

Een retrospectief onderzoek naar de spraak- en taalontwikkeling bij kinderen met een schisis

S.M. Goorhuis-Brouwer, H.K. Schutte en B.K. Dhar

Schisisteam, Academisch Ziekenhuis Groningen

Een retrospectief onderzoek werd uitgevoerd bij 70 kinderen met schisis, uit de populatie van het Groninger Schisisteam. Het betroffen kinderen met een palatoschisis mediana (16), een enkelzijdige lip-, kaak- en gehemeltepleet (38) en een dubbelzijdige lip-, kaak- en gehemeltepleet (16). Alle kinderen werden op jonge leeftijd chirurgisch behandeld (lipsluiting met 3 maanden, sluiting van het zachte gehemelte met 10 maanden en sluiting van het harde gehemelte met 18 maanden). Vanaf 18 maanden werd regelmatig de spraak-taalontwikkeling geëvalueerd. Zonodig vond logopedische therapie plaats of werd een pharynxplastiek verricht.

Na intensieve begeleiding in de periode van nul tot zeven jaar, werden de kinderen op een later tijdstip opnieuw op hun spraak en taal beoordeeld. Bij 57 kinderen (82%) bleek de spraak- en taalontwikkeling op leeftijdsniveau en was er geen rhinolalia aperta aanwezig. Elf kinderen (15%) hadden in lichte mate problemen met hun articulatie of hadden een lichte vorm van rhinolalia aperta. Twee kinderen (3%) hadden ernstige articulatieproblemen, maar bij hen was geen rhinolalia aperta aanwezig. De ernst van de schisisproblematiek bleek niet van invloed te zijn op de spraak- en taalontwikkeling.

Inleiding

Kinderen met schisis (lip-, kaak- en/of gehemeltepleet) hebben een verhoogde kans op een niet goed verlopende spraak- en taalontwikkeling. Hierbij spelen een minder goede articulomotorische ontwikkeling en een verhoogde kans op een verminderde gehoorscherptheit een rol (Huffstadt e.a., 1987). Daarnaast spelen ook psychosociale factoren mee zoals acceptatie door de ouders, frequentie van ziekenhuisopnamen en andere storende invloeden.

Correspondentie-adres: Dr. S.M. Goorhuis-Brouwer, Schisisteam, Academisch Ziekenhuis Groningen, Postbus 30.001, 9700 RG Groningen.

Het Groninger Schisisteam stelt zich op het standpunt dat een kind met schisis in de eerste zes jaren van zijn leven zo begeleid dient te worden dat, wanneer het kind naar de derde groep van de basisschool gaat het een acceptabel uiterlijk heeft en het zich in sociaal-emotioneel opzicht evenwichtig (verder) kan ontwikkelen. Juist een goede spraak- en taalontwikkeling stelt kinderen in staat om contacten met anderen aan te gaan en zich in sociaal-emotioneel opzicht te ontwikkelen (Cantwell & Baker, 1980; Howlin & Rutter, 1987). Bij taalstoornissen, maar vooral bij spraakstoornissen, zoals bij kinderen met een schisis soms opvallende rhinolalia aperta, articulatie-defecten en compensatiebewegingen in het gezicht om neusluchtverlies te voorkomen, moet vaak eerst afkeer van de luisteraar overwonnen worden met betrekking tot de gestoorde manier van spreken.

Spreken is een corticale functie waarvan de ontwikkeling afhankelijk is van neurologische rijping en training, vooropgesteld dat het kind normale uitgangspunten heeft wat betreft gehoor, intelligentie, spraakorganen, emotionele en motivationele ontwikkeling en omgeving. In de periode van nul tot circa zeven jaar hebben kinderen een bijzonder vermogen om gecompliceerde, in principe klaar liggende, neurale circuits in interactie met de omgeving te ontwikkelen en zodoende een basis te leggen voor het begrijpen en produceren van spraak en taal. Het basisprogramma voor taalontwikkeling wordt aangemaakt en articulatiepatronen raken ingeslepen in die periode (VTO-rapport, 1986).

