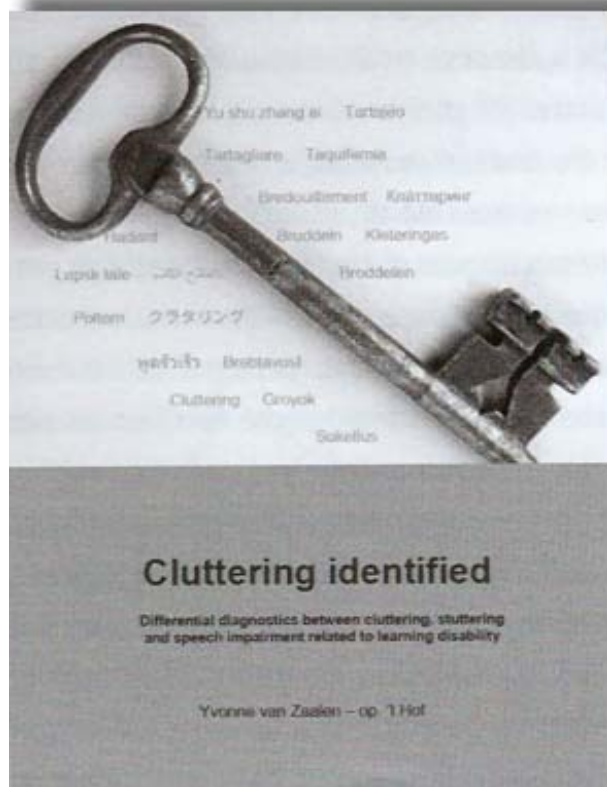


Cluttering identified: Differential diagnostics between cluttering, stuttering and speech impairment related to learning disability

Bron: Logopedie en Foniatrie, november 2009. (OCR-scan AvdH)
Samenstelling: Hans Bogaardt

Proefschrift van Yvonne van Zaalen



Op 17 november promoveerde Yvonne van Zaalen op 't Hof aan de Universiteit van Utrecht op haar proefschrift: **Cluttering identified: Differential diagnostics between cluttering, stuttering and speech impairment related to learning disability**'.

Promotores waren prof. dr. Ph. Dejonckere en prof. dr. F.N.K. Wijnen.

Het proefschrift kent de twee volgende doelstellingen: (1) klinische, diagnostische classificatie van het syndroom broddelen en in het bijzonder het verschil in symptomatologie tussen enerzijds broddelen en stotteren en anderzijds tussen broddelen en spreekmoeilijkheden gerelateerd met leermoeilijkheden; (2) een bijdrage leveren aan een samenhangend (neurolinguïstisch) model van broddelen dat een verklaring geeft voor de

geobserveerde symptomatologie, en tegelijkertijd het verschil tussen broddelen en stotteren toelicht.

Het eerste deel van de dissertatie (Hoofdstuk 2, 3, 4 en 5) richt zich op de evaluatie van spraak en taalkenmerken van personen met vloeiendheidsstoornissen. Het tweede deel (Hoofdstuk 6 en 7) richt zich op de beschrijving van de onderliggende neurolinguïstische processen bij broddelen.

Deel I. Differentiaaldiagnostiek bij broddelen

Logopedisten en spraaktaalpathologen zijn het er over het algemeen over eens dat broddelen en stotteren twee verschillende vloeiendheidsstoornissen vertegenwoordigen. Differentiaaldiagnostiek tussen broddelen en stotteren is moeilijk omdat deze stoornissen gelijke kenmerken hebben en vaak in samenhang voorkomen.

