

De effecten van behandeling met een kaakorthopedisch gehemelteplaatje op de spraak- en taalontwikkeling van kinderen met een unilaterale complete schisis

Emmy M. Konst¹, Hanny Weersink-Braks², Toni Rietveld³
Herman F.M. Peters⁴

¹*Vakgroep Orthodontie en Orale Biologie, Universitair Medisch Centrum
St Radboud, Nijmegen*

²*St Maartenskliniek, Nijmegen*

³*Vakgroep Taal en Spraak, Katholieke Universiteit Nijmegen, Nijmegen*

⁴*Afdeling KNO, Universitair Medisch Centrum St Radboud, Nijmegen*

Samenvatting

Dit artikel beschrijft de resultaten van een Nederlands prospectief klinisch onderzoek (Dutchcleft) naar de effecten van een kaakorthopedisch gehemelteplaatje (PSOT: pre-surgical orthopaedic treatment) op de spraak- en taalontwikkeling van kinderen met een unilaterale complete schisis. Deze behandeling wordt wereldwijd toegepast en heeft zowel sterke voorstanders als tegenstanders. Door voorstanders worden aan de behandeling veel gunstige effecten toegedicht, die in de Dutchcleft studie voor het eerst wetenschappelijk getoetst worden. In dit artikel worden allereerst de effecten van PSOT op de prelexicale ontwikkeling beschreven. Baby's die PSOT kregen, gebruikten op de leeftijd van 12 maanden significant meer alveolaire klanken in hun brabbelen dan baby's zonder PSOT behandeling. Ook op de latere spraak- en taalontwikkeling zijn effecten van PSOT aangetoond in deze studie. Kinderen die PSOT behandeling hadden gehad hadden op tweeënhalfjarige leeftijd een meer normaal fonologisch ontwikkelingspatroon en op drie jaar significant meer consonanten verworven dan kinderen zonder PSOT. Ook werd de verstaanbaarheid van de spraak van de PSOT groep als significant beter beoordeeld op tweeënhalfjarige leeftijd. Tevens hadden kinderen na PSOT een langer gemiddelde uitinglengte op de leeftijd van 2.6 en 3 jaar. Op zesjarige leeftijd was er op de taalontwikkeling geen meetbaar effect van PSOT; de effecten op de spraakontwikkeling zijn op die leeftijd nog niet geëvalueerd.

Inleiding

In ongeveer de helft van de schisisteamen wordt PSOT (prechirurgische kaakorthopedische therapie) toegepast in de behandeling van baby's met een schisis. In een behandelprotocol met PSOT krijgt de baby binnen een paar weken na de geboorte een gehemelteplaatje aangemeten door de orthodontist van het schisisteam. De behandeling is controversieel en heeft zowel sterke voorstanders als tegenstanders. Het primaire doel van deze behandeling is het versmallen van de kaakspleet, zodat betere esthetische resultaten behaald kunnen worden (O'Donnell, Krischer, & Shiere, 1974; Shaw, 1978) en het vergemakkelijken van het voeden van de baby (Lubit, 1976; Oliver, 1973), maar ook een betere spraakontwikkeling wordt genoemd als een voordeel van deze behandeling (Hotz et al., 1986; Stuffins, 1981). Tegenstanders stellen dat deze behandeling duur is, de groei van de bovenkaak remt (Pruzansky, 1964), en de kans op het optreden van cariës vergroot (Bokhout, Hofman, van Limbeek, Kramer, & Prah-Andersen, 1996). De meeste van deze beweringen, met uitzondering van Bokhout e.a. (1996), zijn gebaseerd op klinische observatie, intuïtie en persoonlijke voorkeur. In 1993 startte een Nederlandse prospectieve, gerandomiseerde studie (Dutchcleft), om de discussie over de waarde van kaakorthopedische behandeling te kunnen ondersteunen met argumenten die gebaseerd zijn op wetenschappelijk onderzoek. Vier onderzoeksaspecten maken deel uit van de Dutchcleft studie: (1) algemene aspecten, (2) chirurgische en orthodontische aspecten, (3) spraak- en taalontwikkeling, (4) kosten-effectiviteits analyse. In dit artikel zal een globaal overzicht gegeven worden van de effecten van PSOT op de spraak- en taalontwikkeling. Voor meer gedetailleerde informatie wordt verwezen naar ons eerdere werk (Konst, Weersink-Braks, Rietveld, & Peters, 1999; Konst, Weersink-Braks, Rietveld, & Peters, 2000; Konst, Rietveld, Peters, & Prah-Andersen, 2001; Konst, 2002; Konst, Rietveld, Peters, & Kuijpers-Jagtman, 2003). Ook voor de resultaten op de andere onderzoeksgebieden wordt verwezen naar publicaties elders (Kuijpers-Jagtman, Konst, Prah, & Severens, 1998; Severens, Prah, Kuijpers-Jagtman, & Prah-Andersen, 1998; Prah, Kuijpers-Jagtman, Van 't Hof, & Prah-Andersen, 2001).