Ervaringen zowel vanuit de klinische praktijk als vanuit psycholinguïstische literatuur doen vermoeden dat de eerste periode, de eerste drie levensjaren, wat betreft de taalontwikkeling nog belangrijker is dan de periode van drie tot zeven jaar. Rakic (1987) geeft hiervoor een neurofysiologische verklaring. Hij meent dat, op basis van omgevingsfactoren, selectieve ontwikkeling plaats vindt van neuronen, axonen en synapsen en specifieke functionele corticale centra ontstaan. Ook studies met betrekking tot gedepriveerde kinderen (Skuse, 1984) hebben geleerd dat de periode van nul tot circa zeven jaar kritisch en gevoelig genoemd kan worden. Wanneer deze periode niet of onvoldoende benut wordt, kunnen blijvende spraak- en taalstoornissen ontstaan.

Wanneer kinderen met een schisis een optimale kans willen krijgen voor een zo goed mogelijk verlopende spraak- en taalontwikkeling is het, naar de mening van het Groninger Schisisteam, van groot belang dat rekening wordt gehouden met de gevoelige periode voor de spraak- en taalontwikkeling. Dit betekent dat maatregelen om het spreken te verbeteren zoveel mogelijk in de eerste zeven levensjaren moeten plaatsvinden.

De Groninger benadering

Het beleid dat door het Groninger Schisisteam is uitgezet voor de begeleiding van kinderen met een vorm van cheilo-gnato-palato-schisis bestaat uit vroege chirurgische behandeling en vroege begeleiding van eventueel optredende spraak-

en taalproblemen (overzicht, zie Appendix A). Bij de kinderen vindt lipsluiting plaats op de leeftijd van 3 maanden. Het zachte gehemelte wordt gesloten met 10 maanden en het harde gehemelte wordt gesloten met 18 maanden. De kinderen krijgen door dit operatieve beleid de gelegenheid om hun articulatiepatronen vrijwel net zo te ontwikkelen als andere kinderen: de lippen en het gehemelte zijn adequate articulatiepartners geworden met de tong.

Alle kinderen met een schisis worden vanaf 18 maanden gevolgd op hun spraak- en taalontwikkeling. Tussen 18 maanden en 36 maanden worden alle kinderen gescreend met behulp van de minimumspreeknormen (Goorhuis-Brouwer, 1985). Afhankelijk van deze screening, ook rekening houdend met vragen of ongerustheid van de ouders met betrekking tot het spreken, worden alle kinderen tussen 18 maanden en 36 maanden uitgebreid getest met betrekking tot hun taalbegrip, taalproductie en communicatieve ontwikkeling. De articulatiepatronen worden geanalyseerd evenals de nasaliteit (rhinolalia aperta, neusluchtverlies, compensatiemechanismen). Daarnaast vindt een medisch onderzoek en een pedagogische-psychologische observatie plaats (standaardprotocol, zie Appendix B).

Het multidisciplinaire, spraak- en taalonderzoek kan leiden tot ouderbegeleiding voor spraak- en taalstimulatie, spraak-en/of taaltherapie (logopedische begeleiding) of tot behandeling van de aanwezige nasaliteitsproblemen met behulp van een pharynxplastiek. Ook is het mogelijk dat gehoorverbeterende maatregelen plaats moeten vinden.

Wanneer een pharynxplastiek geïndiceerd is, wordt dit zo vroeg mogelijk gedaan (vanaf ongeveer drie jaar).

Teneinde de effecten van het beleid op de uiteindelijke spraak- en taalontwikkeling na te gaan werd bij 70 kinderen, die allen al door de intensieve fase van de begeleiding heen waren, de spraak en taal beoordeeld.