Het eerste hoofdstuk van deel 1 (Hoofdstuk 2) beschrijft een empirische studie om objectieve normen te bepalen ten behoeve van differentiaaldiagnostisch onderzoek bij broddel- en stotterkenmerken op basis van de drie kernkarakteristieken van broddelen geïndiceerd door St. Louis, Raphael, Myers & Bakker (2003). Volgens de St. Louis e.a. (2003) is een hoog en/of onregelmatig spreektempo een kernkarakteristiek van de differentiële diagnose tussen broddelen en stotteren. Echter, overeenstemming over wat een abnormaal snel of abnormaal onregelmatig spreektempo, is noodzakelijk. Proefpersonen in deze studie waren verwezen naar praktijken voor stottertherapie in het centrum van Nederland vanwege zelf gerapporteerde problemen in de vloeiendheid van het spreken. Proefpersonen werden gediagnosticeerd op basis van een (subjectieve) klinische beoordeling door twee logopedisten die zich gespecialiseerd hebben in de diagnostiek en behandeling van cliënten met vloeiendheidsstoornissen. Er werd gebruik gemaakt van opnamen van drie verschillende spreektaken: spontaan spreken, lezen en het navertellen van een verhaal. Objectieve meetresultaten werden verzameld met betrekking tot: articulatietsnelheid, articulatoire nauwkeurigheid, geleidelijkheid (co-articulatie, gelijkmatigheid en opeenvolging) en snelheid, frequentie en type van niet-

vloeiendheden. De objectieve meetresultaten werden vergeleken met de subjectieve klinische beoordelingen gedaan door de gespecialiseerde logopedisten.

Het opvallendste resultaat van de studie was dat de correlatie tussen de subjectieve diagnoses erg laag was ($r=.638$). Verder bleek dat de gemiddelde articulatiesnelheid van de personen die stotteren (PDS) lager was vergeleken met personen die broddelen (PDB), zoals werd voorspeld. Niet alle broddelende proefpersonen hadden een hoog gemiddelde articulatiesnelheid vergeleken met controles. PDB produceerden 6.4 - 7.6 keer zoveel normale niet-vloeiendheden in verhouding tot stotter- niet-vloeiendheden in spontane spraak en het navertellen van een verhaal. PDB produceerden significant meer fouten in accuraatheid tijdens de herhaling van meerlettergrepige woordreeksen in vergelijking met controles en PDS.

Toevoeging van objectieve meetresultaten aan de subjectieve klinische beoordeling bleek van substantiële diagnostische waarde, in het bijzonder in het lokaliseren van een broddelcomponent (gebaseerd op karakteristieken beschreven in St. Louis et al., 2003 werkdefinitie van broddelen). De objectieve meetresultaten in deze studie, beschreven in hoofdstuk 2, zijn gebaseerd op een kleine groep niet-vloeiende proefpersonen van wie de gespecialiseerde logopedisten onafhankelijk van elkaar een overeenstemmende diagnose gesteld hadden. Verdere studies naar broddelen en stotteren zouden meerdere factoren en domeinen in de dataverzameling moeten omvatten om van substantieel diagnostische waarde te zijn.