In de literatuur over de effecten van PSOT op de spraak- en taalontwikkeling wordt aangenomen dat PSOT een gunstig effect heeft op de spraakontwikkeling, omdat deze behandeling de spleet in de kaak en het gehemelte bedekt. De tong wordt hierdoor uit de spleet gehouden en ontwikkelt een normaler bewegingspatroon tijdens voeden en brabbelen. Bovendien veronderstelt men dat de kunstmatige alveolaire boog de articulatie van apico-alveolaire klanken vergemakkelijkt (Gnoinski, 1990; Gruber, 1990; Hotz et al., 1986; Jansonius-Schultheiss, 1999; Stuffins, 1981). Daarnaast is het denkbaar dat ook klanken waarbij een hoge intra-orale druk vereist is (orale plosieven en fricatieven) gemakkelijker gemaakt zouden kunnen worden dankzij dit gehemelteplaatje. Tegenstanders van PSOT behandeling stellen dat de spraak juist negatief beïnvloed wordt, vanwege de late sluiting van het palatum durum in dit behandelprotocol (Witzel, Salyer, & Ross, 1984). Ook wordt verondersteld dat de tactiele en kinesthetische proprioceptie van de tong tegen het palatum minder goed is bij het gebruik van

een gehemelteplaatje (Dorf, Reisberg, & Gold, 1985).

De hypothese in de studie die hier beschreven wordt, luidt dat kinderen die behandeld zijn met PSOT een betere spraak- en taalontwikkeling doormaken. Deze kinderen hebben volgens de hypothese gedurende de periode dat PSOT wordt toegepast betere mogelijkheden om normale sensomotorische patronen te oefenen in het brabbelen, omdat het gehemelteplaatje een kunstmatige alveolaire boog creëert en de spleet in het gehemelte bedekt. Aangezien klankpatronen in het brabbelen nauw verwant zijn met klanken die in de eerste betekenisvolle woorden worden gebruikt (Oller, Wieman, Doyle, & Ross, 1976; Stoel-Gammon, 1985; Vihman, Macken, Miller, Simmons, & Miller, 1985) is het niet onwaarschijnlijk dat ook de latere spraak- en taalontwikkeling profiteert van behandeling met PSOT in het eerste levensjaar.

Methode

Design van de studie en participanten

De Dutchcleft studie is opgezet als een prospectieve, gerandomiseerde, gecontroleerde klinische studie waarin de schisisteam van Nijmegen, Amsterdam, en Rotterdam participeren. Alleen baby's met een complete enkelzijdige lip-, kaak-, en gehemelte-spleet zonder andere aangeboren afwijkingen werden geïncludeerd in het onderzoek. Andere inclusiecriteria waren: minimum zwangerschapsduur van 38 weken, minimum geboortegewicht van 2500 g, ouders met Nederlands als moedertaal. In totaal werden 54 kinderen met een complete enkelzijdige lip-, kaak-, en gehemelte-spleet geïncludeerd in de studie. Bij de intake, binnen twee weken na de geboorte, werd de baby met behulp van de computer toegewezen aan een van de twee onderzoeksgroepen. Een groep (PSOT, $n = 27$) kreeg kaakorthopedische behandeling gedurende het eerste levensjaar, de andere groep (non-PSOT, $n = 27$) werd niet behandeld met een gehemelteplaatje. De kaakorthopedische behandeling bestond uit een zogenaamd passieve behandeling met een gehemelteplaat die gemaakt is van een combinatie van harde en weekblijvende kunstharis. De baby moest het plaatje dag en nacht in de mond dragen. Het gehemelteplaatje werd om de zes weken bijgeslepen door de orthodontist om de delen van de bovenkaak in de juiste positie te geleiden. Bij alle baby's in het onderzoek werd de lip door de chirurg gesloten op de leeftijd van 18 weken met behulp van de Millard techniek. Het gehemelte wordt bij behandeling met PSOT gesloten in twee fasen: het achterste, zachte gedeelte van het gehemelte werd gesloten op de leeftijd van 12 maanden (met een gemodificeerde Von Langenbeck procedure). Na de sluiting van het zachte gehemelte, werd het gehemelteplaatje niet meer gebruikt. Het voorste, harde gedeelte van het gehemelte blijft open tot het kind ongeveer negen jaar is.

Procedure

De evaluatie van de spraak- en taalontwikkeling startte op de leeftijd van 12 maanden en werd met halfjaarlijkse intervallen gecontinueerd tot de leeftijd van drie jaar. Op zesjarige leeftijd vond een follow-up meting plaats. Alle metingen werden verricht in

de thuissituatie van het kind. De opnames werden gemaakt met professionele audio- en video-apparatuur. Daarnaast werden gestandaardiseerde test afgenomen. Voor het testen van het taalbegrip op de leeftijd van 2.6 en 3.0 jaar werden de Reynell taalontwikkelingsschalen (Schaerlaekens, Zink, & Van Ommeslaeghe, 1993) gebruikt. De expressieve taalontwikkeling van de zesjarigen werd getest met behulp van het onderdeel productieve woordenschat uit de Taaltests voor Kinderen (van Bon, 1982) en het onderdeel zinsontwikkeling uit de Schlichtingtest voor taalproductie (Schlichting, van Eldik, Lutje Spelberg, van der Meulen, & van der Meulen, 1995).

