale onderzoeksgroep): 12.6 maanden Leeftijdswaarde: niet vermeld	Perceptuele en objectieve beoordeling (m.b.v. Nasometer) van nasale resonantie Perceptuele beoordeling van articulatie: Goldman-Fristoe articulation test Perceptuele beoordeling van spraakverstaanbaarheid	Post-operatief resonantie- en articulatieonderzoek: gemiddelde leeftijd 3.1 jaar	Nee	Significant verminderde hypernasaliteit na radicale veloplastie, afwezig bij 33.3% van de patiënten Significant minder nasale emissie na radicale veloplastie, afwezig bij 46.7% van de patiënten Significant minder articulatorische fouten na radicale veloplastie 40% van de patiënten had velofaryngale sufficiëntie post-operatief (significant)
Doucet et al. (2013)					
20 UCGPS	Protocol van Talmant: Primaire cheilorhinoplastie en intravelaire veloplastie (Sommerlad, 2003): gemiddelde leeftijd 6 maanden Leeftijdswaarde: niet vermeld Sluiting van het harde palatum: gemiddelde leeftijd 17.8 maanden Leeftijdswaarde: niet vermeld	Perceptuele beoordeling van nasaliteit en spraakverstaanbaarheid volgens Henningson et al. (2008) Perceptuele beoordeling van articulatie Perceptuele beoordeling van velofaryngale insufficiëntie: Borel-Maisonny-schaal Objectieve beoordeling nasale emissie: aerofonoscoop (een toestel dat de orale en nasale luchtstroom meet m.b.v. drie sensoren: twee t.h.v. elke nostril en één t.h.v. de mond)	Post-operatief resonantie- en articulatieonderzoek: gemiddelde leeftijd 3.3 jaar	Nee	Significant minder nasale emissie (objectief) na Talmantprotocol dan na Malekprotocol (geen intravelaire veloplastie) Vertraging van de ontwikkeling van articulatie was significant vaker na het Malekprotocol. Patiënten na het Talmantprotocol hadden significant meer consonanten verworven. Significant betere spraakverstaanbaarheid na Talmantprotocol Significant minder velofaryngale insufficiëntie na toepassing van intravelaire veloplastie (15% met, 55% zonder)

Aantal proefpersonen per type schisis	Chirurgische techniek en timing	Spraakonderzoek	Leeftijd en tijdstip spraakonderzoek	Controlegroep	Spraakresultaten
Yang et al. (2013)					
62 BCGPS 170 UCGPS 256 IPS 15 SMPS	Primaire palatoplastiek volgens Sommerlad Gemiddelde leeftijd: 3.7 jaar Leeftijdswaarde: 10 maand- 27 jaar	Resonantie: Perceptuele beoordeling + videonasofaryngoscopie (50%)	Post-operatief resonantieonderzoek: 6 maand – 2 jaar na operatie	Nee	59.6% velofaryngale competentie 3.78% marginale velofaryngale competentie
Luyten et al. (2013)					
1 BCGPS 10 UCGPS	Primaire palatoplastiek volgens Sommerlad Gemiddelde leeftijd: 3.4 maand	Resonantie: perceptueel (volgens John et al., 2008) en objectief (nasometrie) Articulatie: Photo Articulation Test – 3rd edition	Postoperatief resonantie- en articulatieonderzoek: gemiddeld 4.9 jaar	Ja (gematcht voor leeftijd en geslacht) 22 controlepersonen: gemiddelde leeftijd 4.10jaar	Onderzoeksgroep: -meer omissies, distorsies en substituties dan controlegroep -meer voorkomen van compensatoire articulatie dan controlegroep -100% had minstens 1 fonologisch proces Controlegroep: 55% -82% hypernasaliteit, 73% nasale emissie
Luyten et al. (2014)					
Oegandese groep (OG): 1 BCGPS 10 UCGPS 1 PS Belgische groep (BG): 1 BCGPS 10 UCGPS 1 PS	Primaire palatoplastiek volgens Sommerlad Gemiddelde leeftijd OG: 3.3 maand Leeftijdswaarde OG: 2-6 maand Gemiddelde leeftijd BG: 11.1 maand Leeftijdswaarde BG: 9-15 maand	Articulatie: plaatjesbenoemtest Resonantie: perceptueel (volgens John et al., 2008) en objectief (nasometrie)	Postoperatief resonantie- en articulatieonderzoek: OG: gemiddeld 4.9 jaar BG: gemiddeld 4.7 jaar	Ja (gematcht voor leeftijd en geslacht) 12 Oegandese controlepersonen: gemiddelde leeftijd 4.10 jaar 12 Belgische controlepersonen: Gemiddelde leeftijd 4.6 jaar	OG beheerste 89% van de consonanten, BG 81%. De BG had minstens 1 fonetische stoornis, terwijl in de OG maar 92%. Alle Oegandese patiënten hadden minstens 1 fonologische stoornis, in de Belgische groep slechts 75%. OG 67% normale resonantie. BG 50% geen hypernasaliteit, 67% geen nasale emissie/turbulentie.

Gebruikte afkortingen:

- BCGPS: bilaterale cheilognatopalatoschisis
- UCGPS: unilaterale cheilognatopalatoschisis
- PS: palatoschisis
- SMPS: submuzeuze palatoschisis
- IPS: incomplete palatoschisis

Uit de bovenstaand beschreven literatuur is een groeiende belangstelling voor het toepassen van de techniek van Sommerlad ter bevordering van de spraakoutcome en ter vermindering van de nood aan secundaire chirurgie te merken. Er kan door de chirurg geopteerd worden de beschreven techniek van Sommerlad (2003) primair toe te passen (Sommerlad, 2004; Yang et al., 2013; Luyten et al., 2013; Luyten et al., 2014), in combinatie met andere technieken (Andrades et al., 2008), verwerkt in een protocol volgens de ervaring en overtuiging van de chirurg (Doucet et al., 2013) of ten slotte kan secundair een re-repair uitgevoerd worden (Sommerlad, 1994; Sommerlad, 2002).

Ondanks de significante impact die de techniek van Sommerlad kan hebben op post-operatieve resultaten, is de literatuur hieromtrent eerder beperkt. Vaak werd enkel de nasaliteit pre- en postoperatief in kaart gebracht (Sommerlad, 1994, 2002, 2004; Yang et al., 2013) terwijl in de literatuur reeds duidelijk de impact van schisis op articulatie werd beschreven (Kummer, 2008, 2011; Luyten, 2012). In het onderzoek van Andrades et al. (2008) werden articulatorische fouten opgedeeld in 4 grote categorieën: fouten eigen aan de normale ontwikkeling van de spraak, foneemspecifieke nasale emissie, secundaire articulatorische fouten, bijvoorbeeld gepalataliseerde of gelateraliseerde productie van consonanten, en compensatoire fouten, bijvoorbeeld glottale stops of faryngale fricatieven. Door Andrades et al. (2008) werden geen voorbeelden of definities omschreven voor de fouten eigen aan de normale ontwikkeling van de spraak en foneemspecifieke nasale emissie.

Ook Doucet et al. (2013) ging articulatie slechts beperkt na door het aantal correct geproduceerde consonanten te inventariseren. Enkel in de onderzoeken van Luyten et al. (2013, 2014) werd articulatie grondig onderzocht en beschreven. Hierbij werden zowel fonetische als fonologische fouten geïnventariseerd. Bovendien werd enkel in deze onderzoeken een controlegroep samengesteld.

Gezien momenteel door de hoofd- halschirurgen van het U.Z. Gent de Sommerladtechniek, zowel primair als secundair, wordt toegepast bij schisispatiënten, is het van belang de post-operatieve resultaten van deze techniek grondig in kaart te brengen. Het doel van huidig onderzoek was de spraak, meer bepaald de spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid, resonantie en articulatie van schisispatiënten na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad te beschrijven. Aanvaardbaarheid van de spraak wordt gezien als de mate waarin de spraak voor niet-professionelen als afwijkend wordt beschouwd, namelijk dat de spraak opmerkingen zou opleveren (John et al., 2006). De spraakresultaten van de schisispatiënten werden vervolgens vergeleken met die van de controlegroep, gematcht aan de schisispatiënten qua leeftijd en geslacht. Bijkomend werd in de discussie een vergelijking gemaakt met bestaande resultaten na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad. Ten slotte werden de spraakresultaten, gevonden bij dit onderzoek, vergeleken met gerapporteerde resultaten na toepassing van andere technieken voor primaire palatoplastiek.

Op basis van de resultaten gepubliceerd in de literatuur werden de volgende hypothesen voorop gesteld. Er werd verwacht dat de spraak van patiënten met schisis, na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad, een mindere spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid, meer articulatorische fouten, meer en ernstigere resonantiestoornissen, een lagere NSI-waarde en hogere nasometrische waarden bevat, dan kinderen zonder schisis met eenzelfde gemiddelde leeftijd en geslacht. In een vergelijking met andere, reeds gepubliceerde, resultaten na palatoplastiek volgens Sommerlad zouden de resultaten gelijkaardig zijn. Bovendien werd verwacht dat de spraakresultaten van schisispatiënten na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad beter zijn dan deze gerapporteerd in de literatuur na andere types palatoplastiek, zonder toepassing van radicale intravelaire veloplastie.

2. Methodologie

Dit onderzoek werd goedgekeurd door het Ethisch Comité van het U.Z. Gent op 20 oktober 2014 (referentienummer: 2014/0979). Alle deelnemers ondertekenden, na mondelinge en schriftelijke uitleg over het onderzoek, het toestemmingsformulier.

2.1. Proefpersonen

Tabel 3 geeft een overzicht van de schisispatiënten waarbij per patiënt het geslacht, de leeftijd, het leerjaar, het type schisis, het tijdstip van de primaire palatoplastiek en het type primaire palatoplastiek worden weergegeven. De testgroep bestond uit tien meisjes en zes jongens met een gemiddelde leeftijd van 5.4 jaar (range: 3.8-8.6 jaar). Verschillende types schisis waren vertegenwoordigd: drie BCGPS, zes UCGPS, vier PS en drie CPS¹. De gemiddelde leeftijd waarbij de primaire palatoplastiek werd uitgevoerd was 12.8 maanden (range: 7-25 maanden). Bij slechts één patiënt (6 %) moest achteraf een fistel gesloten worden.

Bij 75% (12/16) van de schisispatiënten werd minstens éénmaal diabolos geplaatst. Negen patiënten (56%) volgden op het moment van de testing logopedie om de volgende redenen: vijf patiënten volgden logopedie in het kader van articulatie, bij drie patiënten werd gewerkt aan articulatie en resonantie en één patiënt volgde logopedie in het kader van leerstoornissen in combinatie met articulatietherapie. Van deze negen patiënten volgde één patiënt een halfuur logopedie per week, zeven patiënten een uur logopedie per week en één patient anderhalfuur logopedie per week.

¹ Gebruikte afkortingen:

BCGPS: bilaterale cheilognatopalatoschisis

UCGPS: unilaterale cheilognatopalatoschisis

PS: palatoschisis

CPS: cheilopalatoschisis

Tabel 3: overzicht van de patiënten uit de testgroep²

	Geslacht	Leeftijd (jaar)	Leerjaar	Type schisis	Leeftijd primaire palatoplastiek (maanden)	Type primaire palatoplastiek
1	Meisje	4.2	2e Kleuterklas	BCGPS	12	Sommerlad + Langenbeck
2	Meisje	7.0	2e Leerjaar	PS	21	Sommerlad
3	Jongen	8.6	3e Leerjaar	CPS	10	Sommerlad
4	Jongen	4.5	2e Kleuterklas	CPS	12	Sommerlad + Langenbeck
5	Jongen	5.1	3e Kleuterklas	UCGPS	10	Sommerlad + Langenbeck + Bardach
6	Jongen	5.0	2e Kleuterklas	UCGPS	15	Sommerlad
7	Meisje	6.2	1e Leerjaar	PS	10	Sommerlad
8	Meisje	5.3	2e Kleuterklas	CPS	10	Sommerlad
9	Jongen	6.0	3e Kleuterklas	UCGPS	11	Sommerlad
10	Meisje	4.8	3e Kleuterklas	PS	7	Sommerlad
11	Meisje	5.6	3e Kleuterklas	PS	25	Sommerlad + Bardach
12	Meisje	4.6	2e Kleuterklas	UCGPS	11	Sommerlad
13	Meisje	5.0	2e Kleuterklas	BCGPS	11	Sommerlad
14	Jongen	3.8	1e Kleuterklas	BCGPS	13	Sommerlad + Bardach
15	Meisje	5.8	3e Kleuterklas	UCGPS	11	Sommerlad + Langenbeck
16	Meisje	5.2	2e Kleuterklas	UCGPS	15	Sommerlad

Gezien de controlegroep gematcht was volgens geslacht en leeftijd met de onderzoeksgroep bestond ook deze groep uit tien meisjes en zes jongens. De gemiddelde leeftijd van de controlegroep was 5.3 jaar (range: 3.9 – 8.5 jaar). De Mann-Whitney U test toonde aan dat er geen significant leeftijdsverschil was tussen test- en controlegroep ($p = 0.838$). In tabel 4 zijn geslacht, leeftijd en leerjaar terug te vinden per deelnemer. De rangschikking geeft aan met welke testpersoon hij/zij werd gematcht.

Van de zestien proefpersonen uit de controlegroep had één proefpersoon moeten zittenblijven. Informatie over de eventuele plaatsing van diabolos werd niet opgevraagd bij de controlegroep. Eén van de deelnemers had recent (één maand voor het testmoment) een ingreep ondergaan, namelijk het verwijderen van de keelamandelen. Testafname ging pas door na toestemming van de arts. Geen enkele deelnemer uit de controlegroep volgt of volgde logopedie.