De groep werd in subgroepen verdeeld en afzonderlijk beoordeeld, omdat van te voren de verwachting bestond dat naarmate de aanvankelijke schisisproblematiek ernstiger zou zijn, de uiteindelijke spraak- en taalresultaten mogelijk geringer zouden zijn.

Evaluatie

In totaal werden van 70 kinderen met een schisis het spreken en het taalgebruik beoordeeld door ervaren klinisch logopedisten. Deze zeventig maakten deel uit van het totaal aantal patiënten dat opeenvolgend het tweewekelijkse schisis-spreekuur bezocht in de periode van september tot december 1991. Alle kinderen die dit schisis-spreekuur bezochten hadden de primaire chirurgische operaties ondergaan en kregen begeleiding voor het optimaal doen verlopen van hun spraak- en taalontwikkeling.

De onderzoeksgroep bestond uit 16 kinderen met een palatoschisis mediana,

26 kinderen met een cheilo-gnato-palato-schisis sinistra, 12 kinderen met een cheilo-gnato-palato-schisis dextra en 16 kinderen met een cheilo-gnato-palato-schisis duplex.

Resultaten

Groep I. Kinderen met Palatoschisis Mediana

Van de 16 kinderen met een palatoschisis mediana (leeftijd 5;4 – 19;9 jaar; gemiddelde leeftijd 11;5 jaar) hadden 15 kinderen een leeftijdsadequate spraak- en taalontwikkeling en was er geen rhinolalia aperta aanwezig.

Twaalf kinderen hadden een pharynxplastiek gekregen (leeftijd 3;0 – 8;8 jaar; gemiddelde leeftijd 5;0 jaar). Voor drie van deze 12 kinderen bleek aanvullend op de pharynxplastiek nog een logopedische begeleiding gewenst te zijn.

Een kind had lichte problemen met de uitspraak van de /s/. Dit kind had zowel een pharynxplastiek ondergaan als aanvullend logopedische therapie gekregen.

Tabel 1. Aantallen kinderen per diagnostische groep, en indeling naar spraak-taal symptomatologie (STLA, Art., Rhin.) en voorgeschiedenis (Phar., Log.).

| | N | STLA | Art. | Rhin. | Phar. | Log. |
|--------------------------------------|----|-----------|----------|----------|-----------|-----------|
| Palatoschisis mediana | 16 | 15 94% | 1 6% | 0 0% | 12 75% | 3 19% |
| Cheilo-gnato-palato-schisis sinistra | 26 | 21 81% | 1 4% | 4 15% | 14 54% | 12 46% |
| Cheilo-gnato-palato-schisis dextra | 12 | 9 75% | 2 17% | 1 8% | 11 92% | 8 67% |
| Cheilo-gnato-palato-schisis duplex | 16 | 12 75% | 4 25% | 0 0% | 10 62% | 8 50% |

| | | |
|-------|---|---|
| N | : | aantal kinderen |
| STLA | : | spraak- en taalgebruik leeftijdsadequaate |
| Art. | : | articulatieproblemen |
| Rhin. | : | rhinolalia aperta |
| Phar. | : | pharynxplastiek |
| Log. | : | logopedie |

Groep II. Kinderen met een Cheilo-gnato-palato-schisis sinistra

Van de 26 patiënten met een cheilo-gnato-palato-schisis sinistra (leeftijd 4;1 - 19;6 jaar; gemiddelde leeftijd 11;1 jaar) hadden 21 kinderen een leeftijdsadequate spraak- en taalontwikkeling en was geen rhinolalia aperta aanwezig. In deze groep hadden 14 kinderen een pharynxplastiek gekregen (leeftijd 3;6 - 10;10

jaar; gemiddelde leeftijd 5;8 jaar). Voor zes van deze 14 kinderen was aanvullend logopedische therapie noodzakelijk. Dertien kinderen ontwikkelden een leeftijdsadequaat spraak- en taalgebruik en bij één kind bleef een lichte rhinolalia aperta bestaan.