Prelexicale ontwikkeling

De effecten van kaakorthopedische behandeling op de prelexicale ontwikkeling zijn gemeten op de leeftijd van 12 maanden ($n = 36$: 18 PSOT en 18 non-PSOT) en 18 maanden ($n = 38$: 19 PSOT en 19 non-PSOT). Bij de eerste meting van de spraakontwikkeling op de leeftijd van 12 maanden, net voor chirurgische sluiting van het zachte gehemelte, gebruikten kinderen uit de PSOT-groep het gehemelteplaatje nog. Na de sluiting van het zachte gehemelte werd het plaatje niet meer gedragen. Per kind werden 50 prelexicale uitingen geselecteerd voor analyse. De medeklinkerachtige elementen in deze uitingen werden door twee getrainde luisteraars onafhankelijk van elkaar ingedeeld naar plaats en manier van articulatie. Vervolgens werden de resultaten van beide luisteraars vergeleken. Eventuele verschillen werden opgelost door het opnieuw beluisteren van de uiting tot een consensus bereikt werd.

Fonologische ontwikkeling

De fonologische ontwikkeling tussen de leeftijd van 2 tot 3 jaar werd geanalyseerd met behulp van FAN (Fonologische Analyse van het Nederlands; Beers, 1995). Deze methode maakt gebruik van een steekproef bestaande uit 100 woorden geselecteerd uit de spontane spraak van het kind. In onze studie werd van de kinderen op tweejarige leeftijd ($n = 16$; 9 PSOT en 7 non-PSOT) een steekproef van 50 woorden gebruikt, vanwege de beperkte lexicale ontwikkeling. Op tweeënhalf en driejarige leeftijd werden van elk kind 100 woorden geanalyseerd. Achttien kinderen (9 PSOT en 9 non-PSOT) werden geëvalueerd op tweeënhalf jaar en 12 kinderen (6 PSOT en 6 non-PSOT) op de leeftijd van drie jaar. De fonologische analyse omvatte (1) een inventarisatie van het aantal verworven medeklinkers en (2) een analyse van de volgorde waarin contrastieve kenmerken verworven werden.

Perceptuele beoordeling van de spraak

De spraak van 20 tweeënhalf jaar oude kinderen uit deze studie (10 PSOT en 10 non-PSOT) en een controle groep van 8 leeftijdgenootjes zonder schisis werd in een experiment door een panel van vijf logopedisten met ervaring in het evalueren van schisis-spraak beoordeeld op verschillende zevenpunt schalen. Het experiment werd geblindd uitgevoerd. Aan het eigenlijke beoordelingsexperiment ging een uitgebreide training vooraf. In deze training werden de beoordelaars vertrouwd gemaakt met de schalen en het materiaal. Ook werden van elke spraakschaal twee voorbeelden gege-

ven met bijbehorende schaalwaarde (zogenaamde ankers). Het doel hiervan was de beoordelaars dezelfde referentiewaarden te geven, om zo de betrouwbaarheid van het experiment te vergroten. Van elk kind werd een representatieve spraakstaal bestaande uit tien zinnen uit de spontane spraak gebruikt in het beoordelingsexperiment.

Deze spraak werd beoordeeld op de volgende intervalschalen:

Plaats van articulatie

1. palatalisatie
2. lateralisatie
3. fronting
4. retractie
5. glottale articulatie

Stemkenmerken

6. hyperkinetisch stemgebruik

Nasaliteit

7. hypernasaliteit
8. nasale emissie
9. nasale fricatief
10. nasale snurk
11. nasale realisatie

Algemeen/globale spraakkenmerken

12. correctheid van articulatie
13. verstaanbaarheid
14. rapportcijfer voor de spraak

De eerste 13 schalen waren zevenpunt schalen. De laatste schaal, het rapportcijfer voor de spraak, had tien schaalpunten. De schalen waren zo geconstrueerd dat een hoge schaalwaarde aangeeft dat het kenmerk in sterke mate aanwezig is in de spraak. Voor de schalen verstaanbaarheid, correctheid van articulatie en het rapportcijfer betekent een hoge schaalwaarde een betere spraak. Voor de andere schalen betekent een hoge schaalwaarde een minder goede spraak met afwijkende kenmerken die in sterke mate aanwezig zijn.

Taalontwikkeling

De taalontwikkeling van 12 kinderen (6 PSOT en 6 non-PSOT) is in dit longitudinale onderzoek gemeten op de leeftijd van 2.6 en 3 jaar. Elf van deze kinderen (6 PSOT en 5 non-PSOT) werden tevens in een vervolgmeting op zesjarige leeftijd onderzocht. Het taalbegrip is gemeten op de leeftijd van 2.6 en 3 jaar met behulp van de Reynell Taalontwikkelingsschalen (Schaerlaekens, Zink, & Van Ommeslaeghe, 1993). De expressieve syntactische taalvaardigheden van de kinderen op de leeftijd van 2.6 en 3 jaar zijn onderzocht op basis van de gemiddelde uitingenslengte (in woorden) over 50

uitingen uit een spontane spraakstaal. Op de leeftijd van 6 jaar werd hiervoor het onderdeel zinsontwikkeling van de Schlichtingtest voor Taalproductie (Schlichting, van Eldik, Lutje Spelberg, van der Meulen, & van der Meulen, 1995) gebruikt. Deze test was ten tijde van de evaluatie voor de jongere leeftijdsgroepen nog niet beschikbaar. Tevens werd de woordenschat van de zesjarigen getest met behulp van het onderdeel woordenschat productie uit de Taaltests voor kinderen (van Bon, 1982).