² Gebruikte afkortingen:

BCGPS: bilaterale cheilognatopalatoschisis

UCGPS: unilaterale cheilognatopalatoschisis

PS: palatoschisis

CPS: cheilopalatoschisis

Tabel 4: overzicht van de patiënten uit de controlegroep

	Geslacht	Leeftijd (jaar)	Leerjaar
1	Meisje	4.3	2e Kleuterklas
2	Meisje	6.8	1e Leerjaar
3	Jongen	8.5	3e Leerjaar
4	Jongen	4.3	2e Kleuterklas
5	Jongen	4.9	2e Kleuterklas
6	Jongen	5.1	2e Kleuterklas
7	Meisje	6.0	1e Leerjaar
8	Meisje	5.3	3e Kleuterklas
9	Jongen	5.1	2e Kleuterklas
10	Meisje	4.8	2e Kleuterklas
11	Meisje	5.5	3e Kleuterklas
12	Meisje	4.5	2e Kleuterklas
13	Meisje	5.1	2e Kleuterklas
14	Jongen	3.9	1e Kleuterklas
15	Meisje	5.8	3e Kleuterklas
16	Meisje	5.4	3e Kleuterklas

Enkel patiënten die een primaire palatoplastiek volgens Sommerlad ondergingen, uitgevoerd in het U.Z. Gent, werden geïnccludeerd. Eén proefpersoon werd geëxcludeerd omwille van toepassing van de secundaire re-repair volgens Sommerlad. Bij het samenstellen van de onderzoeksgroep werden patiënten geëxcludeerd om volgende redenen: meertaligheid, kinderen wiens moedertaal niet Nederlands is, gehoorstoornis, een leeftijd vallend buiten de range (3 jaar en 11 maanden – 8 jaar en 7 maanden), en comorbiditeit zoals stotteren, een gehoorstoornis of cognitieve en/of motorische beperkingen. Bij de samenstelling van de controlegroep werden dezelfde exclusiecriteria in acht genomen en werd ervoor gezorgd dat het leeftijdsverschil tussen de testpersoon en diens controlepersoon maximaal zes maanden bedroeg.

Het contacteren van de proefpersonen en de testafname gebeurde in samenwerking met C.H., eveneens masterstudente logopedie. Gezien haar masterproef (Hoedemaekers, 2014-2015) handelt over het opstellen van een nieuw onderzoeksprotocol voor de spraak van kinderen met schisis was deze samenwerking evident. Op die manier werd de belasting van de kinderen met schisis en hun ouders tot een minimum beperkt.

Op basis van een lijst met alle patiënten die een Sommerladpalatoplastiek ondergingen, samengesteld door Dr. K. Bonte, werden de patiënten geselecteerd en gecontacteerd. Bij alle patiënten werd deze palatoplastiek uitgevoerd in het U.Z. Gent door Dr. K. Bonte, een ervaren chirurg. Twee patiënten werden vooraf aangesproken op één van de maandelijks georganiseerde schisisbijeenkomsten op het U.Z. Gent en vervolgens telefonisch gecontacteerd voor verdere afspraken.

Negentien proefpersonen werden telefonisch gecontacteerd, onder supervisie van Prof. Dr. K. Van Lierde en Drs. K. Bettens. Vier proefpersonen stemden langs deze weg in tot deelname, twee van de negentien patiënten weigerden deelname wegens te tijdrovend. De overige dertien patiënten die gecontacteerd werden, waren telefonisch onbereikbaar.

Naast deze proefpersonen werden tien proefpersonen geïnccludeerd waarvan reeds spraakstalen werden verzameld in het kader van een vorig thesisonderzoek (Bastenie, 2013-2014) en het doctoraatsonderzoek van Drs. K. Bettens (Bettens, Van Lierde, Corthals, Luyten & Wuyts, 2015). De spraakstalen omvatten alle items zoals deze bij de andere proefpersonen werden verzameld. Alle spraakstalen werden geëvalueerd door de twee beoordelaars van dit onderzoek.

De controlegroep werd samengesteld m.b.v. persoonlijke contacten en sociale media. Bij twee controlepersonen bleek de dataverzameling onvolledig waardoor nieuwe controlepersonen werden gezocht voor de schisispatiënten waaraan deze gematcht waren. Uiteindelijk werden achttien spraakstalen verzameld, waarvan zestien spraakstalen bruikbaar waren voor dit onderzoek.

2.2. Werkwijze

2.2.1. Testafname

De testafname vond, met uitzondering van één proefpersoon, plaats bij de kinderen thuis, in een rustige ruimte met weinig afleiding. Bij één proefpersoon werd de spraakstaal verzameld door Dr. Luyten, op de afdeling Logopedie en Audiologie van het U.Z. Gent. Bij alle andere testafnames, bij de proefpersonen thuis, was zowel C.H. als L.B. (auteur van deze masterproef) steeds aanwezig. Spraakstalen van de controlepersonen werden steeds afgenomen door L.B. Door L.B. werd het protocol, beschreven volgens John et al. (2006) en gebruikt door de onderzoekers van de afdeling logopedische wetenschappen van het U.Z. Gent, afgenomen. Dit protocol wordt verder in de tekst gedetailleerd beschreven. C.H. nam bij de proefpersonen het protocol van Henningson et al. (2008) af, in het kader van haar masterproef. Het protocol van Henningson et al. (2008) houdt in dat de volgende spraakkenmerken beoordeeld worden: spraakverstaanbaarheid, hypernasaliteit, hyponasaliteit, nasale emissie en/of nasale turbulentie en foutieve productie van consonanten. Dit protocol volgend, werd enerzijds aan de patiënten gevraagd woorden en zinnen met bepaalde doelconsonanten, meerbepaald drukconsonanten (consonanten waarbij de productie velofaryngale sluiting vereist), te herhalen. Anderzijds moesten de patiënten volgens het protocol van Henningson et al. (2008) nasale zinnen, zinnen met zoveel mogelijk nasale klanken, herhalen ter detectie van hyponasaliteit. De volgorde van de protocols bij de testafname, namelijk het protocol van het U.Z. Gent (volgens John et al., 2006) en het protocol van Henningson et al. (2008), afgenomen door C.H., werd willekeurig bepaald. Enkel de spraakstalen verzameld ter beoordeling volgens het protocol van John et al. (2006), werden gebruikt bij dit onderzoek.

2.2.2. Anamnesegegesprek

Voorafgaand aan de testafname werd steeds een gesprek gevoerd met de ouders. Daarbij werd naast de inhoud en werkwijze van het onderzoek, de ontwikkeling van het kind besproken. Zo werd de medische voorgeschiedenis besproken, met nadruk op problemen t.h.v. het hoofd- halsgebied, relevant voor dit onderzoek. Specifieke medische informatie werd later, na toestemming van de ouders, opgezocht in het patiëntendossier van het U.Z. Gent. Daarnaast werden zaken op vlak van pedagogische ontwikkeling, namelijk het leerjaar en eventuele schoolse moeilijkheden, bevraagd. Ten slotte werd nagegaan of het kind begeleid wordt/werd door bepaalde paramedische disciplines, met meer specifieke navraag naar eventuele logopedische begeleiding (frequentie en aard van de logopedische therapie).

2.2.3. Dataverzameling

Een spraakstaal, meerbepaald een videofragment, bestaand uit spontane spraak, automatische reeksen (dagen van het jaar, tellen tot tien) en het herhalen van de zinnen van de Simplified Nasometric Assessment Procedures test, (SNAP-test) (Van Lierde, Wuyts, De Bodt & Van Cauwenberge, 2003), werd tijdens het testmoment opgenomen met een Sony Handycam HDR-CX280E met een ingebouwde microfoon van hoge kwaliteit. Op basis van dit spraakstaal werd de spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid en de resonantie perceptueel beoordeeld. De SNAP-test, origineel ontworpen door MacKay en Kummer (1994) en vertaald en aangepast naar het Nederlands door Van Lierde et al. (2003), omvat 15 zinnen. Per drie zinnen wordt een doelconsonant belicht (bilabialen, alveolair, velair, sibilanten en nasalen). Deze zinnen zijn terug te vinden in de appendix, bijlage 2.

Ter evaluatie van de articulatie werd het articulatieonderzoek beschreven volgens Van Borsel (2003) afgenomen. Dit articulatieonderzoek bestaat uit 135 eenvoudige lijntekeningen die het kind moet benoemen. Deze doelwoorden, zowel mono- als polysyllabische woorden, bevatten alle individuele klanken en de meest voorkomende consonantclusters uit het Nederlands in zowel initiale, mediale als finale positie (Van Borsel, 2003). Spontane woordproductie van het kind werd zo veel mogelijk gestimuleerd met semantische en fonologische cues. Wanneer deze cues niet leidden tot woordproductie werd aan het kind gevraagd de testleider te herhalen. Dit onderzoek werd eveneens gefilmd met bovenbeschreven camera, ter beoordeling achteraf.

Objectieve nasaliteitswaarden, van producties op zowel klank-, zins- als tekstniveau, werden gemeten met de Kay Pentax Nasometer II (Model 6450). Met de Nasometer kan deze nasaliteitswaarde (i.e. het nasaliteitspercentage), namelijk de verhouding tussen nasale akoestische energie enerzijds en nasale én orale akoestische energie anderzijds, vermeldigvuldigd met 100, gemeten worden. Deze akoestische energie wordt gemeten door twee microfoontjes, t.h.v. de neus en t.h.v. de mond, geplaatst op een plaatje. Dit plaatje dient door de proefpersoon tussen mond en neus te worden gehouden, meerbepaald op de bovenlip. Het signaal van elke microfoon wordt afzonderlijk gefilterd en gedigitaliseerd om vervolgens de nasaliteitswaarde weer te geven. Voorafgaand aan de metingen werd de Kay Pentax Nasometer II (Model 6450) gecallibreerd zoals beschreven in de handleiding. Bij de metingen werd er op gelet dat het kind de uitingen steeds produceerde op een normale luidheid en toonhoogte om de verwerking van de data zo min mogelijk te compromitteren. Bij foutieve producties werd bovendien de opname herhaald.

Op klankniveau werden de nasaliteitswaarden van [a:], [i:], [u:] en [m] berekend. Deze klanken werden steeds driemaal herhaald, waarna de software van de Nasometer de nasaliteitswaarde berekende. Nasometrische waarden op zinsniveau, bepaald met de zinnen van de SNAP-test (Van Lierde et al., 2003), werden gemeten per zinscategorie (bilabialen, alveolairen, velairen, sibilanten en nasalen), die bovendien steeds tweemaal herhaald werden. Ter bepaling van het nasaliteitspercentage op tekstniveau werden de teksten van Van de Weijer en Slis (1991) herhaald of voorgelezen, afhankelijk van de leesvaardigheden van het kind. Van zowel de oronasale als de orale en nasale tekst werden de nasaliteitswaarden berekend. De oronasale tekst bevat evenveel nasale consonanten als in spontane, Nederlandse spraak, namelijk 11.63% (Van den Broecke, 1988). De orale tekst bevat dan weer geen nasale consonanten terwijl in de nasale tekst 57% van alle consonanten nasalen zijn (Van Lierde, Wuyts, De Bodt & Van Cauwenberge, 2001). Deze teksten van Van de Weijer en Slis (1991) zijn terug te vinden in de appendix, bijlage 3.

Ten slotte werd ter bepaling van de Nasality Severity Index, NSI (Bettens et al., 2015), met een unidirectionele condensatormicrofoon (Samson, C01U) een audiofragment van de productie van [i:] opgenomen m.b.v. het softwareprogramma Praat, versie 5.4 (Boersma & Weening, 2014). Tijdens de opname werd ervoor gezorgd dat de luidheid van de producties binnen de verwerkingsmogelijkheden van Praat lag, om het zogenaamde “peak clipping” te vermijden. Deze producties werden op de habituele toonhoogte en voldoende lang, minimum twee seconden, geproduceerd.

2.2.4. Evaluatie en analyse van de verzamelde data

Perceptuele evaluaties of analyses van data werden uitgevoerd nadat alle testafnames afgerond waren. Er werd gewerkt met consensusbeoordelingen: bij verschillende beoordelingen van de beoordelaars, twee masterstudenten logopedie (L.B. en C.H.), werd het spraakstaal opnieuw beluisterd om nadien tot een consensus te komen.

Perceptuele beoordeling van spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid

Het spraakstaal werd blind en gerandomiseerd beoordeeld op vlak van spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid. Hiertoe werden de originele videobestanden, van het formaat .MTS, geconverteerd naar wav.-audiobestanden m.b.v. het programma Freemake Audio Converter. De definities en scoringsrichtlijnen volgens Cleft Audit Protocol for Speech – Augmented, CAPS-A (John et al., 2006) werden gehanteerd. Aanvaardbaarheid van de spraak wordt volgens John et al. (2006) omschreven als de mate waarin de spraak opmerkingen zou opleveren door niet-professionele buitenstaanders. Dit protocol volgend, werden spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid beoordeeld met één score die beide parameters in rekening brengt. Een score 0 werd toegekend aan een normale spraakverstaanbaarheid, terwijl een score 1 aangaf dat de spraak afwijkend was maar onvoldoende om opmerkingen op te leveren van niet-professionele luisteraars. Bij spraak die afwijkend genoeg was om opmerkingen op te leveren maar waarvan de uitingen meestal verstaanbaar waren, scoorden de beoordelaars 2. Spraak nauwelijks verstaanbaar voor buitenstaanders kreeg een score 3 toegekend. Het CAPS-A protocol voorziet ook een score 4, al werd deze niet toegekend bij dit onderzoek, voor onverstaanbare spraak.

Voorafgaand aan de perceptuele beoordelingen van spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid en nasaliteit, werden door Drs. Bettens spraakstalen aangeboden om zo de interne standaarden van de beoordelaars bij de beoordeling van nasaliteitsstoornissen in te prenten, en de richtlijnen van elke parameter, volgens John et al. (2006), in te oefenen.

Ter bepaling van de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid werd de intraclass correlatiecoëfficiënt (ICC) bepaald (two-way random, absolute agreement). De ICC voor de perceptuele beoordeling van spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid bedroeg 0.965 (single measure).