Zes van de 26 kinderen hadden alleen logopedische begeleiding gehad. Bij drie van deze zes kinderen resulteerde dit en een leeftijdsadequate spraak- en taalontwikkeling. Bij twee kinderen bleef een lichte rhinolalia aperta bestaan en een kind behield nog steeds ernstige articulatieproblemen.

Voor zes andere kinderen uit deze groep van 26 was noch logopedische therapie geadviseerd, noch een pharynxplastiek. Bij vijf van deze zes kinderen was een leeftijdsadequate spraak- en taalontwikkeling aanwezig. Bij een kind was een lichte rhinolalia aperta blijven bestaan.

Groep III. Kinderen met een Cheilo-gnato-palato-schisis dextra

Van de 12 kinderen met een cheilo-gnato-palato-schisis dextra (leeftijd 6;0 - 17;5 jaar ; gemiddelde leeftijd 11;5 jaar) hadden negen kinderen een leeftijdsadequate spraak- en taalontwikkeling en was er geen rhinolalia aperta aanwezig.

Elf kinderen hadden een pharynxplastiek gekregen (leeftijd 3;10 - 7;9 jaar; gemiddelde leeftijd 5;2 jaar). Bij zeven kinderen van deze 11 bleek aanvullende logopedische therapie noodzakelijk te zijn. Een kind kreeg logopedische therapie voorafgaande aan de pharynxplastiek. Uit deze groep van 11 kinderen bleef bij een kind een lichte rhinolalia aperta bestaan, een kind had nog een licht articulatieprobleem en 1 kind behield ernstige articulatieproblemen.

Bij een kind werd noch logopedische begeleiding, noch een pharynxplastiek geadviseerd. Bij dit kind was de spraak en taal op niveau.

Groep IV. Kinderen met een Cheilo-gnato-palato-schisis duplex

Van de 16 kinderen met een cheilo-gnato-palato-schisis duplex (leeftijd 4;4 - 16;4 jaar; gemiddelde leeftijd 10;3 jaar) hadden 12 kinderen een leeftijdsadequate spraak- en taalontwikkeling en was er geen rhinolalia aperta aanwezig.

Tien kinderen hadden een pharynxplastiek gekregen (leeftijd 3;6 - 6;8 jaar; gemiddelde leeftijd 4;4 jaar). Bij zes van deze 10 kinderen was aanvullend logopedische begeleiding noodzakelijk. Zeven kinderen uit deze groep van tien ontwikkelden een leeftijdsadequaat spraak- en taalgebruik. Bij drie kinderen bleven lichte articulatieproblemen bestaan.

Voor twee kinderen van de 16 hadden was alleen logopedische begeleiding geïndiceerd geweest. Bij een kind bleven lichte articulatieproblemen bestaan.

Bij twee andere kinderen van de 16 was noch logopedische begeleiding, noch een pharynxplastiek noodzakelijk geacht. Deze twee kinderen ontwikkelden ook een leeftijdsadequaat spraak- en taalgebruik.

Conclusie en discussie

Van een groep van 70 kinderen met schisis werd na primaire operaties en vroegtijdige spraak- en taalbegeleiding bij 57 kinderen een leeftijdsadequate spraak- en taalontwikkeling geconstateerd en was er geen rhinolalia aperta aanwezig (82%).

Bij 11 kinderen werden lichte problemen met hun spraak geconstateerd (15%). Bij vijf kinderen ging het om een lichte rhinolalia aperta en bij zes kinderen ging het om lichte articulatieproblemen: drie maal werd een ad-labiale articulatie van de /l/ vastgesteld en drie maal een palatale articulatie van de /s/. We noemen de problemen van deze 11 kinderen licht omdat de verstaanbaarheid niet nadelig wordt beïnvloed en de spraak ook geen negatieve emotionele reacties van de omgeving oproept.