Een ander resultaat van de studie was de ontdekking dat alhoewel er aanzienlijke individuele verschillen tussen de broddelaars waren, de groep als geheel taalproblemen vertoonde die vergelijkbaar zijn met de taalproblemen die toegeschreven worden aan kinderen met leermoeilijkheden. Dientengevolge werd een systematische vergelijking tussen kinderen met leermoeilijkheden, kinderen die broddelen, kinderen die stotteren en controles opgezet, die gebruik maakte van de Predictive Cluttering Inventory (Daly and Cantrell, 2006). In hoofdstuk 3 worden resultaten van de Nederlandse vertaling van de PCI (Checklist Broddel Kenmerken, Van Zaalen & Winkelman, 2009) in relatie tot de subjectieve en objectieve meetresultaten besproken in Hoofdstuk 2. In deze studie werden 137 Nederlands sprekende kinderen variërend in leeftijd van 10.6 - 12.11 jaar, gescreend met de PCI door 8 verschillende logopedisten. De classificatie was gebaseerd op de diagnose van de gespecialiseerde logopedisten zoals beschreven in hoofdstuk 2. De leeftijdsvariatie in alle groepen was gelimiteerd om bias tengevolge van ontwikkelingsinvloeden te beperken. De PCI werd ingevuld op basis van de observatie van spontane spraak, navertellen van een verhaal, lezen en ouderinformatie. Pearson's correlaties werden gebruikt om de relatie tussen enerzijds de subjectieve klinische beoordeling aangevuld met objectieve metingen en anderzijds de score op de checklist te beoordelen. De PCI bleek niet sensitief of specifiek genoeg om broddelen te detecteren. Een factoranalyse werd uitgevoerd om de factoren te bepalen die gezamenlijk de variatie in de basisvariabelen kunnen verklaren. Resultaten van de factoranalyse werden vergeleken met resultaten van een clusteranalyse. De interpretatie van de itemscores van de gereviseerde PCI zorgde voor een verhoging van de sensitiviteit tot een lage, maar acceptabele waarde van 69 procent. (Een sensitiviteitsscore van 70 procent is acceptabel). Aangezien sommige onderwerpen en enkele zaken betreffende het scoringssysteem nog niet volledig duidelijk waren voor alle logopedisten, wordt verondersteld dat een korte handleiding met toelichting op de iteminhoud de sensitiviteit van de PCI-r verder kan verhogen. De ondersteunende, maar niet significant verschillende, symptomen op de lijst kunnen van groot belang zijn voor de planning van de therapie voor de individuele cliënt.

De studies beschreven in hoofdstuk 2 en 3 hebben ideeën voor differentiaaldiagnostiek en normatieve waarden voor articulatiesnelheid en variatie, niet-vloeiendheden en ander aan broddelen gerelateerd spreekgedrag opgeleverd. Voorlopige resultaten van de SPA-test (Screening Pittige Articulatie) in een kleine groep POB (zie hoofdstuk 2) maakten duidelijk dat uitgebreider onderzoek (grotere groep proefpersonen) naar spraakmotorische controle op woordniveau in broddelen een bijdrage kan leveren aan de differentiaaldiagnose. Hoofdstuk 4 beschrijft een studie waarin de validiteit van de SPA-test, speciaal ontworpen om spraakmotorische controle op woordniveau te onderzoeken, werd getest. Speerpunt in deze studie was de vraag of broddelen een vloeiendheidstoornis is waarin de spraakmotorische controle (of mogelijk de fonologische codering) verstoord is binnen een hoge spreeknelheid. Er werd verondersteld dat een verstoorde spraakmotorische controle zou resulteren in fouten in accuraatheid, gelijkmatigheid van het spreken en de opeenvolging van lettergrepen.

Binnen een vaststaande procedure werden op hoge snelheid herhalingen van meerlettergrepige woorden uitgelokt bij 47 niet-vloeiende sprekers en 327 controles. Spraakproductie werd beoordeeld op articulatorische accuraatheid, geleidelijkheid en snelheid. Resultaten van PDB en PDS werden vergeleken met de normatieve data verkregen van de controles. In vergelijking met PDS produceerden PDB significant meer accuraatheid, gelijkmatigheid en opeenvolgingfouten. Uit de resultaten werd geïnterpreteerd dat PDB aanmerkelijke problemen ervaren in spraakmotorische planning en uitvoer binnen een hoog spreektempo. In PDB werden veel verstoringen van de planning waargenomen; dit impliceert mogelijk dat de taalproductie niet volledig was geautomatiseerd. Aangezien spraakmotorische controle op woordniveau en fonologische codering nauw met elkaar verbonden zijn, ondersteunen de resultaten uit deze studie het idee dat broddelen gezien kan worden als een aan taalproductie gerelateerde vloeiendheidsstoornis.