Perceptuele beoordeling van nasaliteit

Voor de beoordeling van nasaliteit, meer bepaald de aanwezigheid van eventuele nasaliteitsstoornissen, werd bovenbeschreven spraakstaal gebruikt. Ook deze beoordeling gebeurde blind en gerandomiseerd. Parameters met diens definities werden beoordeeld volgens het CAPS-A protocol (John et al., 2006). Een vertaling naar het Nederlands van de scoring volgens dit protocol is weergegeven in tabel 5. Het CAPS-A protocol volgend werden aanwezige nasale grimassen aangegeven met score 1, afwezigheid werd aangeduid met score 0. Bijkomend werd in dit onderzoek de ernst van nasale emissie en nasale turbulentie beoordeeld. Het referentiekader opgesteld voor deze bijkomende parameters is terug te vinden in tabel 6.

Tabel 5: scoringsrichtlijnen voor resonantiestoornissen volgens het CAPS-A protocol (John et al., 2006), vertaald naar het Nederlands

Hypernasaliteit	
Score	Omschrijving
0	Afwezig
1	Borderline; minimale hypernasaliteit
2	Mild; aanwezig bij gesloten vocalen
3	Matig; duidelijk aanwezig bij open en gesloten vocalen
4	Ernstig; duidelijk aanwezig bij vocalen en stemhebbende consonanten
Hyponasaliteit	
0	Afwezig
1	Mild; gedeeltelijke denasalisatie van nasale consonanten en aangrenzende vocalen
2	Duidelijke denasalisatie van nasale consonanten en aangrenzende vocalen
Hoorbare nasale emissie / nasale turbulentie (beoordeling per resonantiestoornis, zelfde scoringsrichtlijnen)	
0	Afwezig bij drukconsonanten
1	Occassioneel voorkomen bij drukconsonanten; < 3 voorbeelden bij verschillende klanken
2	Frequent voorkomen bij drukconsonanten; > 3 voorbeelden bij verschillende klanken

Tabel 6: referentiekader voor de perceptuele beoordeling van ernst van nasale emissie en nasale turbulentie

Hoorbare nasale emissie / nasale turbulentie (beoordeling per resonantiestoornis, zelfde scoringsrichtlijnen)	
Score	Omschrijving
0	Afwezig; er is geen hoorbare luchtstroom (emissie of turbulentie) aanwezig bij de productie van drukconsonanten (plosieven/fricatieven)
1	Mild; er is hoorbare luchtstroom (emissie of turbulentie) aanwezig bij de productie van drukconsonanten, maar de luchtstroom wordt niet als storend ervaren
2	Matig; er is hoorbare luchtstroom (emissie of turbulentie) aanwezig bij de productie van drukconsonanten die soms als storend ervaren wordt
3	Ernstig; er is duidelijk hoorbare luchtstroom (emissie of turbulentie) aanwezig bij de productie van drukconsonanten die als storend ervaren wordt

Net zoals bij de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid van spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid werd de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid bepaald met de intraclass correlatiecoëfficiënt, ICC (two-way random, absolute agreement). De ICC bij de bepaling van de ernst van hypernasaliteit bedroeg 0.916. Bij de bepaling van de frequentie van nasale emissies bedroeg de ICC 0.800. De ICC bij de bepaling van de frequentie van nasale turbulentie bedroeg 0.890. De ICC-waarden bij de bepaling van de ernst van nasale emissies en nasale turbulentie waren respectievelijk 0.641 en 0.928. Bij de bepaling van de aanwezigheid van nasale grimassen was er 100% overeenkomst tussen de beoordelaars, wat leidde tot een ICC-waarde van 1.000.

Nasality Severity Index

De NSI (Bettens et al., 2015) is een gewogen maat voor de mate van hypernasaliteit. De NSI wordt beïnvloed door drie parameters: de nasaliteitswaarde van [u:] en de orale tekst (Van de Weijer en Slis, 1991), gemeten met de Kay Pentax Nasometer II (Model 6450), en de “voice low tone to high tone ratio” (VLHR). De VLHR is een maat, uitgedrukt in decibel, voor de hoeveelheid energie tussen de grondtoon en de eerste formant. Bij personen met hypernasaliteit bevindt zich in die zone meer energie. Deze parameters verhouden zich als volgt in de formule: $NSI_{2.0} = 13.20 - (0.0824 \times \text{nasaliteitswaarde } /u:/ [\%]) - (0.260 \times \text{nasaliteitswaarde orale tekst } [\%]) - (0.242 \times VLHR_{4.47 \times F_0} [\text{dB}])$. Bij aanwezige hypernasaliteit wordt een negatieve NSI-waarde bekomen, bij afwezige hypernasaliteit is dit een positieve waarde.

De VLHR-waarde en de uiteindelijke NSI-waarde werden bekomen na uitvoeren van het NSI-script in het softwareprogramma Praat (Boersma & Weening, 2014). Hiertoe werd een stabiel geluidsfragment, van de productie van [i:], met een duur van 0.5 seconden geselecteerd en geëxtraheerd (hamming window). Na ingeven van de nasaliteitswaarden van [u:] en de orale tekst, kon het NSI-script worden uitgevoerd op dit fragment.

Articulatie

Alle doelwoorden van het articulatieonderzoek van Van Borsel (2003) werden door de beoordelaars fonetisch getranscribeerd, om vervolgens de mogelijks aanwezige compensatoire, obligatoire, fonetische en fonologische stoornissen op te lijsten. De gemiddelde interbeoordelaarsbetrouwbaarheid voor de algemene beoordeling van articulatie (aangeven van alle articulatorische fouten) bedroeg 87.17%. De gemiddelde interbeoordelaarsbetrouwbaarheid bij het beoordelen van fonetische fouten was 89.79%, voor fonologische fouten 85.95%, voor compensatoire fouten 76.47% en voor obligatoire fouten 76.19%.

Verminderde orale drukopbouw bij de productie van plosieven en verminderde fricatie bij de productie van fricatieven werden beschouwd als obligatoire articulatiestoornissen. Compensatoire stoornissen werden beschouwd als het meer naar achteren articuleren van klanken. Aangezien het fonologische proces backing ook onder deze definitie valt, werd per compensatoire stoornis ook het fonologisch proces backing aangerekend. Bovendien werden deze obligatoire en compensatoire articulatiefouten onderverdeeld binnen de productiewijzes plosieven (/p/, /b/, /t/, /d/, /k/, /g/) en fricatieven (/s/, /z/, /ʃ/, /ʒ/, /f/, /v/, /x/, /ɣ/) zoals reeds werd toegepast door Luyten et al. (2013; 2014). Obligatoire en compensatoire resonantiestoornissen werden bij dit partim niet in rekening gebracht.

Fonetische fouten werden geclassificeerd binnen de volgende categorieën: distorsies, substituties, addities en omissies. Bij verwerking van deze evaluaties werden substituties en omissies in kaart gebracht volgens de productiewijze (fricatieven, plosieven, liquiden, nasalen en semi-vocalen). Distorsies werden verder gespecificeerd binnen elk klanktype, bijvoorbeeld: sigmatisme stridens of rotacisme non vibrans. Bij een obligatoire articulatiestoornis is er een distorsie van een klank (Kummer, 2011), bijgevolg werden deze fouten ook bij het aantal distorsies meegeteld. Gezien bij een compensatoire articulatiestoornis een wijziging van de articulatieplaats kan optreden (Kuehn & Moller, 2000), werd deze eveneens ondergebracht bij substituties.

Fonologische processen werden gecategoriseerd volgens Ingram (1982) met als vier hoofdcategorieën: syllabestructuurprocessen, substitutieprocessen, harmonieprocessen en overige processen. Een proces werd aanwezig beschouwd wanneer het percentage van voorkomen minstens 20% bedroeg en het proces minstens vier keer voorkwam in het spraakstaal (McReynolds en Elbert, 1981).

2.2.5. Statistische verwerking

Statistische analyse werd uitgevoerd m.b.v. het softwareprogramma SPSS Statistics (versie 22). Bij uitvoering van alle statistische tests werd het significantieniveau $\alpha \leq 0.05$ gehanteerd, tenzij bij post-hoc vergelijkingen. Er werd voor gekozen bij deze vergelijkingen geen Bonferronicorrectie toe te passen. Door Vanhoutte, De Letter, Corthals, Van Borsel en Santens (2012, p. 869) werden verschillende nadelen aan deze methode opgesomd: “Ten eerste daalt de statistische power na toepassing van deze correctie naar 33%, terwijl de kans op type II-fouten hoog blijft (Nakagawa, 2004). Ten tweede is er geen consensus bij statistici over wanneer de Bonferronicorrectie mag worden toegepast (Perneger, 1998). Ten slotte, hoe meer variabelen worden vergeleken, des te meer daalt de waarschijnlijkheid significante resultaten te vinden (Moran, 2003).” Daarom werd er bij dit onderzoek, net zoals bij Vanhoutte et al. (2012), voor gekozen de Bonferronicorrectie niet toe te passen. Bij post-hocanalyses werd het significantieniveau vastgelegd op $\alpha \leq 0.01$.

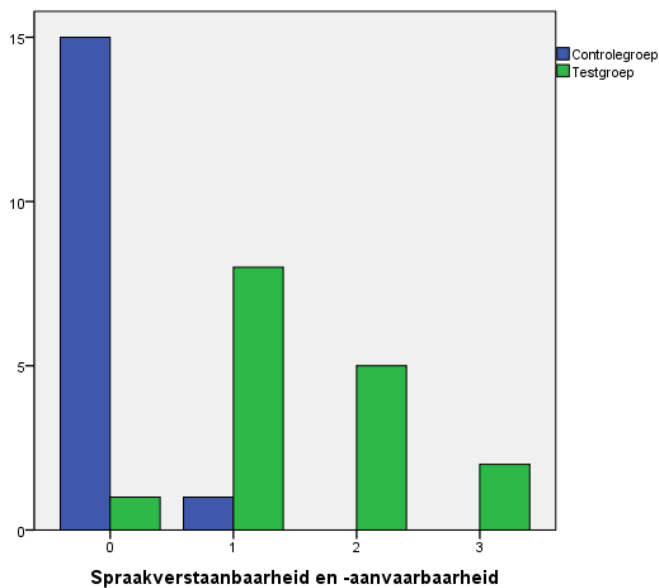
De vergelijking van categorische variabelen (meerbepaald ordinale variabelen: bij de perceptuele beoordeling van spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid en nasaliteitsstoornissen) werd uitgevoerd met de Chikwadraat test of de Fisher’s exact test, afhankelijk van het verwachte aantal cellen van de kruistabel. Met behulp van de Shapiro-Wilk test, het QQ-plot en de boxplot werd de normaliteit van continue variabelen nagegaan. In geval van een normale verdeling werd de ongepaarde Student’s t-test uitgevoerd om een eventueel verschil na te gaan tussen test- en controlegroep. Bij niet-parametrisch verdeelde variabelen werd de Mann-Whitney U test uitgevoerd.

3. Resultaten

3.1. Spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid

In figuur 5 worden de scores weergegeven die werden toegekend aan de spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid van de schisispatiënten en de controlepersonen.

Figuur 5: spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid bij test- en controlegroep



Vijftien van de zestien deelnemers van de controlegroep (94%) blijken geen afwijkende spraakverstaanbaarheid te hebben (score 0), dit tegenover slechts 6% (1/16) van de schisispatiënten. Aan 50% (8/16) van de schisispatiënten werd score 1 toegekend. Deze score werd toegekend aan één controlepersoon (6%), tevens de hoogste (slechtste) score voor spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid bij deelnemers van de controlegroep. Score 2 werd gegeven aan vijf van de zestien schisispatiënten (31%). Twee patiënten (13%) kregen de hoogste score, score 3, toegekend bij deze beoordeling.

De Chikwadraattest wees uit dat aan de spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid van de onderzoeksgroep sterk significant hogere scores ($p < 0.001$) werden toegekend in vergelijking met de scores toegekend aan de controlegroep.

3.2. Perceptuele beoordeling van nasaliteit

Onderzoeksgroep

Hypernasaliteit was slechts bij één proefpersoon (6%) van de onderzoeksgroep afwezig. Drie proefpersonen (18%) scoorden 'borderline' voor hypernasaliteit. Zeven schisispatiënten (44%) hadden milde hypernasaliteit. Een matige hypernasaliteit was aanwezig bij vijf proefpersonen (31%). Hyponasaliteit werd niet opgemerkt bij de onderzoeksgroep.

Nasale emissie was afwezig bij drie schisispatiënten (19%). Bij acht deelnemers (50%) was de nasale emissie occasioneel te horen. Nasale emissie werd frequent gehoord bij vijf deelnemers (31%). Nasale turbulentie werd minder vaak opgemerkt dan nasale emissie. Bij elf deelnemers (69%) was nasale turbulentie afwezig. Bij 25% van de testpersonen (4/16) was de nasale turbulentie occasioneel aanwezig terwijl bij slechts één deelnemer (6%) nasale turbulentie frequent te horen was.

Van de dertien deelnemers (81%) bij wie nasale emissie aanwezig was, was de ernst van deze nasale emissie bij vijf deelnemers (31%) mild. Zes schisispatiënten hadden matige nasale emissies (44%) en bij twee waren de nasale emissies ernstig (13%). Bij vijf deelnemers (31%) werd nasale turbulentie opgemerkt. De nasale turbulentie was mild bij twee van hen (13%) en matig bij drie schisispatiënten (19%).

Nasale grimassen werden opgemerkt bij twee deelnemers (13%).

Controlegroep

De enige van de zes parameters die aanwezig was bij de controlegroep, was de mate van ernst van hypernasaliteit. Twee deelnemers (13%) van de controlegroep scoorden 'borderline' voor hypernasaliteit. Alle andere resonantiestoornissen die beoordeeld werden, waren afwezig bij de controlegroep.