Resultaten

Prelexicale ontwikkeling

Vanuit de hypothese dat PSOT de productie van apico-alveolaire klanken en orale plosieven gunstig beïnvloedt, waren met name de medeklinkerachtige klanken met een alveolaire articulatieplaats en de orale plosief klanken van belang in de analyse. De beschrijving van de effecten van PSOT op de prelexicale ontwikkeling beperkt zich derhalve tot deze twee variabelen. De resultaten (zie tabel 1) laten zien dat baby's uit de PSOT-groep eenjarige leeftijd statistisch significant ($t_{34} = 2,07$; $p < 0,05$) meer alveolaire klanken gebruikten (gemiddelde = 3,7%; SD = 6,1) dan de kinderen uit de onbehandelde groep (gemiddelde = 0,6%; SD = 1,3). Het tweede deel van de hypothese waarin verondersteld werd dat het gehemelteplaatje ook de productie van orale plosieven zou faciliteren werd niet bevestigd. Het gebruik van orale plosieven in de PSOT groep (gemiddelde = 0,8%; SD = 0,2) verschilde niet significant ($t_{34} = -1,61$; $p > 0,05$) van de non-PSOT-groep (gemiddelde = 5,9%; SD = 14,5). Bij de meting op de leeftijd van 18 maanden, toen de kinderen uit de behandelde groep het gehemelteplaatje niet langer meer droegen, waren er geen aantoonbare verschillen tussen beide groepen.

Fonologische ontwikkeling

Aangezien de klankontwikkeling in het brabbelen sterk gerelateerd is aan de fonologische ontwikkeling in betekenisvolle woorden, werd verondersteld dat behandeling met PSOT ook de fonologische ontwikkeling gunstig zou beïnvloeden. Deze veronderstelling werd inderdaad bevestigd door resultaten (zie tabel 2). Op de leeftijd van twee jaar waren er geen meetbare verschillen tussen de groepen. Echter, op tweeënhalvejarige leeftijd volgden de meeste kinderen uit de PSOT-groep ($n = 9$) een nor-

Tabel 1. Gemiddeld percentage alveolaire klanken en orale plosieven in prelexicale uitingen op de leeftijd van 12 maanden en 18 maanden. De standaard deviaties staan vermeld tussen haakjes.

	Leeftijd 12 maanden		Leeftijd 18 maanden	
	Alveolaire klanken	Orale plosieven	Alveolaire klanken	Orale plosieven
PSOT	3,7 (6,1)	0,8 (0,2)	7,7 (8,8)	13,5 (15,6)
Non-PSOT	0,6 (1,3)	5,9 (14,5)	4,2 (5,5)	13,1 (15,2)

Tabel 2. Gemiddeld aantal verworven consonanten per groep op de leeftijd van 2.0, 2.6, en 3.0 jaar. De standaard deviaties staan vermeld tussen haakjes.

Leeftijd	PSOT	Non-PSOT	Significantie
2.0 jaar	3,9 (3,8)	1,4 (1,1)	$t_{14} = 1,66; p = 0,12$
2.6 jaar	8,0 (3,7)	4,1 (2,1)	$t_{16} = 2,70; p = 0,02$
3.0 jaar	12,2 (2,8)	5,7 (2,7)	$t_{10} = 4,08; p = 0,00^*$

* = statistisch significant verschil; $\alpha = 0,016$ na Bonferronicorrectie.

maal ($n = 4$) of vertraagd ($n = 4$) fonologisch ontwikkelingspatroon, terwijl de meeste kinderen uit de non-PSOT-groep ($n = 9$) een abnormale fonologische ontwikkeling doormaakten ($n = 8$). Deze verschillen waren statistisch significant ($\text{Chi}^2_2 = 9,84; p = 0,002$) Op driejarige leeftijd was het fonologische ontwikkelingspatroon tussen de groepen niet meer aantoonbaar verschillend, maar hadden de kinderen uit de PSOT-groep wel significant meer initiële consonanten verworven ($t_{10} = 4,08; p < 0,01$) dan de groep die zonder gehemelteplaatje behandeld was (gemiddeld 12,2; SD = 2,8 versus gemiddeld 5,7; SD = 2,7).

Perceptuele beoordeling van de spraak

Allereerst werd de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid van de oordelen op de schalen berekend met behulp van Cronbach's α . De betrouwbaarheid werd voldoende geacht indien Cronbach's $\alpha \geq 0,75$. Alle schalen, behalve de schaal "fronting" hadden een betrouwbaarheidscoëfficiënt tussen de 0,78 en 0,98. De schaal "fronting" ($\alpha = 0,23$) werd van verdere analyse uitgesloten. Ten tweede werd de intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid bepaald door het vergelijken van de oordelen over zes spraakstalen die twee keer beoordeeld waren (test-hertest items). De intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid was voor twee schalen onvoldoende. Voor het kenmerk nasale snurk was de Pearson correlatie tussen de test-hertest items niet voldoende ($r = 0,63; p > 0,05$) en voor het kenmerk nasale realisatie was het absolute verschil tussen de test en her-test oordelen te groot ($t_5 = 2,7; p < 0,05$). Deze schalen werden niet meegenomen in de analyse. De andere schalen werden gebruikt om de effecten van PSOT behandeling op de

Tabel 3. Aantal kinderen met een normaal, vertraagd, of abnormaal fonologisch ontwikkelingspatroon op de leeftijd van 2.0, 2.6, en 3.0 jaar.