Data van de broddelgroep gepresenteerd in hoofdstuk 2, 3 en 4 laten ook zien dat binnen de broddelgroep een grote marge van woord/zinsstructuurfouten en frequentie van normale niet-vloeiendheden bestaat. PDB onderscheiden zich van PDS op spraakkenmerken (ratio niet-vloeiendheden, gemiddeld articulatie tempo en aantal fonologische fouten). Differentiaaldiagnostische kenmerken onderscheiden een stoornis van alle andere stoornissen. PDB ervaren taalproductieverstoringen die vergelijkbaar zijn met die van personen met leermoeilijkheden (LM). In hoofdstuk 5 is een studie naar het type en de hoeveelheid taalproductieverstoringen van kinderen die broddelen (KDB) en KLM beschreven. Op deze manier werd meer kennis aangaande de onderliggende processen van de taalproductie van deze kinderen verworven. In deze studie werden 103 Nederlands sprekende kinderen variërend in leeftijd van 10.6-12.11 jaar verdeeld over drie groepen (broddelen, leermoeilijkheden en controles). Om de vraag te beantwoorden aangaande de taalproductieverstoringen en de onderliggende neurolinguïstische processen werden de volgende variabelen bestudeerd tijdens het navertellen van een verhaal: (a) percentage hoofd- en bijzaken en ruis; (b) percentage syntactisch correcte zinsstructuren zonder en met zelfcorrectie; (c) percentage zinnen met syntactische fouten en (d) percentage en type niet-vloeiendheden. Resultaten toonden aan dat KLM minder hoofd- en bijzaken navertelden, minder correcte zinsstructuren (zonder en met zelfcorrectie) en meer zinnen met grammaticale fouten produceerden. KDB produceerden een aan de controles vergelijkbare hoeveelheid hoofd- en bijzaken en correcte zinsstructuren. Dus, hoewel het idee bestaat dat KDB in spontane spraak een meer dan normale hoeveelheid taalproductieverstoringen vertonen, is hun taalproductie in het navertellen van een verhaal vergelijkbaar met die van vloeiend sprekende controles.

Bij het analyseren van het type, de frequentie en de ratio van de niet-vloeiendheden werd een niet eerder beschreven onderscheid tussen KDB en KLM ontdekt. KDB produceerden een significant grotere hoeveelheid woord- en zinsdeelherhalingen in vergelijking met KLM en controles. Er is verondersteld dat KDB in het produceren van de herhalingen van al geproduceerde woorden of zinsdelen tijd winnen voor het proces van taalformulering. Het hoge aantal zelfcorrecties in KDB en KLM ondersteunt de gedachte dat zowel bij KDB als KLM de automatisering van de taalproductie nog niet volledig is.

Deel II: Onderliggende neurolinguïstische processen

In deel II worden de onderliggende neurolinguïstische processen bij broddelen en andere vloeiendheidsstoornissen beschreven en geplaatst binnen een mode] van taalproductie. Hoofdstuk 6 beschrijft een neurocognitieve beeldvormende studie met het doel om te onderzoeken of broddelen en stotteren verschillen op het niveau van neurologische substraat. Er werd verondersteld dat als verschillende patronen van hersenactiviteit gezien werden tijdens de uitvoer van spreektaken bij volwassenen die broddelen (VDB) en volwassenen die stotteren (VDS), dit indicatief is voor verschillen in onderliggende neurolinguïstische processen of defecten. De participanten werden nauwkeurige gescreend, om PDB te rekruteren zonder bijkomende stotterkenmerken en PDS zonder bijkomende broddelkenmerken. De spreektaak bestond uit het herhaald opzeggen van woorden met toenemende fonologische complexiteit. In een blokdesign met een 40 sec aan-uit periode werden afwisselend symbolen gelezen en gelezen

woorden hardop uitgesproken. Beide groepen vertoonden voornamelijk aan spraak gerelateerde hersenactiviteit in de frontale lobus en de sub-corticale nuclei. Groepsvergelijkingen gaven aan dat VDB ten opzichte van VDS een hogere activiteit hadden in de precentrale gyrus en de inferior frontale gyrus van de rechterhemisfeer en de linker insular cortex. PDS vertoonden een hogere activiteit in de rechter motor cortex, temporale lobus en de globus pallidus. Gebaseerd op deze bevindingen kan verondersteld worden dat broddelen en stotteren verschillende stoornissen zijn met andere onderliggende neurolinguïstische processen.