Het verschil tussen onderzoeks- en controlegroep

De Chikwadraattest toonde aan dat hypernasaliteit significant ernstiger was bij de schisispatiënten ($p < 0.001$) in vergelijking met de controlegroep. Nasale emissie kwam significant meer voor bij deze onderzoeksgroep ($p < 0.001$), en was bovendien ernstiger ($p < 0.001$). De frequentie ($p = 0.052$) en de ernst ($p = 0.052$) van nasale turbulentie waren niet significant hoger bij de schisispatiënten. De Fisher Exact test gaf aan dat er geen significant verschil was in de aanwezigheid van nasale grimassen tussen de test- en de controlegroep ($p=0.484$).

3.3. Objectieve beoordeling van nasaliteit

3.3.1. Nasometrie

De nasometrische waarden van test- en controlegroep op klank-, zins- en tekstniveau worden uiteengezet in tabel 7. De Mann-Whitney U test wees uit dat de nasometrische waarden van [a:] ($p = 0.001$), [i:] ($p = 0.014$), [u:] ($p = 0.001$), de zinnen met bilabialen ($p = 0.018$), de zinnen met sibilanten ($p = 0.005$) en de orale tekst ($p = 0.003$) significant hoger waren bij de schisispatiënten dan bij de controlegroep. De ongepaarde Student's t-test toonde bovendien aan dat ook de nasometrische waarden van de zinnen met alveolairen ($p < 0.001$), de oronasale tekst ($p < 0.001$) en de nasale tekst ($p = 0.029$) significant hoger waren bij de testgroep dan bij de controlegroep. Wel toonde deze test ook aan dat de nasometrische waarden van [m] randsignificant lager waren bij de testgroep ($p = 0.049$).

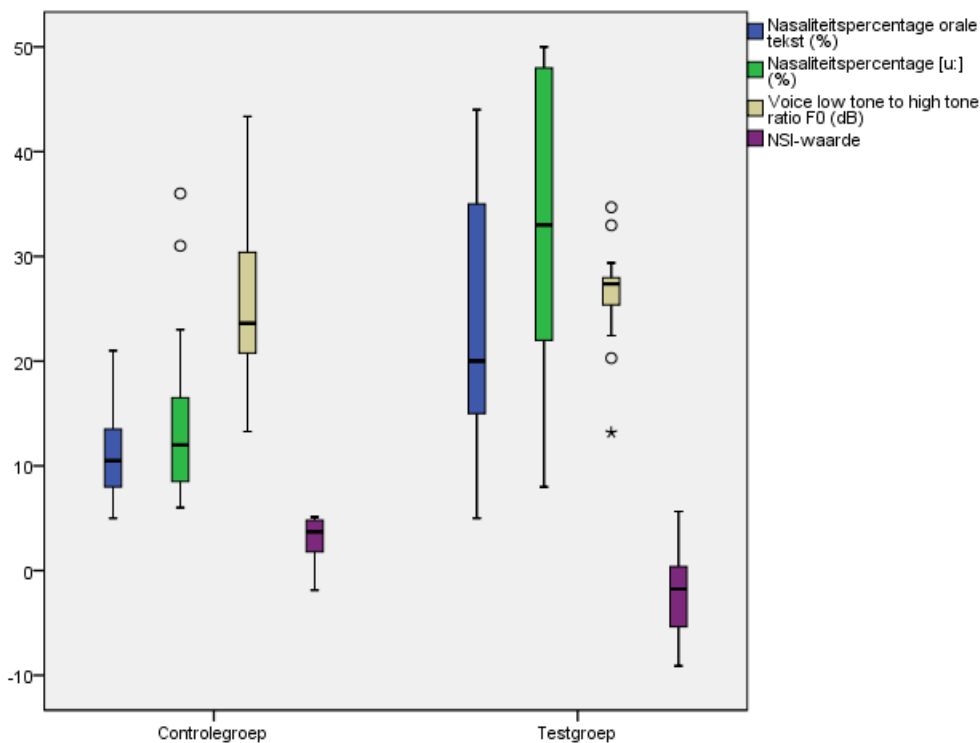
Tabel 7: nasometrische waarden op klank-, zins- en tekstniveau van test- en controlegroep

	Testgroep					Controlegroep				
	Gemiddelde	Standaarddeviatie	Mediaan	Minimum	Maximum	Gemiddelde	Mediaan	Standaarddeviatie	Minimum	Maximum
[a:]	17.69	6.973	16.50	6	34	10.38	7.00	10.314	5	47
[i:]	42.38	19.162	48.50	14	68	24.50	26.00	8.764	9	41
[u:]	32.38	15.453	36.00	8	50	13.44	11.00	8.884	6	36
[m]	87.06	5.446	88.00	74	94	90.38	90.00	3.442	84	95
Bilabialen	19.43	7.955	21.00	8	32	11.38	11.50	3.667	5	19
Alveolair	22.86	6.543	23.00	12	32	12.75	11.50	4.698	7	21
Velair	27.00	8.246	25.00	14	40	21.69	22.00	5.885	10	33
Sibilanten	27.14	10.447	25.00	11	38	14.44	14.50	4.082	8	22
Nasalen	46.14	5.367	45.00	37	54	47.69	48.00	7.245	35	61
Oronasale tekst	36.13	7.855	36.00	21	48	25.88	25.50	4.897	20	37
Orale tekst	22.20	11.626	20.00	5	44	11.13	10.50	4.209	5	21
Nasale tekst	51.11	6.254	50.00	45	66	44.19	44.50	7.530	27	55

3.3.2. Nasality severity index

In figuur 6 worden de NSI-waarden en diens parameters weergegeven d.m.v. een boxplot. De mediaan van de NSI-waarde van de schisispatiënten bedroeg -1.75 (range: -9.09 tot 5.64). Bij de controlegroep bedroeg de mediaan 3.70 (range: -1.87 tot 5.12). Uitvoeren van de Mann-Whitney U Test wees uit dat de NSI-waarde van de onderzoeksgroep significant lager is ($p = 0.006$) dan die van de controlegroep.

Figuur 6: een significant verschil van de NSI-waarde en van de nasaliteitswaarden van [u:] en de orale tekst tussen test- en controlegroep, in tegenstelling tot de VLHR.



Nadien werd nagegaan welke van de drie parameters van de NSI een significante invloed hadden op deze lagere NSI-waarde bij de testgroep. Hiertoe werd het significantieniveau herleid naar $\alpha \leq 0.01$. Post-hoc uitvoeren van de Mann-Whitney U test wees uit dat de nasometrische waarden van [u:] ($p = 0.001$) en de orale tekst ($p = 0.002$) significant hoger waren bij de testgroep. De VLHR-waarde bleek niet significant te verschillen tussen de test- en controlegroep ($p = 0.449$). Deze waarden moeten wel met enige voorzichtigheid geïnterpreteerd worden gezien de NSI een gewogen maat is van deze parameters.

3.4. Articulatie

3.4.1. Compensatoire en obligatoire stoornissen

In tabel 8 worden de percentages van voorkomen van compensatoire en obligatoire stoornissen bij onderzoeks- en controlegroep en bijhorende p-waarden (bekomen na uitvoeren van de Mann-Whitney U test) uitgebreid beschreven.

Obligatoire articulatie van plosieven kwam het vaakst voor bij de schisispatiënten, gevolgd door respectievelijk compensatoire articulatie van fricatieven, obligatoire articulatie van fricatieven en ten slotte compensatoire articulatie van plosieven. Bij de controlepersonen was eveneens het percentage van voorkomen van obligatoire articulatie van plosieven het hoogst, zij het een lager percentage dan bij de onderzoeksgroep. Lagere percentages van voorkomen werden gevonden voor respectievelijk: obligatoire articulatie van fricatieven, compensatoire articulatie van fricatieven en compensatoire articulatie van plosieven.

Bij het beoordelen van compensatoire articulatiestoornissen werden voornamelijk velaire, faryngale en glottale ('glottale stops') producties opgemerkt.

De Mann-Whitney U test toonde aan dat zowel compensatoire articulatie van plosieven ($p = 0.008$) en fricatieven ($p = 0.002$) als obligatoire articulatie van plosieven ($p < 0.001$) en fricatieven ($p = 0.001$) significant vaker worden toegepast bij de schisispatiënten dan bij de controlegroep.

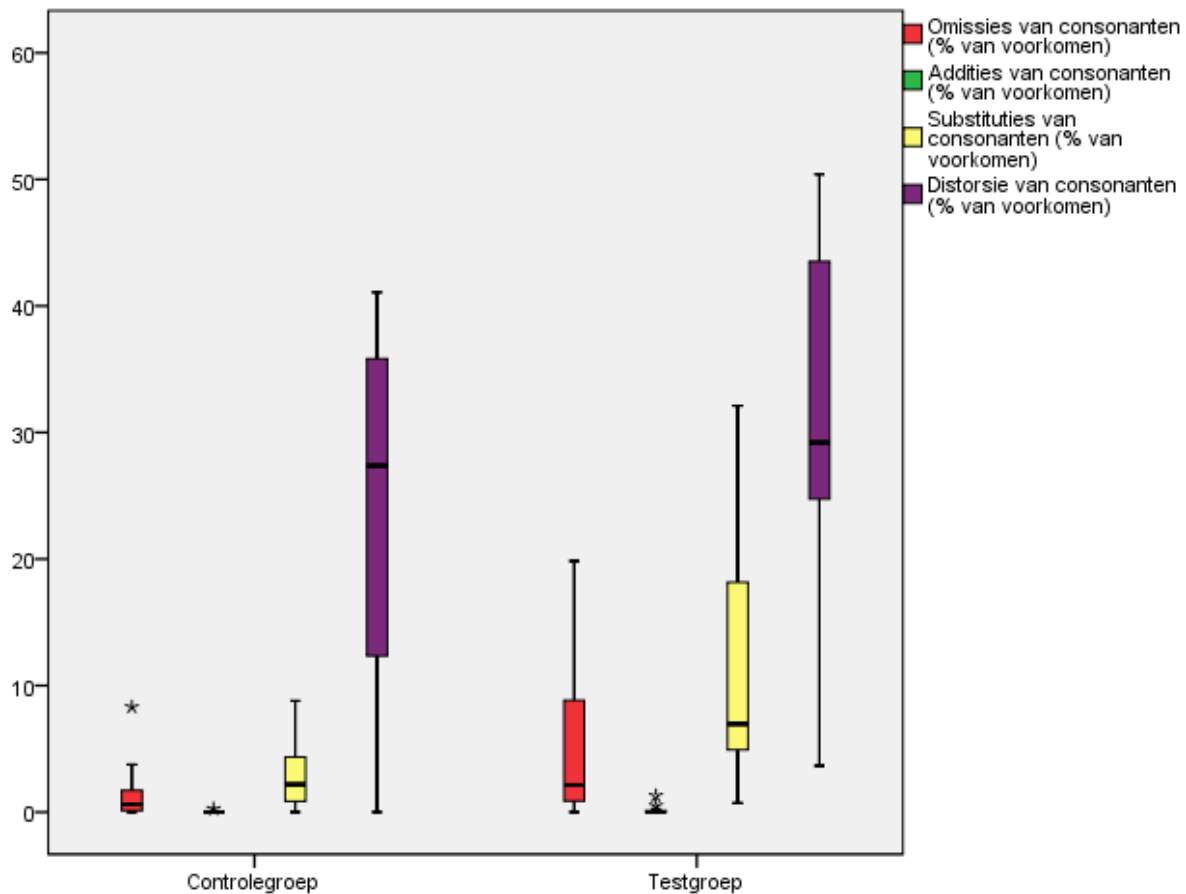
Tabel 8: het percentage van voorkomen van compensatoire en obligatoire stoornissen bij test- en controlegroep

	Testgroep					Controlegroep					p-waarde
	Gemiddelde	Standaard-deviatie	Mediaan	Minimum	Maximum	Gemiddelde	Standaard-deviatie	Mediaan	Minimum	Maximum	
Compensatoire stoornissen plosieven	7.56	17.079	1.20	0.00	66.94	0.05	0.197	0.00	0.00	0.79	0.008
<i>/p/ /b/</i>	1.75	6.245	0.00	0.00	25.00	0.00	0.000	0.00	0.00	0.00	0.564
<i>/t/ /d/</i>	9.61	22.271	1.53	0.00	87.69	0.09	0.379	0.00	0.00	1.52	0.010
<i>/k/ /g/</i>	6.64	13.588	1.11	0.00	41.86	0.00	0.000	0.00	0.00	0.00	0.015
Compensatoire stoornissen fricatieven	8.93	12.649	4.76	0.00	43.81	0.67	2.198	0.00	0.00	8.82	0.002
<i>/s/ /z/</i>	14.78	22.905	6.98	0.00	78.43	1.25	4.494	0.00	0.00	18.00	0.004
<i>/ʃ/ /ʒ/</i>	6.25	20.290	0.00	0.00	80.00	0.00	0.000	0.00	0.00	0.00	0.564
<i>/f/ /v/</i>	0.78	2.266	0.00	0.00	8.33	0.00	0.000	0.00	0.00	0.00	0.564
<i>/x/ /ɣ/</i>	6.40	9.443	2.38	0.00	33.33	0.30	1.191	0.00	0.00	4.76	0.023
Obligatoire stoornissen plosieven	13.73	10.649	11.86	0.00	37.19	1.78	2.592	0.00	0.00	8.59	<0.001
<i>/p/ /b/</i>	21.10	21.112	15.39	0.00	64.52	2.68	4.429	0.00	0.00	15.15	0.003
<i>/t/ /d/</i>	14.77	13.606	12.31	0.00	50.00	1.52	2.478	0.00	0.00	9.09	<0.001
<i>/k/ /g/</i>	3.32	3.978	2.27	0.00	13.33	0.84	1.379	0.00	0.00	4.44	0.062
Obligatoire stoornissen fricatieven	8.34	10.514	3.83	0.00	34.29	1.75	3.359	0.47	0.00	10.78	0.001
<i>/s/ /z/</i>	3.73	5.880	0.98	0.00	21.57	0.63	2.031	0.00	0.00	8.00	0.067
<i>/ʃ/ /ʒ/</i>	21.04	23.467	20.00	0.00	66.67	6.88	14.009	0.00	0.00	50.00	0.086
<i>/f/ /v/</i>	7.04	15.715	0.00	0.00	58.33	1.60	4.294	0.00	0.00	16.67	0.491
<i>/x/ /ɣ/</i>	19.82	22.496	9.64	0.00	71.43	3.87	8.196	0.00	0.00	28.57	0.002

3.4.2. Fonetische stoornissen

De percentages van voorkomen van fonetische stoornissen voor test- en controlegroep zijn uitgezet in een boxplot, figuur 7. De frequentst voorkomende fonetische stoornissen bij de schisispatiënten waren distorsies van consonanten, met een percentage van voorkomen van 31.46%. Substituties van consonanten hadden het tweede hoogste percentage van voorkomen, namelijk 11.62%, gevolgd door omissies (5.69%) en addities (0.14). Ook bij de controlegroep werd deze volgorde aangehouden: distorsies (24.58%), substituties (2.75%), omissies (1.42%) en addities (0.02%).