	Leeftijd 2.0 jaar			Leeftijd 2.6 jaar			Leeftijd 3.0 jaar		
	normaal	vertraagd	abnormaal	normaal	vertraagd	abnormaal	normaal	vertraagd	abnormaal
PSOT	2	2	5	4	4	1	4	2	0
Non-PSOT	0	0	7	0	1	8	0	4	2
Sign	$\text{Chi}^2_2 = 3.39; p = 0.09$			$\text{Chi}^2_2 = 9.84; p = 0.002^*$			$\text{Chi}^2_2 = 5.82; p = 0.03$		

* = statistisch significant verschil; $\alpha = 0,016$ na Bonferronicorrectie.

spraak van kinderen met een unilaterale complete schisis te evalueren en te vergelijken met de spraak van een controlegroep kinderen zonder schisis. Per spraakschaal werd een univariate variantieanalyse uitgevoerd (ANOVA) met post hoc vergelijkingen (Tukey's HSD test). De resultaten van deze testen staan vermeld in tabel 4.

De twee groepen met schisis verschilden van de controlegroep zonder schisis op vrijwel alle schalen, behalve de kenmerken palatalisatie en lateralisatie. Zoals verwacht kregen de kinderen uit de controlegroep zonder schisis de beste beoordeling voor hun spraak. Zij kregen betere scores voor verstaanbaarheid en correctheid van articulatie, terwijl de schisiskenmerken volgens de beoordelaars weinig aanwezig waren in de spraak van deze groep. Een uitzondering vormen de schalen palatalisatie en lateralisatie. Op deze schalen behaalden de drie groepen scores die niet statisch significant uit elkaar lagen. Wat betreft de verschillen tussen de PSOT en de non-PSOT groep, was er slechts een beoordelingsschaal waarop deze groepen van elkaar verschilden: de schaal verstaanbaarheid. De PSOT-groep kreeg een significant betere beoordeling voor de spraakverstaanbaarheid dan de non-PSOT-groep.

Tabel 4. Resultaten van de variantieanalyses: gemiddelde score en standaard deviaties (tussen haakjes) en de significantie ($p < 0.05$) van de verschillen tussen de drie groepen op 11 beoordelingsschalen.

Beoordelingsschaal	PSOT (n=10)	n-PSOT (n=10)	n-schisis (n=8)	statistisch significant verschil tussen:
Palatalisatie	2.28 (1.26)	2.28 (1.20)	1.03 (1.33)	ns
Lateralisatie	1.98 (1.69)	1.60 (1.23)	1.30 (1.16)	ns
Retractie	4.08 (1.79)	4.08 (1.79)	1.18 (1.22)	PSOT en n-schisis n-PSOT en n-schisis
Glottale articulatie	1.94 (1.35)	2.12 (1.35)	0.23 (0.33)	PSOT en n-schisis n-PSOT en n-schisis
Hyperkinetisch stemgebruik	1.54 (1.02)	1.42 (0.82)	0.60 (0.24)	PSOT en n-schisis
Hypernasaliteit	3.28 (1.08)	3.66 (0.98)	0.58 (0.39)	n-PSOT en n-schisis
Nasale emissie	2.76 (1.17)	3.76 (1.15)	0.38 (0.42)	PSOT en n-schisis n-PSOT en n-schisis
Nasale fricatief	3.06 (1.47)	3.92 (1.59)	0.45 (0.50)	PSOT en n-schisis n-PSOT en n-schisis
Correctheid van articulatie	1.88 (1.01)	1.24 (0.48)	4.15 (0.95)	PSOT en n-schisis n-PSOT en n-schisis
Verstaanbaarheid	2.62 (1.32)	1.44 (0.65)	4.78 (0.78)	PSOT en n-schisis n-PSOT en n-schisis
Rapportcijfer voor de spraak	3.52 (1.75)	2.18 (0.62)	7.13 (1.49)	PSOT en n-PSOT PSOT en n-schisis n-PSOT en n-schisis

Taalontwikkeling

Receptieve taalontwikkeling

Allereerst werd voor alle kinderen de ruwe score op de test omgerekend naar een percentielscore. Op de leeftijd van 2.6 jaar kon één kind (uit de PSOT groep) niet betrouwbaar getest worden. Negen kinderen (4 PSOT en 5 non-PSOT) behaalden een normale score (i.e. testnorm \pm 1 SD). Twee kinderen (1 PSOT en 1 non-PSOT) behoorden tot de risicogroep met hun taalbegripscore, omdat deze score tussen de 1 SD en 2 SD beneden de testnorm lag. Op driejarige leeftijd behaalden eveneens twee kinderen (1 PSOT en 1 non-PSOT) een risicoscore. De andere kinderen (5 PSOT en 5 non-PSOT) behaalden een normale taalbegripsscore. Geen van de kinderen had een afwijkend taalbegrip.

Om de effecten van PSOT-behandeling te evalueren werd een variantie-analyse met herhaalde metingen met "leeftijd" als within-subject factor en "PSOT-behandeling" als between-subject factor uitgevoerd. De resultaten hiervan staan vermeld in tabel 5. Er waren geen verschillen tussen de groepen gerelateerd aan de behandeling met PSOT ($F_{1,9} = 0,02$; $p = 0,88$).

Expressieve taalontwikkeling

Voor de jonge kinderen werd de syntactische taalvaardigheid uitgedrukt in gemiddelde uitingenslengte (in woorden) die berekend werd over 50 uitingen.