Bij twee kinderen waren ernstige articulatieproblemen blijven bestaan (3%). Het betrof een sterk palatale en/of pharyngeale articulatie.

Het is opvallend dat de ernst van de aanvankelijke schisisproblematiek geen grote invloed heeft op de spraak- en taalontwikkeling. De twee kinderen met een ernstige articulatieproblematiek hebben beide een enkelzijdige lip-kaak- en gehemeltepleet. Bij de dubbelzijdige schisisproblematiek zijn de blijvende articulatieproblemen licht te noemen.

Bij kinderen met een linkszijdige lip-kaak-gehemeltepleet komen mogelijk iets meer nasaliteitsproblemen voor dan bij kinderen met een rechtszijdige lip-kaak-gehemeltepleet. Hiervoor hebben we geen duidelijke verklaring.

Gezien het feit dat 97% van de 70 onderzochte kinderen met schisis een leeftijdsadequaate spraak- en taalgebruik hebben ontwikkeld of slechts lichte afwijkingen daarin hebben, concluderen wij dat het in Groningen gevoerde beleid inzake primaire plastisch chirurgische operaties en tijdige signalering en behandeling van spraak- en taalproblemen (medisch dan wel logopedisch) voldoende rekening houdt met de gevoelige periode voor de spraak- en taalverwerving.

Summary

In 70 cleft palate children early surgical treatment was performed (lipclosure – 3 months; soft palate closure – 10 months; hard palate closure – 18 months) and were all children carefully followed in their speech and language development. If necessary the speech and language development was influenced by speech therapeutic intervention programmes and/or surgical treatment (pharyngoplasty). This intervention strategy is based upon the knowledge that in the critical periode for language learning (0 - 7 years) the basic programme for language development is established as well as the articulatory patterns of speech.

After treatment fifty-seven children (82%) were recognised as having had an adequate language development, good articulation and absence of hypernasality. Eleven children (15%) had minor speech defects; five children had a slight hypernasality, three children

had an adlabial articulation of /l/ and three children had a slight palatal articulation of /s/. Two children (3%) still had extreme articulatory difficulties, but absence of hypernasality. There was no relationship found between the severity grade of the cleft palate and the speech and language results.

Literatuur

- Cantwell, D., Baker, L. (1980). Psychiatric disorders in children with speech and language retardation. *Archives Genetic Psychiatry* 37; 423-427.
- Howlin, P., Rutter, M. (1987). The consequences of language delay for other aspects of development. In: Yule, W., Rutter, M. (eds). *Language development and Disorders*. Blackwell Scientific Publisher, Oxford, 271-295.
- Huffstadt, A.J.C., P.H.M. Spauwen, J. Boersma, G.S. Havinga, J. Bergstra (1987). *Schisis. Multidisciplinaire benadering*. Stafleu, Alphen a/d Rijn.
- Rakic, P. (1987). Post natal development of the primate cerebral cortex. *International Workshop on Developmental Neurology of the Infant and the Young Child. Neurological variations and aberrations*. 7-9 september 1987, Groningen, Holland.
- Skuse, D. (1984). Extreme deprivation in early childhood. I: Diverse outcomes for three siblings from an extraordinary family. *Journal of Child Psychology Psychiatry* 25; 523-542.
- Skuse, D. (1984). Extreme deprivation in early childhood. II: Theoretical issues and a comparative review. *Journal of Child Psychology Psychiatry* 25, 543-572.
- VTO-rapport: Verslag van de werkgroep "Inventarisatie VTO- instrumentarium op het terrein van spraak- en taalstoornissen" (November 1986). Opdrachtgever: Landelijke Commissie VTO, Ministerie van WVC.