Figuur 7 : percentages van voorkomen van fonetische stoornissen bij test- en onderzoeksgroep; significant hoger bij de schisispatiënten wat betreft omissies en substituties



De Mann-Whitney U test toonde aan dat het percentage van voorkomen van omissies ($p = 0.011$) en substituties ($p = 0.001$) significant hoger is bij de onderzoeksgroep dan bij de controlegroep. De percentages van voorkomen van distorsies waren normaal verdeeld (Shapiro-Wilk test, $p = 0.124$). Daarom werd bij deze vergelijking tussen test- en controlegroep de ongepaarde Student's t-test uitgevoerd. Deze test toonde aan dat er geen significant verschil is ($p = 0.173$) in het percentage van voorkomen van distorsies tussen test- en controlegroep.

Post-hoc analyse: omissies

Tabel 9 beschrijft de percentages van voorkomen van omissies, gecategoriseerd volgens articulatiwijze. Daaruit blijkt dat bij schisispatiënten het percentage van voorkomen van omissie van liquidae het hoogst is, gevolgd door omissie van fricatieven. Bij de controlepersonen bleef deze volgorde behouden, zij het met lagere percentages van voorkomen.

Tabel 9: percentages van voorkomen van omissies, onderverdeeld volgens productiewijze, van test- en controlegroep

	Testgroep				
	Gemiddelde	Standaarddeviatie	Mediaan	Minimum	Maximum
Omissie van fricatieven	5.60	8.334	2.00	0.00	27.62
Omissie van plosieven	2.41	3.777	1.18	0.00	13.22
Omissie van liquidae	13.15	15.885	5.62	0.00	53.06
Omissie van semi-vocalen	0.57	2.273	0.00	0.00	9.09
Omissie van nasalen	1.78	2.297	0.76	0.00	6.25
	Controlegroep				
	Gemiddelde	Standaarddeviatie	Mediaan	Minimum	Maximum
Omissie van fricatieven	0.84	1.518	0.00	0.00	5.71
Omissie van plosieven	0.44	0.638	0.00	0.00	2.34
Omissie van liquidae	4.02	5.988	1.53	0.00	23.23
Omissie van semi-vocalen	0.00	0.000	0.00	0.00	0.00
Omissie van nasalen	0.58	1.106	0.00	0.00	3.13

De Mann-Whitney U test toonde aan dat het percentage van voorkomen van omissies van fricatieven ($p = 0.005$) en omissies van plosieven ($p = 0.007$) significant hoger was bij de testgroep in vergelijking met de controlegroep. Omissie van liquidae ($p = 0.047$), omissie van semi-vocalen ($p = 0.780$) en omissie van nasalen ($p = 0.149$) bleken niet significant meer voor te komen bij de schisispatiënten.

Post-hoc analyse: substituties

In tabel 10 zijn de percentages van voorkomen weergegeven voor substituties, gecategoriseerd volgens productiewijze. De drie meest voorkomende substituties, zowel bij test- als controlegroep zijn respectievelijk: substitutie van fricatieven, substitutie van plosieven en substitutie van liquidae.

Tabel 10: percentages van voorkomen van substituties, onderverdeeld volgens productiewijze, van test- en controlegroep

	Testgroep				
	Gemiddelde	Standaarddeviatie	Mediaan	Minimum	Maximum
Substitutie van fricatieven	18.49	14.071	13.81	0.96	49.51
Substitutie van plosieven	18.61	23.128	8.84	0.00	69.53
Substitutie van liquidae	3.02	5.845	0.52	0.00	23.23
Substitutie van semi-vocalen	1.14	3.105	0.00	0.00	9.09
Substitutie van nasalen	1.88	2.747	0.76	0.00	8.47
	Controlegroep				
	Gemiddelde	Standaarddeviatie	Mediaan	Minimum	Maximum
Substitutie van fricatieven	6.75	4.547	6.19	0.00	14.56
Substitutie van plosieven	1.73	1.966	0.79	0.00	7.09
Substitutie van liquidae	1.71	5.770	0.00	0.00	23.23
Substitutie van semi-vocalen	1.14	3.105	0.00	0.00	9.09
Substitutie van nasalen	0.20	0.530	0.00	0.00	1.59

Substitutie van fricatieven bleek, na uitvoeren van de Mann-Whitney U test, significant vaker te worden toegepast bij schisispatiënten. Substituties van consonanten met een andere productiewijze bleken niet significant vaker voor te komen bij de onderzoeksgroep, het aangepaste significantieniveau ($\alpha \leq 0.01$) in acht houdend. Voor deze substituties werden volgende p-waarden bekomen: substitutie van plosieven ($p = 0.011$), substitutie van liquidae ($p = 0.171$), substitutie van semi-vocalen ($p = 1.000$) en substitutie van nasalen ($p = 0.047$).

3.4.3. Fonologische stoornissen

De gemiddelde percentages van voorkomen bij de schisispatiënten, zijn per fonologisch proces terug te vinden in tabel 11. Het frequentst voorkomende fonologisch proces bij de onderzoeksgroep was verstemlozing, gevolgd door clustervereenvoudiging door clusterreductie, backing en deletie van finale consonanten.

Bij zeven schisispatiënten (44%) werd geen fonologische stoornis opgemerkt. Minstens één fonologisch proces was aanwezig (het percentage van voorkomen bedroeg minstens 20% en was minstens vier keer aanwezig in het spraakstaal (McReynolds en Elbert, 1981)) bij negen deelnemers (56%): bij vier patiënten (25%) was één proces aanwezig, bij vier anderen (25%) waren twee processen aanwezig en bij één patiënt (6%) waren drie fonologische processen aanwezig.

Tabel 11: het percentage van voorkomen van fonologische processen bij de testgroep

	Testgroep				
	Gemiddelde	Standaarddeviatie	Mediaan	Minimum	Maximum
<i>Syllabestructuurprocessen</i>					
Deletie van finale consonanten	7.66	9.539	2.96	0.00	32.50
Deletie van initiale consonanten	0.81	1.494	0.00	0.00	4.96
Clustervereenvoudiging door clusterreductie	14.95	19.256	5.75	0.00	61.25
Clustervereenvoudiging door epenthesis	2.74	3.799	1.23	0.00	12.05
Weglating van onbeklemtoonde syllaben	0.76	1.123	0.00	0.00	3.33
Coalescentie	0.05	0.183	0.00	0.00	0.73
<i>Substitutieprocessen</i>					
Fronting	2.38	2.714	1.72	0.00	10.17
Backing	9.09	10.748	4.44	0.00	30.41
Stopping	2.20	2.727	1.91	0.00	9.71
Vervanging van liquidae	2.51	5.639	0.00	0.00	22.22
Denasalisatie	0.30	0.636	0.00	0.00	1.69
Verstemlozing	22.85	18.841	18.07	2.08	66.67
<i>Harmonieprocessen</i>					
Assimilatie	0.23	0.359	0.00	0.00	0.76
Reduplicatie	0.48	1.074	0.00	0.00	3.08
Metathesis	0.00	0.000	0.00	0.00	0.00
Substitutie van n naar m	1.97	2.613	0.00	0.00	7.32

Tabel 12 geeft een overzicht van de percentages van voorkomen van de fonologische processen bij de controlegroep weer. Ook bij de controlegroep was het vaakst voorkomende fonologisch proces verstemlozing. Clustervereenvoudiging door clusterreductie had het tweede hoogste percentage van voorkomen, gevolgd door vervanging van liquidae en deletie van finale consonanten.

Meer dan de helft van de controlepersonen, namelijk tien (63%), had geen fonologische stoornissen. Bij zes anderen (38%) werd minstens één fonologisch proces opgemerkt: vijf controlepersonen (31%) hadden één fonologisch proces, bij één controlepersoon waren twee fonologische processen aanwezig.

Tabel 12: het percentage van voorkomen van fonologische processen bij de controlegroep

	Controlegroep				
	Gemiddelde	Standaarddeviatie	Mediaan	Minimum	Maximum
<i>Syllabestructuurprocessen</i>					
Deletie van finale consonanten	1.47	2.735	0.42	0.00	10.83
Deletie van initiale consonanten	0.10	0.407	0.00	0.00	1.63
Clustervereenvoudiging door clusterreductie	4.33	8.736	1.22	0.00	36.14
Clustervereenvoudiging door epenthesis	1.14	1.621	0.60	0.00	6.02
Weglatting van onbeklemtoonde syllaben	0.35	0.530	0.00	0.00	1.12
Coalescentie	0.18	0.403	0.00	0.00	1.38
<i>Substitutieprocessen</i>					
Fronting	0.64	1.368	0.00	0.00	5.08
Backing	0.33	0.807	0.00	0.00	3.13
Stopping	0.60	1.036	0.00	0.00	3.81
Vervanging van liquidae	1.78	5.515	0.00	0.00	22.22
Denasalisatie	0.00	0.000	0.00	0.00	0.00
Verstemlozing	13.00	12.289	9.56	0.00	42.55
<i>Harmonieprocessen</i>					
Assimilatie	0.42	0.811	0.00	0.00	2.96
Reduplicatie	0.49	1.251	0.00	0.00	4.76
Metathesis	0.14	0.564	0.00	0.00	2.26
Substitutie van n naar m	0.48	1.027	0.00	0.00	2.63

De Mann-Whitney U test toonde aan dat het aantal aanwezige fonologische processen niet significant hoger is bij de onderzoeksgroep ($p = 0.196$) in vergelijking met het aantal aanwezige processen bij de controlegroep. Na uitvoeren van deze test bleek wel dat een aantal fonologische processen significant vaker voorkwamen bij de schisispatiënten t.o.v. de controlegroep, namelijk: deletie van finale consonanten ($p = 0.019$), clustervereenvoudiging door clusterreductie ($p = 0.015$), fronting ($p = 0.041$) en backing ($p < 0.001$).

4. Discussie

In dit onderzoek werden de spraakresultaten na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad, uitgevoerd door een ervaren chirurg, beschreven a.d.h.v. volgende parameters: de nasometrische waarden, de NSI, en de perceptuele beoordeling van spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid, nasaliteit en articulatie. Ter vergelijking werd de spraak van een controlegroep, gecontroleerd voor leeftijd en geslacht, op dezelfde manier in kaart gebracht. De testgroep, de schisispatiënten na palatoplastiek volgens Sommerlad, bestond uit tien meisjes en zes jongens met een gemiddelde leeftijd van 5.4 jaar (range: 3.8 – 8.6 jaar). De gemiddelde leeftijd van de controlegroep was 5.3 jaar (range: 3.9 – 8.5 jaar). Er werd geen significant leeftijdsverschil gevonden. Bovendien werd ter vergelijking een literatuuronderzoek uitgevoerd naar de eerder gerapporteerde resultaten na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad én naar de resultaten gevonden na palatoplastiek volgens andere technieken.

Als hypothese werd, op basis van de literatuur, vooropgesteld dat de spraak van schisispatiënten een mindere spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid, meer articulatorische fouten, meer en ernstigere resonantiestoornissen, een lagere NSI-waarde en hogere nasometrische waarden bevat, dan kinderen zonder schisis met eenzelfde gemiddelde leeftijd en geslacht. Bovendien werd verwacht dat de resultaten van dit onderzoek overeenstemmen met reeds gerapporteerde resultaten, van spraakonderzoeken uitgevoerd in andere talen dan het Nederlands, na palatoplastiek volgens Sommerlad. Ten slotte werden, op basis van de resultaten beschreven na palatoplastiek volgens Sommerlad, betere spraakresultaten verwacht na toepassing van de techniek volgens Sommerlad dan na andere technieken ter sluiting van het verhemelte.

Van de voorgaande onderzoeken bleken enkel de onderzoeken van Luyten et al. (2013, 2014) de spraak na toepassing van de techniek volgens Sommerlad gedetailleerd te beschrijven, al werden bij deze onderzoeken de spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid en de NSI niet nagegaan. Bovendien hielden beide onderzoeken beperkingen in: er werden minder proefpersonen geïnccludeerd dan bij dit onderzoek (Luyten et al. 2013), de spraakstalen verzameld bij de Oegandese patiënten bestonden uit spraak in de 2^e taal (Engels) (Luyten et al. 2013, 2014), en de analyses werden uitgevoerd door beoordelaars met een andere moedertaal dan het Engels (Nederlands) (Luyten et al. 2013, 2014).

Gezien de verscheidenheid aan articulatiefouten gerapporteerd bij schisispatiënten (Peterson-Falzone, Hardin-Jones, Karnell & McWilliams, 2010; Kummer, 2008), en de resultaten over spraakverstaanbaarheid na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad (Andrades et al., 2008; Doucet et al., 2013), doch reeds weinig onderzocht, werd een mindere spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid verwacht bij de schisispatiënten. Uit de resultaten bleek dit ook zo te zijn: de scores voor spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid waren significant hoger (i.e. een verminderde spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid) bij de schisispatiënten i.v.m. de scores van de controlegroep.