De effecten van behandeling met PSOT werden geëvalueerd met behulp van een variantie-analyse (procedure MANOVA van SPSS) met simple main effects. Tabel 6 vermeldt de resultaten. Hoewel er sprake was van interactie tussen de factor leeftijd en de factor PSOT, liet de simple main effects analyse zien dat er een statistisch significant verschil bestond tussen de PSOT en de non-PSOT groep op de leeftijd van 2.6 jaar ($F_{1,10} = 5,30$; $p < 0,05$) en op de leeftijd van 3 jaar eveneens ($F_{1,10} = 12,19$; $p < 0,01$). In beide leeftijdsgroepen was de gemiddelde uitingenslengte in de PSOT groep langer dan in de non-PSOT groep.

De expressieve syntactische ontwikkeling van 11 zesjarige kinderen uit deze studie is in kaart gebracht met het onderdeel zinsontwikkeling uit de Schlichtingtest voor taalproductie (zie tabel 7). De expressieve syntactische ontwikkeling was normaal voor alle kinderen, behalve één kind uit de non-PSOT groep. Dit kind behaalde een risicoscore (een score tussen de 1 SD en 2 SD beneden de test norm).

De expressieve woordenschat op de leeftijd van 6 jaar is gemeten met het onder-

Tabel 5. Gemiddelde percentiel score en standaard deviatie op de Reynell Taalontwikkelingsschalen op de leeftijd van 2.6 en 3.0 jaar.

	Leeftijd 2.6 jaar		Leeftijd 3.0 jaar	
	Gemiddelde	SD	Gemiddelde	SD
PSOT	55,6 (n=5)	26,6	48,0 (n=6)	26,1
Non-PSOT	49,6 (n=6)	33,3	53,5 (n=6)	24,2

Tabel 6. Gemiddelde uitinglengte in woorden (groepsgemiddelde en standaard deviatie) gemeten op de leeftijd van 2.6 en 3.0 jaar.

	Leeftijd 2.6 jaar		Leeftijd 3.0 jaar	
	Gemiddelde	SD	Gemiddelde	SD
PSOT (n=6)	2,09	0,44	3,21	0,62
Non-PSOT (n=6)	1,48	0,46	1,97	0,62

deel woordenschat productie uit de Taaltests voor Kinderen. Alle kinderen behaalden normale scores op dit testonderdeel. Een t test werd gebruikt om verschillen tussen de twee groepen te evalueren (zie tabel 7). De groepsgemiddelden verschilden niet significant van elkaar ($t_9 = 1,29$; $p = 0,23$) en lagen voor beide groepen zelfs boven de testnorm (percentiel 50).

Discussie

Dit artikel beschrijft de resultaten van een longitudinaal onderzoek naar de effecten van behandeling met PSOT in het eerste levensjaar op de spraak- en taalontwikkeling. Zowel op korte termijn (leeftijd van 12 maanden) als op langere termijn (driejarige leeftijd) zijn gunstige effecten van PSOT aangetoond. De effecten op de taalontwikkeling zijn niet zeer langdurig, want in de follow-up meting op zesjarige leeftijd was er geen waarneembaar verschil meer in de taalontwikkeling van de groepen. De spraak van de zesjarige kinderen is nog niet geanalyseerd. Het is mogelijk dat deze follow-up variabele wel effecten van PSOT laat zien.

Op de leeftijd van 12 maanden, toen de PSOT-groep het gehemelteplaatje nog droeg, maakten de kinderen met PSOT meer alveolaire klanken dan kinderen zonder PSOT. Alveolaire klanken komen in de normale spraakontwikkeling in het brabbelen veelvuldig voor. De baby's met gehemelteplaatje verwierven dus een klankrepertoire dat dicht bij de normale brabbelontwikkeling ligt dan het klankrepertoire van de kinderen die zonder gehemelteplaatje behandeld werden. Aangezien de brabbelontwikkeling nauw verbonden is met de latere klankontwikkeling (Oller, Wieman, Doyle, & Ross, 1976; Stoel-Gammon, 1985; Vihman, Macken, Miller, Simmons, &

Tabel 7. Gemiddelde percentiel score en standaard deviatie op de test voor zinsontwikkeling en de test voor expressieve woordenschat gemeten op de leeftijd van 6 jaar.

	Zinsontwikkeling		Woordenschat	
	gemiddelde	SD	gemiddelde	SD
PSOT (n=6)	65.8	34.4	81.7	19.0
Non-PSOT (n=5)	46.2	31.8	61.4	32.7

Miller, 1985) is het goed te verklaren dat ook de latere fonologische ontwikkeling en de verstaanbaarheid van de spraak gunstiger was in de groep die behandeld is met een gehemelteplaatje. De positieve effecten van PSOT op de gemiddelde uitinglengte zijn mogelijk te verklaren door een betere interactie van het kind met de omgeving. Een jong kind dat beter verstaanbaar is, zal eerder correct begrepen worden door de omgeving en daardoor meer adequate feedback krijgen, hetgeen de taalontwikkeling ten goede komt.