Appendix A

Schematisch overzicht behandeling schisisteam Groningen

| | |
|------------|--|
| geboorte | Maatschappelijk werkster neemt contact op met ouders en huis-arts. Eventueel vroegtijdige orthodontische behandeling |
| 3 maanden | Opname voor lipsluiting en verder onderzoek door plastisch chirurg, orthodontist en kinderarts |
| 9 maanden | Opname voor eerste fase gehemeltesluiting |
| 18 maanden | Opname voor tweede fase gehemeltesluiting |
| rond | |
| 24 maanden | Eerste spraak-en taalonderzoek ingebed in medisch en pedagogisch-psychologisch onderzoek volgens protocol |
| vanaf | |
| twee jaar | Logopedische begeleiding en/of ouderbegeleiding Gehoорverbeterende maatregelen Pharynxplastiek Verdere plastisch chirurgische correcties. |
| 5 jaar | Afsluiting intensieve begeleiding rond uiterlijk en spraak-taalbegeleiding. Vanaf dit moment tweemaaljaarlijkse bezoeken aan het gezamenlijke schisisspreekuur voor onderzoek en advisering. |

Appendix B

Protocol spraak en taalonderzoek bij kinderen met een schisis

1. Medisch onderzoek

- morfologisch aspect van lippen, tong en verhemelte
- morfologisch aspect en passage van de neus
- morfologisch aspect van de trommelvliezen
- interpretatie van audiologische gegevens
- lengte en beweeglijkheid van het velum
- neusluchtverlies
 - a) spiegelproef: /ie/, /oe/, /ss/
 - b) testzinnen
 - /kees zit op de fiets/;
 - /de poes zit op de stoep/;
 - /ida kijkt op de klok/
 - c) conversatie
- aanwezigheid adenoid

2. Pedagogisch-psychologische observatie

- indruk van/onderzoek naar de algehele ontwikkeling
- indruk van/onderzoek naar de ouder-kind interactie
- interpretatie van de gegevens uit het spraak- en taalonderzoek tegen de achtergrond van de indruk van de totale ontwikkeling

3. Spraak en taalonderzoek**a. Taalbegrip (Reynell Developmental Comprehension Language Scales, revised 1977).**

| | | |
|--|---|-------------|
| testleeftijd binnen de range | : | goed |
| testleeftijd minder dan 6 maanden beneden de range | : | voldoende |
| testleeftijd meer dan 6 maanden beneden de range | : | onvoldoende |
| Range = M - (-)1 SD | | |

b. Taalproductie

| | | |
|--|---|-------------|
| Taalproductie boven de minimum normen | : | goed |
| Taalproductie rond de minimumnormen | : | voldoende |
| Taalproductie beneden de minimumnormen | : | onvoldoende |

Minimumspreeknormen

| | | |
|----------|---|---|
| 1 jaar | - | veel en gevarieerd brabbelen |
| 1;6 jaar | - | tenminste 5 woordjes woordopbouw nog onvolledig nasale klanken mogen aanwezig zijn. |
| 2;0 jaar | - | tweewoorduitingen woordopbouw nog onvolledig nasaliteit kan nog aanwezig zijn |
| 3;0 jaar | - | drie-tot vijfwoorduitingen grammaticale opbouw nog onvolledig geen opvallende nasaliteit meer |
| 4;0 jaar | - | eenvoudige, korte zinnen problemen met vervoegingen en verbuigingen verstaanbaarheid meer dan 75% |
| 5;0 jaar | - | goed gevormde, ook samengestelde zinnen verstaanbaarheid meer dan 90% |

c. Articulatie

| | | |
|--|---|-------------|
| alle klanken aanwezig (leeftijdsadequaat) | : | goed |
| twee of drie klanken afwezig of afwijkend (leeftijdsadequaat) | : | voldoende |
| meer dan drie klanken afwezig of afwijkend (leeftijdsadequaat) | : | onvoldoende |

d. Rhinolalia aperta (afwezig, licht, matig, ernstig)

conversatie
testzinnen
klanken