De resultaten over spraakverstaanbaarheid na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad bekomen in dit onderzoek, namelijk een goede verstaanbaarheid bij 56% van de deelnemers, zijn nagenoeg gelijklopend met wat reeds eerder gepubliceerd werd: Andrades et al. (2008) vond een goede spraakverstaanbaarheid bij 63% van de patiënten, Doucet et al. (2013) beschreef een adequate spraakverstaanbaarheid bij 75% van de deelnemers. Belangrijke opmerking hierbij is dat de resultaten bij Andrades et al. (2008) gevonden werden na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad in combinatie met de palatoplastiek volgens Bardach en bij Doucet et al. (2013) na toepassing van het Talmantprotocol. Een mogelijke verklaring voor de betere scores voor spraakverstaanbaarheid gevonden door Doucet et al. (2013) kan worden gevonden in het feit dat bij dit onderzoek enkel patiënten werden geïnccludeerd met een complete unilaterale cheilognatopalatoschisis, terwijl bij dit onderzoek en dat van Andrades et al. (2008) verschillende types schisis werden geïnccludeerd. Door Fara en Dvorak (1970) werd immers beschreven dat een betere functionele outcome verwacht kan worden bij een unilaterale cheilognatopalatoschisis (Veau III). Bovendien werd bij huidig onderzoek het protocol volgens John et al. (2006) gehanteerd, dat bij de scoring zowel spraakverstaanbaarheid als –aanvaardbaarheid in rekening brengt, terwijl Andrades et al. (2008) het protocol beschreven door Sell (1999) volgde en door Doucet et al. (2013) geen gevolgde richtlijnen of definities werden weergegeven.

Ook bij beschouwing van de literatuur waarin de resultaten na andere types palatoplastiek beschreven werden, bleek dat de spraakverstaanbaarheid slechts zelden werd nagegaan. Er werden in deze context voornamelijk gegevens gerapporteerd na uitvoering van de Wardill-Kilnerpalatoplastiek. Witzel, Clarke, Lindsay & Thomson (1979) beschreven spraakverstaanbaarheid in combinatie met -aanvaardbaarheid, net als in dit onderzoek. Daaruit bleek dat 65.11% van de schisispatiënten na de Wardill-Kilnerpalatoplastiek een normale spraak had die goed verstaanbaar was, na de palatoplastiek volgens Langenbeck bedroeg dit percentage 47.62%. Van Lierde et al. (2010) vond een licht tot matig afwijkende spraakverstaanbaarheid bij 21% van de proefpersonen na palatoplastiek volgens Furlow (tweetijdige aanpak) en bij 12% van de patiënten na toepassing van de Wardill-Kilnertechniek (ingreep uitgevoerd in eerste tijd). De spraakverstaanbaarheid bij het vertellen van een verhaal, vergelijkbaar met spontane spraak, bedroeg bij schisispatiënten na toepassing van de Wardill-Kilnertechniek 81% (Van Lierde, 2010). Een vergelijking met de resultaten van voorgaande onderzoeken blijkt nauwelijks mogelijk gezien de veel hogere leeftijd bij de onderzoeken van Witzel et al. (1979) en Van Lierde et al. (2010) en een andere benadering van spraakverstaanbaarheid (Van Lierde, 2004).

Resonantiestoornissen werden bij schisispatiënten overvloedig onderzocht en beschreven in de literatuur (Kummer 2008). Bijgevolg lag de hogere aanwezigheid van resonantiestoornissen bij de schisispatiënten binnen de verwachtingen. Na een vergelijking tussen onderzoeks- en controlegroep bleek namelijk dat deze resonantiestoornissen significant meer (nasale emissie) en soms ook ernstiger (hypernasaliteit en nasale emissie) voorkwamen bij de schisispatiënten dan bij de controlepersonen. Nasale turbulentie was niet significant verschillend tussen test- en controlegroep, terwijl deze resonantiestoornis aanwezig was bij 31% van de schisispatiënten en afwezig was bij de controlegroep. De vraag kan gesteld worden of er wel een significant verschil in de aanwezigheid van turbulentie zou zijn bij een grotere steekproef.

Wanneer eerder gepubliceerde resultaten over resonantiestoornissen beschouwd worden, blijkt dat na toepassing van de primaire palatoplastiek volgens Sommerlad slechts zelden een ernstige hypernasaliteit gerapporteerd werd: 0% (Sommerlad, 2004), 6.7% (Andrades et al., 2008), 10% (Doucet et al., 2013), 0% (Luyten et al., 2013), 0% (Luyten et al., 2014). Ook in dit onderzoek werd bij niemand een ernstige hypernasaliteit vastgesteld. Anderzijds blijkt een grotere variatie in de resultaten over de afwezigheid van hypernasaliteit: 33% (Sommerlad, 2004), 33.3% (Andrades et al., 2008), 35% (Doucet et al., 2013), 82% (Luyten et al., 2013), 50% (Luyten et al., 2014). Bij dit onderzoek was hypernasaliteit slechts bij één schisispatiënt (6%) afwezig.

Al deze resultaten werden bekomen na een perceptuele beoordeling van de spraak, zij het m.b.v. verschillende protocols: het CAPS-protocol van Harding et al. (1997) werd toegepast door Sommerlad (2004), Andrades et al. (2008) volgde het protocol beschreven door Sell et al. (1999), het protocol volgens Henningson et al. (2008) werd toegepast door Doucet et al. (2013) en het CAPS-A protocol (John et al., 2006) werd gevolgd bij de onderzoeken van Luyten et al. (2013, 2014) en huidig onderzoek. Ondanks dat door Luyten et al. (2013, 2014) hetzelfde protocol werd gevolgd als in dit onderzoek, blijkt het verschil in het aantal proefpersonen met afwezige hypernasaliteit groot. Een mogelijke verklaring hiervoor kan het verschil in ervaring zijn tussen de beoordelaars bij Luyten et al. (2013; 2014) en de beoordelaars van dit onderzoek. Een andere beperking van bovenstaande onderzoeken is de in- en exclusie van bepaalde schisistypes. Zo blijkt dat Sommerlad (2004), Andrades et al. (2008) en Doucet et al. (2013) een gelijkaardig percentage proefpersonen vonden met afwezige hypernasaliteit. Sommerlad (2004) vond dit percentage echter uitsluitend bij patiënten met een submuceuze palatoschisis, terwijl bij Doucet et al. (2013) enkel patiënten met een unilaterale cheilognatopalatoschisis werden geïnccludeerd. Bij Andrades et al. (2008) werden de schisistypes van de patiënten bij wie de Sommerladtechniek werd toegepast niet vermeld.

Bij dit onderzoek werd duidelijk dat nasale turbulentie (69%) beduidend vaker afwezig was bij de schisispatiënten dan nasale emissie (19%). Dit verschil was niet aanwezig bij resultaten van andere onderzoeken die de spraakoutcome na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad nagingen, aangezien daarin enkel nasale emissie (Sommerlad, 2004; Andrades et al., 2008) werd beoordeeld, of nasale emissie en nasale turbulentie samen (Luyten et al., 2013, 2014).

Witzel et al. (1979) beoordeelde hypernasaliteit, zij het na uitvoeren van een spiegeltest, als afwezig in 67.44% van de gevallen na de pushbacktechniek en in 66.67% van de gevallen na palatoplastiek volgens Langenbeck. Ook McWilliams et al. (1996) vond, volgens een eigen ontworpen protocol (McWilliams et al., 1981), hoge percentages voor afwezige hypernasaliteit na de Furlowpalatoplastiek, namelijk bij 79% van de proefpersonen. In diezelfde context vonden Brothers, Dalston, Peterson en Lawrence (1996), het protocol van Dalston (Dalston, 1983) volgend, een aantal van 62%. Meer recent beschreef Van Lierde et al. (2004), gebruik makend van een vijfpuntenschaal, een afwezige hypernasaliteit bij 43% van de patiënten na toepassing van de Furlowtechniek (uitgevoerd in twee tijden) en bij 77% van de schisispatiënten na uitvoering van de ééntijdige Wardill-Kilnerpalatoplastiek. Koh et al. (2009) rapporteerde een afwezige hypernasaliteit bij 87.50% van de proefpersonen na uitvoering van een klassieke pushbackpalatoplastiek en bij 80% van de schisispatiënten na uitvoeren van een gemodificeerde vorm van deze palatoplastiek, waarbij meer aandacht uitging naar het vermijden van relaxatie-incisies en diens gevolgen op de maxillofaciale groei door de vorming van littekenweefsel.

Door bovenbeschreven auteurs werd zowel voor de beoordeling van nasale emissie als voor de beoordeling van nasale turbulentie dezelfde methodologie toegepast. Witzel et al. (1979) beschreef een 'normale hoeveelheid' nasale emissie bij 46.51% van de patiënten na de pushbackpalatoplastiek, en bij 42.86% na palatoplastiek volgens Langenbeck. McWilliams et al. (1996) vond bij 60% van de patiënten afwezige nasale emissie na palatoplastiek volgens Furlow. Bij het onderzoek door Spauwen et al. (1992) bedroeg dit percentage 90%, gebruik makend van een vierpuntenschaal bij de perceptuele beoordeling.

Gezien verschillende variabelen bij bovenbeschreven onderzoeken, met een belangrijke invloed op de postoperatieve resultaten, niet overeenkomen met het huidige onderzoek, zoals leeftijd (Witzel et al., 1979; Van Lierde et al., 2004), aard van de evaluatie (Witzel et al., 1979) en type schisis (Brothers et al., 1996; Van Lierde et al., 2010), is het niet aangewezen op basis van bovenstaande resultaten een besluit te vormen omtrent de aanwezigheid van hypernasaliteit of nasale emissie na andere types palatoplastiek.

In een reflectie over de gevonden nasometrische waarden werden deze resultaten enkel vergeleken met reeds eerder gerapporteerde waarden van Nederlandstalige proefpersonen. Onderzoek van Van Lierde (2001) toonde immers een invloed van taal aan op de resultaten bij nasometrie. Door Luyten et al. (2014) werden de nasometrische waarden weergegeven voor een testgroep na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad en diens controlegroep, gecontroleerd voor leeftijd en geslacht. Nasometrie werd uitgevoerd bij productie van [a:], [i:], [u:], en de zinnen van de SNAP-test, vertaald en aangepast door Van Lierde et al. (2003): bilabialen, alveolair, velair en sibilant. Na een vergelijking van deze resultaten met de resultaten bekomen bij dit onderzoek bleek dat de nasometrische waarden vergelijkbaar zijn.

Door Van Lierde et al. (2004) werden de postoperatieve nasometrische waarden beschreven bij twee groepen: één groep onderging de palatoplastiek volgens Furlow (tweetijdige sluiting), bij de andere groep werd de Wardill-Kilnertechniek (sluiting in eerste tijd) toegepast. De nasometrische waarden van de orale tekst bij de Furlowgroep en alle nasometrische waarden van de groep na toepassing van de Wardill-Kilnertechniek bleken lager te liggen dan deze gevonden bij dit onderzoek. De gemiddelde leeftijd bij het onderzoek van Van Lierde et al. (2004) lag veel hoger dan bij dit onderzoek, namelijk 19.6 jaar bij patiënten bij wie de palatoplastiek volgens Furlow werd toegepast en 21.8 jaar na toepassing van de Wardill-Kilnertechniek. Bijgevolg is een mogelijke verklaring voor deze lagere nasometrische waarden de stelling dat de spraak na toepassing van palatoplastiek hetzij constant blijft, hetzij verbetert, dankzij logopedische interventie en/of een secundaire ingreep (Andrades et al., 2008).

Met de NSI-waarde werd een tweede mogelijkheid om de nasaliteit objectief te beoordelen benut. Bij de schisispatiënten werd een gemiddeld negatieve NSI-waarde bekomen, -1.64, met een mediaan van -1.75 (range: -9.09 tot 5.64). Bij de controlegroep bedroeg dit gemiddelde 3.01, met een mediaan van 3.70 (range: -1.87 tot 5.12). Na vergelijking van de NSI-waarden gevonden bij schisispatiënten door Bettens et al. (2015) blijkt daar deze gemiddelde waarde veel negatiever te zijn. Dit valt mogelijks te verklaren doordat bij de bepaling van deze waarde enkel schisispatiënten werden geïnccludeerd met aanwezige hypernasaliteit. Gezien de revisie van de originele NSI, de in huidig onderzoek toegepaste NSI 2.0 (Bettens et al., 2015), slechts zeer recent online beschikbaar is en pas in november wordt gepubliceerd, zijn er in de literatuur nog geen verdere data over de NSI terug te vinden.

Compensatoire en obligatoire articulatie kwamen in dit onderzoek significant meer voor bij de schisispatiënten. Gezien deze articulatie ofwel een rechtstreeks gevolg is van de anatomische afwijkingen eigen aan schisis (obligatoire articulatie) of ter compensatie van de verminderde mogelijkheden als gevolg van deze afwijkingen wordt toegepast (Kummer 2008, 2011), is deze bevinding vrij logisch. Luyten et al. (2013) vond enkel een significant hoger voorkomen van de compensatoire articulatie van plosieven en fricatieven. Bij analyse van de resultaten gevonden door Luyten et al. (2013) blijkt dat obligatoire articulatie van plosieven en fricatieven relatief frequent voorkwam bij de Oegandese controlegroep i.v.m. de resultaten van de controlegroep bij dit onderzoek. De invloed van de taal (testafname van de Oegandese proefpersonen gebeurde in het Engels) zou dus een mogelijke verklaring kunnen zijn voor het feit dat bij Luyten et al. (2013) de aanwezigheid van obligatoire articulatie niet significant verschilde tussen test- en controlegroep. Daarnaast bleken de percentages van voorkomen van compensatoire articulatie bij huidig onderzoek vrij laag te liggen i.v.m. de resultaten gerapporteerd door Luyten et al. (2013, 2014). Een mogelijke verklaring zou het gebrek aan ervaring van de beoordelaars van dit onderzoek, in het beoordelen van spraak bij schisispatiënten, kunnen zijn.