In deze longitudinale studie zijn twee meetmomenten (18 maanden en 2 jaar) waarop geen effecten van PSOT zijn aangetoond. Op de leeftijd van 18 maanden, toen de kinderen uit de behandelde groep het gehemelteplaatje niet langer meer droegen, waren er geen aantoonbare verschillen tussen beide groepen op de gemeten variabelen. In beide groepen nam het percentage alveolaire klanken in het brabbelen toe in de periode van 12 maanden tot 18 maanden. Waarschijnlijk missen de kinderen uit de PSOT groep bij de meting op de leeftijd van 18 maanden de steun van het gehemelteplaatje over de alveolaire boog en gebruiken ze daardoor relatief minder vaak alveolaire klanken in hun brabbelen, dan wanneer ze het plaatje nog gedragen zouden hebben. De onderliggende spraakmotorische patronen in deze groep zijn echter waarschijnlijk wel minder afwijkend als resultaat van de behandeling met PSOT in het eerste levensjaar, hetgeen weer tot uiting komt in de latere spraak- en taalontwikkeling. Hoewel Jansoniuss-Schultheiss (1999) bij een groep tweejarige kinderen met schisis, behandeld met een gehemelteplaatje, wel gunstige effecten op de fonologische ontwikkeling kon aantonen, werden de effecten van PSOT in onze studie pas weer op 2,6 jaar manifest.

De Dutchcleft studie is opgezet als een prospectief longitudinaal onderzoek. Door praktische omstandigheden zoals een lange inclusieperiode en een financiering voor een beperkte periode was het niet mogelijk alle kinderen uit de studie van hun eerste tot hun derde jaar te volgen. Daarnaast waren er bijvoorbeeld op de FAN analyse op tweejarige leeftijd ook uitvallers als gevolg van een nog te beperkte taalontwikkeling. Aangezien in zowel de PSOT groep als de non-PSOT groep evenveel uitvallers waren, is het niet waarschijnlijk dat dit de resultaten beïnvloed heeft. Het betekent wel dat ondanks het longitudinale karakter van de studie de groepen op de verschillende leeftijden voor een deel uit steeds verschillende kinderen bestaan. Een gevolg van bovenstaande feiten is dat het aantal proefpersonen in deze studie in de oudere leeftijdsgroepen kleiner is dan in de jongere leeftijdsgroepen. Het vermogen van een statistische test om verschillen tussen groepen aan te tonen is afhankelijk van het te meten verschil en de steekproefgrootte. Naarmate de steekproef kleiner is, wordt het vermogen van de toets lager en zal het niet mogelijk zijn eventuele kleine verschillen tussen de groepen te detecteren (Rietveld, 1999). In de Dutchcleft studie is de benodigde steekproefomvang bepaald op basis van een te detecteren effect en een schatting van de s.d. in de populatie van een orthodontische variabele. De steekproefgrootte voor deze variabele kwam uit op 23 kinderen per groep. Het was niet mogelijk om de steekproefgrootte te berekenen voor de variabelen die de spraak- en taalontwikkeling beschrijven, aangezien gestandaardiseerde variabelen in dit vakgebied nog grotendeels ontbreken. Derhalve kan het ontbreken van statistisch significante

verschillen tussen de groepen op een aantal tijdstippen in deze studie betekenen dat er daadwerkelijk geen verschillen waren, maar het kan ook te wijten zijn aan een te kleine steekproef. Het feit echter dat door de studie heen bij relatief kleine groepen met een wisselende samenstelling in de meeste leeftijdsgroepen een aantal positieve effecten van PSOT zijn aangetoond, wijst sterk in de richting van een gunstiger verloop van de spraak- taalontwikkeling als gevolg van PSOT behandeling.

Tenslotte is het belangrijk te vermelden dat de waarde van PSOT behandeling niet beoordeeld kan worden op grond van de effecten op de spraak- taalontwikkeling alleen. De resultaten van de andere onderzoeksaspecten die deel uit maken van de Dutchcleft studie (dit zijn algemene, chirurgische en orthodontische aspecten en een kosten-effectiviteits analyse) dienen eveneens in ogenschouw genomen te worden bij de beoordeling van de doelmatigheid van PSOT behandeling.

Summary

This paper describes the results of a Dutch prospective randomised three-centre clinical trial (Dutchcleft) into the effects of presurgical infant orthopaedic treatment (PSOT) on the speech and language development of children with complete unilateral cleft lip and palate. Although PSOT is used in many cleft palate centres throughout the world, the treatment is controversial and most reports on the benefits of PSOT are anecdotal. In the Dutchcleft study, the alleged effects of PSOT are experimentally tested for the first time. The present article describes the effects of PSOT on speech and language development from age one to six. The results showed that babies in the PSOT group used significantly more alveolar sounds in their babbling at age 12 months than the non-PSOT babies. This study also demonstrated effects of PSOT on later speech and language development. Children in the PSOT group followed a more normal phonological development than non-PSOT children at age 2.5. At age 3, the PSOT group had acquired more initial consonants. Furthermore, the intelligibility of PSOT children was judged superior compared to non-PSOT children at age 2.5. Subsequently, the mean length of utterance (MLU) in the PSOT group was longer than in the non-PSOT group at age 2.5 and 3. Finally, no long term effects of PSOT on language development were demonstrated in the follow-up at age six. Long term effects of PSOT on speech development are not evaluated yet.

Dankwoord

Deze studie werd gefinancierd door subsidie van de toenmalige Ziekenfondsraad en maakt deel uit van een Nederlands samenwerkingsproject naar de effecten van PSOT in kinderen met een unilaterale complete schisis. Dit project wordt uitgevoerd aan de schisisteam van Nijmegen, Amsterdam en Rotterdam. De auteurs willen de schisisteam van Nijmegen, Amsterdam en Rotterdam met in het bijzonder de KNO-artsen

en de logopedisten bedanken voor hun deelname. Daarnaast zijn zij dank verschuldigd aan Inge de Braak-Drent, Edith Hofsteede-Botden, Kino Jansonius-Schultheiss, Arianne van der Kooij, en Anneke Mugge voor hun participatie in het perceptuele beoordelingsexperiment.