Afsluitend werden in een algemene discussie de broddelkenmerken in verband gebracht met het taalproductiemodel van Levelt (1989). Onderliggende neurolinguïstische processen bij broddelen zijn beschreven in relatie tot articulati tempo. In deze generale discussie in hoofdstuk 7 werd de vraag beantwoord in hoeverre broddelen gezien kan worden als een uiting van onvolkomen automatisering van de taalproductie. Met andere woorden: 15 de talige output van PDB beïnvloed als resultaat van een poging om te encoderen binnen een ontoereikende tijdsspanne? Er wordt verondersteld dat een hoog spreektempo de tijd voor de conceptualiser, de formulator en de monitoring reduceert. Als de taalproductie volledig geautomatiseerd is zal het spreektempo nauwelijks invloed uitoefenen op de spraak- en taalproductie. Indien taalproductie in mindere mate geautomatiseerd is, zal verandering van spreektempo een effect van groter belang hebben op de spraak taal productie. Er wordt verondersteld dat een onvolkomen automatisering van de taalproductie in PDB zich uit in fouten in de conceptualiser, grammaticale en/of fonologische codering en mogelijk ook in de articulator.

Ten aanzien van fouten in de conceptualisator (bijv. pragmatische fouten, onvoldoende onderwerpintroductie, het niet aanpassen van de verhaalinhoud aan de luisteraar) werden, alhoewel gedocumenteerd voor broddelen, binnen deze studie geen sluitende bewijzen gevonden. verder onderzoek naar het effect van spreektempo en automatisering op de accuraatheid van de conceptualisator is nodig om dit aspect binnen broddelen beter te begrijpen.

Ondersteunend bewijs voor een onvolkomen automatisering van taalformulering (de formulator) is beschreven in de hoofdstukken 4, 5 en 7. In spontane spraak produceren PDB meer grammaticale en fonologische coderingsfouten in vergelijking met controles. Maar, tijdens het spreken met aandacht voor het spreekproces (navertellen van een verhaal, spreken in een langzamer tempo) werden bij PDB fouten en zelfcorrecties waargenomen die in soort en aantal vergelijkbaar zijn met die van vloeiende sprekers. Het feit dat PDB deze vorm van aandachtig spreken slechts gedurende korte tijd kunnen volhouden mag ook gezien worden als een teken van een onvolkomen automatisering van de taalproductie.

Enig bewijs voor een onvolkomen automatisering van de taalproductie op het gebied van de articulator is voor broddelen beschreven in hoofdstuk 4. In een snel tempo produceert de PDB meer spreekfouten (accuraatheid, gelijkmatigheid en opeenvolging) vergeleken met PDS en controles. Ander ondersteunend bewijs werd geleverd door Hartinger en Mooshammer (2007) die concludeerden dat de variatie in articulatiepositie in PDB hoger is dan bij PDS.

Gebaseerd op de resultaten van dit onderzoek mag geconcludeerd dat broddelen voornamelijk een uiting is van een onvolkomen automatisering van de taalproductie. Waarom PDB niet in staat zijn om hun spreektempo aan te passen is binnen deze studie niet onderzocht. Dit onderzoek heeft een mogelijke verklaring opgeleverd voor de problemen van PDB om hun spreektempo gedurende langere tijd aan te passen. Het kan zo zijn dat het voor een PDB door een onvolkomen automatisering van de taalproductie niet mogelijk is om naast de extra aandacht die gegeven moet worden aan de taalproductie nog extra aandacht te besteden aan het monitoren van het spreken (de verlaging van de spreektempo). Verder onderzoek naar de taalproductie (bijvoorbeeld grammaticale en fonologische codering in spontaan spreken) en hersenactiviteit (bijvoorbeeld cerebrale dominantie en activiteit van de basale ganglia) bij broddelen tijdens spreektaken kan ondersteunend zijn in het vergaren van meer kennis over deze intrigerende stoornis.