De hypothese dat er meer fonetische en fonologische stoornissen aanwezig zijn bij schisispatiënten werd bij dit onderzoek bevestigd. Deze hypothese werd onder andere vooropgesteld o.b.v. de stelling van Morris en Ozanne (2003) die na een literatuuroverzicht het volgende stelden: “Sprak bij schisispatiënten kan een variëteit aan fouten bevatten, waaronder veel fonetische en fonologische stoornissen” (Morris en Ozanne, 2003, p.461).

Uitingen van de testgroep bestonden uit significant meer omissies en substituties, terwijl het percentage van voorkomen van distorsies niet significant verschilde met dat van de controlegroep. Dit was een opvallend resultaat gezien obligatoire articulatiestoornissen ook beschouwd werden als distorsies en deze wel significant verschilden tussen test- en controlegroep. Bovendien vond Luyten et al. (2013) wel significant meer omissies, substituties én distorsies bij de schisispatiënten. Uit een vergelijking met de resultaten van Luyten et al. (2014), waar ook een Nederlandstalige test- en controlegroep werd beoordeeld, lijkt het verschil te liggen bij de beoordeling van distorsies bij de controlegroep: het percentage van voorkomen van distorsies bij de controlegroep ligt beduidend hoger bij huidig onderzoek dan bij het onderzoek van Luyten et al. (2014), voornamelijk wanneer we het percentage van voorkomen van addentale en interdentale articulatie van apico-alveolairen vergelijken. Eén van de mogelijke verklaringen is dat de beoordelaars bij huidig onderzoek een andere interne standaard hanteerden. De beoordelaars verschilden immers op vlak van ervaring met de beoordelaars bij Luyten et al. (2014). Bovendien zijn deelnemers uit de test- en controlegroep bij Luyten et al. (2014) nagenoeg één jaar jonger dan deze bij dit onderzoek. Van Lierde en Van den Abbeele (2009) gaven aan dat rond de leeftijd van vier jaar voornamelijk distorsies worden geobserveerd, en omissies en substituties voornamelijk voorkomen op jongere leeftijd. Dit bleek ook uit de resultaten: de percentages van voorkomen van omissies en substituties waren bij Luyten et al. (2014) iets hoger i.v.m. huidig onderzoek, terwijl bij huidig onderzoek meer distorsies aanwezig waren.

Enkele fonologische processen werden significant vaker opgemerkt bij de schisispatiënten, respectievelijk: verstemlozing, clustervereenvoudiging door clusterreductie, backing en deletie van finale consonanten. Ook Luyten et al. (2013) vond een significant hoger voorkomen van deze processen bij de Oegandese schisispatiënten na toepassing van primaire palatoplastiek volgens Sommerlad, met uitzondering van fronting. De gegevens van Luyten et al. (2014) lijken deze bevindingen te bevestigen, al werden geen significantiewaarden weergegeven gezien de vergelijking van test- en controlegroep buiten het bestek van dat onderzoek vielen. Bovendien vond Luyten et al. (2014) ook dat fronting vrij vaak voorkwam (groep van de tweede meest voorkomende processen) bij de schisispatiënten.

Bij 56% (9/20) van de schisispatiënten uit huidig onderzoek was minstens één fonologisch proces aanwezig volgens de richtlijnen beschreven door McReynolds en Elbert (1981). Luyten et al. (2013, 2014) vond minstens één aanwezig fonologisch proces bij elke Oegandese schisispatiënt, 100% (11/11), dit percentage bedroeg 75% (9/12) bij de Belgische onderzoeksgroep in het onderzoek van Luyten et al. (2014). Gezien de gemiddelde leeftijden op het moment van het spraakonderzoek lager zijn bij de onderzoeken van Luyten et al. (2013, 2014) i.v.m. de gemiddelde leeftijd bij huidig onderzoek, kan leeftijd de verklarende factor zijn voor het lagere percentage proefpersonen met minstens één aanwezig fonologisch proces gevonden bij huidig onderzoek (Schaerlaekens, 2008). Daarnaast ging het bij de onderzoeken van Luyten et al. (2013, 2014) om Oegandees sprekende schisispatiënten. Enkel in het onderzoek van Luyten et al. (2013) was het aantal fonologische processen aanwezig bij de schisispatiënten significant hoger dan bij de controlegroep. Algemeen lijkt de stelling bevestigd dat de fonologische ontwikkeling bij schisispatiënten vertraagd is, wat al eerder beschreven werd in de literatuur (McWilliams, Morris & Shelton, 1990; Chapman, 1993).

Ook bij de rapportering van resultaten na andere technieken werd de articulatie zelden beschreven. Bovendien werden deze, de enkele keren dat articulatie nagegaan werd, erg summier weergegeven. McWilliams et al. (1996) vond, bij 98% van de patiënten na Furlowpalatoplastiek geen articulatiestoornissen gerelateerd aan velofaryngale insufficiëntie. Door Van Lierde et al. (2004) werden drie articulatiefouten beschreven die zowel bij de groep na toepassing van de Wardill-Kilnertechniek als bij de onderzoeksgroep na de Furlowpalatoplastiek aanwezig waren: distorsies van /s/ en /r/ en de toepassing van verstemlozing. Compensatoire articulatie werd door Koh et al. (2009) beschreven bij 12.5% van de patiënten na de klassieke pushbackpalatoplastiek en bij 13.33% van de patiënten na de gemodificeerde pushbackpalatoplastiek. Net als Koh et al. (2009) beoordeelde Spauwen et al. (1992) de articulatie algemeen: na palatoplastiek volgens Langenbeck was de articulatie goed tot sufficiënt bij 70% van de patiënten, na palatoplastiek volgens Furlow was dat 60%. Gezien de andere benaderingswijzes van articulatie bij bovenbeschreven onderzoeken blijkt een vergelijking met de resultaten uit huidig onderzoek moeilijk.

Ter beschrijving van de spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid, nasaliteit en articulatie werden bij dit onderzoek spraakstalen perceptueel beoordeeld. Toepassing van deze beoordelingsmethode zorgde voor enkele zwaktes, eigen aan dit onderzoek. De perceptuele evaluatie werd uitgevoerd door twee masterstudenten logopedie, met weinig ervaring in het beoordelen van de spraak van schisispatiënten. Om hieraan tegemoet te komen werd een oefensessie georganiseerd waarbij spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid en resonantiestoornissen blind werden beoordeeld, onder supervisie van Drs. K. Bettens, ervaren in het beoordelen van de spraak van schisispatiënten. Om de articulatie zo correct mogelijk te beoordelen werd door de beoordelaars recente literatuur gelezen omtrent de articulatie eigen aan schisispatiënten. Desalniettemin werd de perceptuele beoordeling van articulatie uitgevoerd met weinig praktijkervaring in het beoordelen ervan.

Aangezien beide beoordelaars evenveel ervaring hadden met de beoordeling van spraak van schisispatiënten, uit zich dit in een goede interbeoordelaarsbetrouwbaarheid. De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid bij de beoordeling van spraakverstaanbaarheid en –aanvaardbaarheid en nasaliteit, weergegeven m.b.v. intraclass correlatiecoëfficiënten, kan, op één correlatiecoëfficiënt na, als excellent beoordeeld worden volgens Fleiss (Fleiss, 1986). De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid bij de beoordeling van articulatie bedroeg algemeen 87.50 % voor de testgroep en 86.92% voor de controlegroep. De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid lag iets lager bij de beoordeling van compensatoire en obligatoire fouten, wat te verklaren is door het gebrek aan ervaring in het beoordelen van dit type fouten.

Daarnaast zijn er nog factoren die nadelen impliceren bij het gebruik van perceptuele beoordelingen. Zo is het belangrijk dat de beoordelaars éézelfde invulling geven aan een bepaalde definitie (Kent, 1996). Bij de perceptuele beoordeling kwamen we hieraan tegemoet, gebruik makend van de definities beschreven door John et al. (2006). Bij de beoordeling van articulatie was dit niet mogelijk. Ondanks eenzelfde invulling van wat de stoornis inhoudt, kan de mate waarin een kenmerk aanwezig moet zijn sterk onderling verschillen. Wat bovendien van invloed kan geweest zijn was het feit dat de perceptuele beoordeling van articulatie niet blind gebeurde. Aangezien deze beoordeling zowel visueel als auditief moet gebeuren, bijvoorbeeld om addentaliteit op te merken, kon op die manier door de beoordelaars afgeleid worden of het om een schisispatiënt of een controlepersoon ging, wat de beoordeling kan beïnvloed hebben.

Een vergelijking met resultaten uit reeds bestaande literatuur bleek bijzonder moeilijk wanneer het gaat over perceptuele beoordelingen. Aangezien elk onderzoek bepaalde richtlijnen hanteerde bij het beoordelen van de spraak, meestal volgens een protocol, bijvoorbeeld: John et al. (2006), Henningson et al. (2008) of Sell et al. (1999), en andere variabelen controleert, is een onderlinge vergelijking van de resultaten niet altijd evident. Om de spraakresultaten na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad optimaal te kunnen vergelijken met de resultaten na andere types van primaire palatoplastiek, zou een grootschalig onderzoek kunnen opgezet worden waarbij de spraak beoordeeld wordt na verschillende types primaire palatoplastiek, conform één protocol. Bovendien dient hierbij een protocol gehanteerd te worden dat aanvaard is en frequent wordt toegepast in de internationale literatuur, opdat vergelijking met voorgaand en toekomstig onderzoek mogelijk is. Met een onderzoek opgezet op bovenbeschreven manier kan een éénduidig antwoord geformuleerd worden over de invloed van de toepassing van radicale intravelaire veloplastie tijdens primaire palatoplastiek.

5. Besluit

Alle bevindingen en vergelijkingen in beschouwing genomen werden de onderzoeksvragen als volgt beantwoord. De schisispatiënten hadden een significant verminderde spraakverstaanbaarheid en -aanvaardbaarheid, een hoger voorkomen van nasale emissie en een hogere mate van hypernasaliteit en nasale emissie i.v.m. de controlegroep. Bovendien werden significant hogere nasometrische waarden en lagere NSI-waarden bij de schisispatiënten gevonden i.v.m. de controlegroep. Articulatorisch bevatte de spraak van de schisispatiënten significant meer compensatoire en obligatoire fouten, substituties en omissies, en waren bepaalde fonologische processen vaker aanwezig dan bij de controlegroep. Deze resultaten zijn vergelijkbaar met eerder beschreven resultaten na primaire palatoplastiek volgens Sommerlad, met uitzondering van twee bevindingen: het aantal proefpersonen met afwezige hypernasaliteit en het feit dat distorsies niet significant vaker aanwezig waren bij de schisispatiënten, verschilden met wat eerder beschreven werd. Een vergelijking met resultaten na andere types van palatoplastiek bleek niet aangewezen gezien de verscheidenheid van protocols die werden gehanteerd en de gecontroleerde variabelen, zoals leeftijd en schisistype, die verschilden met huidig onderzoek. Ter vergelijking van de spraakresultaten na palatoplastiek volgens Sommerlad met de resultaten na andere types palatoplastiek zou idealiter een grootschalig onderzoek moeten opgezet worden waarbij de spraak na verschillende types palatoplastiek wordt beschreven volgens éénzelfde protocol, dat aanvaard is in de internationale literatuur.

6. Referentielijst

- Andrades, P., Espinosa-de-los-Monteros, A., Shell, D.H., Thurston, T.E., Fowler, J.S., Sudeep, et al. (2008). The importance of radical intravelar veloplasty during two-flap palatoplasty. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 122(4), 1121-1130.
- Agrawal, K. (2009). Cleft palate repair and variations. *Indian Journal of Plastic Surgery*, 42, S102-S109.
- Bastenie, R. (2013-2014). Promotor: Van Lierde, K.; Copromotor: Bettens, K. *Spraak- en taalprofiel van geadopteerde kinderen met schisis*. Masterproef voorgedragen tot het behalen van de graad van master in de logopedische en audiologische wetenschappen, Universiteit Gent.
- Bearn, D., Mildinhal, S., Murphy, S., Murphy, T., Murray, J.J., Sell, D., et al. (2001). Cleft lip and palate care in the United Kingdom – The Clinical Standards Advisory Group (CSAG) Study. Part 4: Outcome comparisons, training and conclusions. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 38 (1), 38- 43.
- Behandeling: schematisch overzicht van alle behandelingen (schisisteam U.Z. Gent)* (Website). (z.j.). Geraadpleegd op 12 december 2014, via http://www.uzgent.be/nl/home/Lists/PDFs%20zorgaanbod/Schisis_Overzicht+behandelingen.pdf.
- Bettens, K., Van Lierde, K.M., Corthals, P., Luyten, A., Wuyts, F.L. (2015). The nasality severity index 2.0: revision of an objective multiparametric approach for hypernasality. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, in-press.
- Boersma P, Weenink D. PRAAT: doing phonetics by computer (Version 5.4.). Geraadpleegd op 12 februari, 2015 via <http://www.praat.org/>.
- Bonte, K. (2014). *Chirurgische aspecten bij verhemeltesluiting*. Gepresenteerd tijdens het symposium 'Centrum voor Congenitale aangezichtsafwijkingen U.Z. Gent: een multidisciplinaire aanpak staat voorop!', Gent, België.
- Brothers, D.B., Dalston, R.W., Peterson, H.D., Lawrence, W.T. (1995). Comparison of the Furlow double-opposing Z-palatoplasty with the Wardill-Kilner procedure for isolated clefts of the soft palate. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 95(6), 969-978.
- Chapman, K.L. (1993). Phonologic processes in children with cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 30(1), 64-72.
- Dalston, R.M. (1983). Computer-generated reports of speech and language evaluations. *Cleft Palate Journal*, 20(3), 227-237.
- De Pauw, G. (2014). *De werking van het schisisteam U.Z. Gent*. Gepresenteerd tijdens het symposium 'Centrum voor Congenitale aangezichtsafwijkingen U.Z. Gent: een multidisciplinaire aanpak staat voorop!', Gent, België.
- Doucet, J.-C., Herlin, C., Captier, G., Baylon, H., Verdeil, M., Bigorre, M. (2013). Speech outcomes of early palatal repair with or without intravelar veloplasty in children with complete unilateral cleft lip and palate. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 51, 845-850.

- Fara, M., Dvorak, J. (1970). Abnormal anatomy of the muscles of palatopharyngeal closure in cleft palates: anatomical and surgical considerations based on the autopsies of 18 unoperated cleft palates. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 46(5), 488-497.
- Fleiss, J.L. (1986). Analysis of data from multiclinic trials. *Controlled clinical trials*, 7(4), 267-275.
- Furlow, L.T., Jr. (1986). Cleft palate repair by double opposing Z-plasty. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 78 (6), 724-736.
- Harding, A., Harland, K., Razzell, R. (1997). *Cleft Audit Protocol for Speech (CAPS)*. Broomfield, Chelmsford, Essex: St. Andrew's Plastic Surgery Centre.
- Hardin-Jones, M.A., Brown, C.K., Van Demark, D.R., Morris, H.L. (1993). Long-term speech results of cleft palate patients with primary palatoplasty. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 30(1), 55-63.
- Henningson, G., Kuehn, D.P., Sell, D., Sweeny, T., Trost-Cardamone, J.E., Whitehill, T.L. (2008). Universal parameters for reporting speech outcomes in individuals with cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 45(1), 1-17.
- Hoedemaekers, C. (2014-2015). Promotor: Van Lierde, K.; Copromotor: Bettens, K. *Perceptuele beoordeling van articulatie en resonantie bij schisispatiënten aan de hand van twee protocollen*. Masterproef voorgedragen tot het behalen van de graad van master in de logopedische en audiologische wetenschappen, Universiteit Gent.
- Ingram, D. (1982). *Phonological analysis of children's language*. Baltimore, USA: Park press.
- John, A., Sell, D., Sweeny, T., Harding-Bell, A., Williams, A. (2006). The cleft palate audit for speech-augmented: a validated and reliable measure for auditing cleft speech. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 43(3), 328-333.
- Kent, R.D. (1996). Hearing and believing: some limits to the auditory-perceptual assessment of speech and voice disorders. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 5(3), 7-11.
- Koh, K.S., Kang, B.S., Seo, D.W. (2009). Speech evaluation after repair of unilateral complete cleft palate using modified 2-flap palatoplasty. *The Journal of Craniofacial Surgery*, 20(1), 111-114.
- Kuehn, DP., Moller, K.T. (2000). Speech and language issues in the cleft palate population: the state of the art. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 37(4), 348;1- 348;35.
- Kummer, A.W. (2008) *Cleft palate and craniofacial anomalies: Effects on speech and resonance* (2^e editie). Clifton Park, NY: Cengage Delmar Learning.
- Kummer, A.W. (2011). Speech therapy for errors secondary to cleft palate and velopharyngeal dysfunction. *Seminars in speech and language*, 32(2), 191-198.
- Leow, A.-M., Lun-Jou, L. (2007). Palatoplasty: evolution and controversies. *Chang Gung Medical Journal*, 31(4), 335-344.
- Luyten, A., Bettens, K., D'Haeseleer, E., De Ley, S., Hodges, A., Galiwango, G., et al. (2014). The impact of palatal repair before and after 6 months of age on speech characteristics. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 78, 787-798.

- Luyten, A., Bettens, K., D'Haeseleer, E., De Ley, S., Hodges, A., Galiwango, G., et al. (2013). Impact of early synchronous lip and palatal repair on speech. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 65, 303-311.
- Luyten, A., Bettens, K., Hodges, A., Vermeersch, H., Van Lierde, K. (2012). Effectiviteit van behandeling bij velofaryngale stoornissen. *Logopedie*, 25(6), 85-94.
- Mackay J.R.A., Kummer A.W. The MacKay-Kummer Snaptest. Kay Elemetrics Corporation, 1994.
- McReynolds, L.V., Elbert, M. (1981). Criteria for phonological process analysis. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 46, 197-204.
- McWilliams, B.J., Glaser, E.R., Philips, B.J., et al. (1981). A comparative study of four methods of evaluating velopharyngeal adequacy. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 68(1), 1-9.
- McWilliams, B.J., Morris H.L., Shelton, R.L. (1990). *Cleft Palate Speech*. Philadelphia, USA: BC Decker.
- McWilliams, B.J., Randall, P., La Rossa, D., Cohen, S., Yu, J., Cohen, M., et al. (1996). Speech characteristics associated with the Furlow Palatoplasty as compared with other surgical techniques. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 98(4), 610-619.
- Moore, M.D., Lawrence, W.T., Ptak, J.J., Trier, W.C. (1988). Complications of primary palatoplasty: a twenty-one-year review. *Cleft palate journal*, 25(2), 156-162.
- Moran, M. (2003) Arguments for rejecting the sequential Bonferroni in ecological studies. *Oikos*, 100(2), 403-405.
- Morley, M.E. (1954). Typical defects in cleft palate speech. In *Cleft palate and speech* (p. 90). Edinburgh: E. & S. Livingstone.
- Morris H., Ozanne, A. (2003). Phonetic, phonological, and language skills of children with a cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 40(5), 460-470.
- Nakagawa, S. (2004). A farewell to Bonferroni: The problems of low statistical power and publication bias. *Behavioral Ecology*, 15(6), 1044-1045.
- Patel, P.K., Cohen, S., Ramaswamy, R., Grasseschi, M.F., O'Gara, M.M., McGraw, E.K. (2014). Cleft palate repair: treatment and management. *Medscape drugs & diseases*. Geraadpleegd op 13 augustus, 2014, via <http://emedicine.medscape.com/article/1279283-treatment>.
- Perkins, J., Lewis, C., Gruss, J., Eblen, L., Sie, K. (2005). Furlow Palatoplasty for Management of Velopharyngeal Insufficiency: A Prospective Study of 148 Consecutive Patients. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 116(1), 72-80.
- Perneger, T. (1998). What's wrong with Bonferroni adjustments. *British Medical Journal*, 316, 1236-1238.
- Perry, J.L. (2011). Anatomy and physiology of the velopharyngeal mechanism. *Seminars in Speech and Language*, 32(2), 83-92.
- Peterson-Falzone, S. J., Hardin-Jones, M. A., Karnell, M. P., McWilliams, B. J. (2001). *Cleft palate speech* (pp. 266-291). St. Louis: Mosby.

- Reid, J. (2004). A Review of Feeding Interventions for Infants With Cleft Palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 41(33), 268-278.
- Sandy, J., Williams, A., Mildinhal, S., Murphy, T., Bearn, D., Shaw, B., et al. (1998). The Clinical Standards Advisory Group (CSAP) Cleft lip and palate study. *British Journal of Orthodontics*, 25, 21-30.
- Schaerlaekens, A. M. (2008). *De taalontwikkeling van het kind*. Wolters-Noordhoff.
- Schönweiler, R., Lisson, J.A., Schönweiler B., Eckardt A., Tränkmann, J., Hausamen, J. (1999). A retrospective study of hearing, speech and language function in children with clefts following palatoplasty and veloplasty procedures at 18-24 months of age. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 50, 205-217.
- Shaw, W.C., et al. (2001). The Eurocleft project 1996-2000: overview. *The Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery*, 29, 131-140.
- Sell, D. (1999). GOS. SP. ASS.'98: an assessment for speech disorders associated with cleft palate and/or velopharyngeal dysfunction (revised). *International Journal of Language & Communication Disorders*, 34(1), 17-33.
- Sie, K.C., Tampakopoulou, D.A., Sorom, J., Gruss, J.S., Eblen L.E. (2001). Results with Furlow palatoplasty in management of velopharyngeal insufficiency. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 108(1), 17-25.
- Spauwen, P.H.M., Goorhuis-Brouwer, S.M., Schutte, H.K. (1992). Cleft palate repair: Furlow versus von Langenbeck. *Journal of Cranio- Maxillofacial Surgery*, 20, 18-20.
- Sommerlad, B.C., Henley, M., Birch, M., Harland, K., Moiemmen, N., Boorman, J.G. (1994). Cleft palate re-repair – a clinical and radiographic study of 32 consecutive cases. *British Journal of Plastic Surgery*, 47, 410.
- Sommerlad, B.C., Mehendale, F.V., Malcolm, J., Sell, D., Hattee, C., Harland, K. (2002) Palate re-repair revisited. *Cleft Palate – Craniofacial Journal*, 39(3), 295-307.
- Sommerlad, B.C. (2002). The management of cleft lip and palate. *Current Paediatrics*, 12, 43-50.
- Sommerlad, B.C. (2003). A technique for cleft palate repair. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 112(6), 1542-1548.
- Sommerlad, B.C., Fenn, C., Harland, K., Sell, D., Birch, M.J., Dave, R., et al. (2004) Submucous cleft palate: a grading system and review of 40 consecutive submucous cleft palate repairs. *Cleft Palate – Craniofacial Journal*, 41(2), 114-123.
- Van Borsel, J. (2003). *Kinderen met spraakproductieproblemen. Fonologische procesanalyse en oefeningen*. Leuven, België: Acco.
- Van Den Broecke (1988). *Frequenties van letters, lettergrepen, woorden en fonemen in het Nederlands*. Dordrecht, Nederland: Fortis publicaties.
- Van Demark, D., Hardin, M. (1985). Longitudinal evaluation of articulation and velopharyngeal competence of patients with pharyngeal flaps. *Cleft Palate Journal*, 22, 163-172.
- Van de Weijer, J., Slis, I. (1991). Nasaliteitsmeting met de Nasometer. *Logopedia foniatica*, 63, 97-101.

Vanhoutte S, De Letter M, Corthals P, Van Borsel J, Santens P. (2012). Quantitative analysis of language production in Parkinson's disease using a cued sentence generation task. *Clinical linguistics & phonetics*, 26(10), 863-881.

Van Lierde, K. M., Luyten, A., Van Borsel, J., Baudonck, N., Debusschere, T., Vermeersch, H., et al. (2010) Speech intelligibility of children with unilateral cleft lip and palate (Dutch cleft) following a one-stage Wardill-Kilner palatoplasty, as judged by their parents. *International Journal of Oral Maxillofacial Surgery*, 39, 641-646.

Van Lierde, K.M., Monstrey, S., Bonte, K., Van Cauwenberge, P., Vinck, B. (2004) The long-term speech outcome in Flemish young adults after two different types of palatoplasty. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 68, 865-875.

Van Lierde, K.M., Van den Abbeele, H. (2009). Spraak-en taalstoornissen en logopedie. In *Keel-neus-oorandoeningen* (pp. 277-297). Ak Houten, Nederland: Bohn Stafleu van Loghum.

Van Lierde, K.M., Wuyts, F.L., De Bodt, M., Van Cauwenberge, P. (2001). Nasometric values for normal nasal resonance in the speech of young Flemish adults. *Cleft Palate-Craniofacial journal*, 38(2), 112-118.

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. *Journal of Reconstructive Surgery*, 6, 344-350.

Yang, Y., Yang, L., Yeke, W., Yifei, G., Heng, Y., Hu. L., et al. (2013). Velopharyngeal function of patients with cleft palate after primary palatoplasty: relevance of sex, age, and cleft type. *The Journal of Craniofacial Surgery*, 24(3), 923-928.

Wiet, G.J., Biavati, M.J., Rocha-Worley, G. (2013). Reconstructive surgery for cleft palate treatment and management. *Medscape drugs & diseases*. Geraadpleegd op 13 augustus 2014, via <http://emedicine.medscape.com/article/878062-treatment>.

Witzel, M.A., Clarke, J.A., Lindsay, W.K., Thomson, H.G. (1979). Comparison of results of pushback or von Langenbeck repair of isolated cleft of the hard and soft palate. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 64(3), 347-352.

Wong, F., Courtemanche, D.J., Tisington, L., Robinson, R. (1993). *A comparison of the early results of Furlow and Wardill palatoplasties for clefts of the soft palate*. Gepresenteerd tijdens het '7th International Congress on Cleft Palate and related Craniofacial Anomalies', Broadbeach, Queensland, Australia.

7. Appendix

Bijlage 1: overzicht van de tijdstippen waarop bepaalde disciplines interfereren bij schisispatiënten (Behandeling, Schisisteam U.Z. Gent)

Algemeen overzicht																										
Leeftijd	0 m	4 m	6 m	7 m	9 m	1 j	1,5 j	2 j	2,5 j	3 j	4 j	5 j	6 j	7 j	8 j	9 j	10 j	11 j	12 j	13 j	14 j	15 j	16 j	17 j	18 j	
Gehemelteplaatje (brede en bilaterale spleten)																										
Lipsluiting unilateraal																										
Lipsluiting bilateraal																										
Zachte gehemelte sluiting (bij geïsoleerde spleet van zachte verhemelte)																										
Zachte en harde verhemelte sluiting																										
Gehooronderzoek																										
Logopedie																										
Farynxplastiek (indien nodig)																										
Bottransplant (kaakspleet)																										
Orthodontie																										
Kaakcorrectie (indien nodig)																										
Jaarlijks mondhygiëneonderzoek (tandarts – bijzondere tandheelkunde)																										
Verdere definitieve correcties																										

Bijlage 2: zinnen van de SNAP-test (Van Lierde, 2003)

Pak het boek
Pak de pot
Pak de baby

Tover de tafel
Tover de schildpad
Tover de teddybeer

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

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

Mama maakt mattentaart
Mama maakt handschoenen
Mama maakt limonade

Bijlage 3: oronasale, orale en nasale tekst (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.