Referenties

- Beers, M. (1995). *The phonology of normally developing and language-impaired children*. Amsterdam: IFOTT.
- Bokhout, B., Hofman, F.X.W.M., van Limbeek, J., Kramer, G.J.C., & Prah-Andersen, B. (1996). Increased caries prevalence in 2.5-year-old children with cleft lip and/or palate. *European Journal of Oral Sciences* 104, 518-522.
- Dorf, D.S., Reisberg, D.J., & Gold, H.O. (1985). Early prosthetic management of cleft palate. Articulation development prosthesis: a preliminary report. *Journal of Prosthetic Dentistry* 53, 222-226.
- Gnoinski, W. (1990). Infant orthopedics and later orthodontic monitoring for unilateral cleft lip and palate patients in Zurich. In J. Bardach & H. L. Morris (Eds.), *Multidisciplinary management of cleft lip and palate*. (pp. 578-585). Philadelphia: WB Saunders.
- Gruber, H. (1990). Presurgical maxillary orthopedics. In J. Bardach & H. L. Morris (Eds.), *Multidisciplinary treatment of cleft lip and palate*. (pp. 592-600). Philadelphia: WB Saunders.
- Hotz, M., Gnoinski, W., Perko, M., Nussbaumer, H., Hof, E., & Haubensak, R. (1986). The Zurich approach, 1964 to 1984. In M. Hotz, W. Gnoinski, M. Perko, H. Nussbaumer, E. Hof, & R. Haubensak (Eds.), *Early treatment of cleft lip and palate*. (pp. 42-48). Toronto: Hans Huber Publishers.
- Hotz, M., Gnoinski, W., Perko, M., Nussbaumer, H., Hof, E., & Haubensak, R. (1986). The Zurich approach, 1964 to 1984. In M. Hotz, W. Gnoinski, M. Perko, H. Nussbaumer, E. Hof, & R. Haubensak (Eds.), *Early treatment of cleft lip and palate*. (pp. 42-48). Toronto: Hans Huber Publishers.
- Jansonius-Schultheiss, K. (1999). *Twee jaar spraak en taal bij schisis*. The Hague: Holland Academic Graphics.
- Konst, E.M., Rietveld, T., Peters, H.F.M., & Kuijpers-Jagtman, A.M. (te verschijnen). Language skills of young children with unilateral cleft lip and palate following infant orthopedics: A randomized clinical trial. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*.
- Konst, E.M. (2002). *The effects of infant orthopaedics on speech and language development in children with unilateral cleft lip and palate*. Proefschrift Katholieke Universiteit Nijmegen.
- Konst, E.M., Rietveld, T., Peters, H., & Prah-Andersen, B. (2002). Phonological development of toddlers with unilateral cleft lip and palate who were treated with and without infant orthopedics : a randomized clinical trial. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*.
- Konst, E.M., Weersink-Braks, H., Rietveld, T., & Peters, H. (2000). An intelligibility assessment of toddlers with cleft lip and palate who received and did not receive presurgical infant orthopedic treatment. *Journal of Communication Disorders*, 33(6), 483-501.
- Konst, E.M., Weersink-Braks, H., Rietveld, T., & Peters, H.F.M. (1999). Prelexical development of unilateral cleft lip and palate babies with reference to presurgical infant orthopaedics: A randomized prospective clinical trial. *Clinical Linguistics and Phonetics*, 13, 395-407.

- Kuijpers-Jagtman, A.M., Konst, E.M., Pahl, C., & Severens, J.L. (1998). *A study into the effects of presurgical orthopaedic treatment in complete unilateral cleft lip and palate patients: second report*. Nijmegen: University of Nijmegen.
- Lubit, E.C. (1976). Cleft palate orthopedics: why, when, how. *American Journal of Orthodontics*, 69(5), 562-571.
- O'Donnell, J.P., Krischer, J.P., & Shiere, F.R. (1974). An analysis of presurgical orthopedics in the treatment of unilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate Journal*, 11, 374-393.
- Oliver, H.T. (1973). Neonatal orthodontics. *Transactions of the European Orthodontic Society*, 562-563.
- Oller, D.K., Wieman, L.A., Doyle, W.J., & Ross, C. (1976). Infant babbling and speech. *Journal of Child Language*, 3, 1-11.
- Pahl, C., Kuijpers-Jagtman, A.M., Van 't Hof, M.A., & Pahl-Andersen, B. (2001). A randomised prospective clinical trial into the effects of infant orthopaedics on maxillary arch dimensions in unilateral cleft lip and palate. *European Journal of Oral Sciences*, 109, 297-305.
- Pruzansky, S. (1964). Pre-surgical orthopedics and bone grafting for infants with cleft lip and palate: A dissent. *Cleft Palate Journal*, 1, 164-186.
- Rietveld, T. (1999). Hoe groot moet de steekproef zijn? *Stem-, Spraak- en Taalpathologie*, 8, 86-93.
- Schaerlaekens, A., Zink, I., & Van Ommeslaeghe, K. (1993). *Reynell Taalontwikkelingsschalen, handleiding*. Nijmegen: Berkhout BV.
- Schlichting, J.E.P.T., van Eldik, M.C.M., lutje Spelberg, H.C., van der Meulen, S.J., & van der Meulen, B.F. (1995). *Schlichting test voor taalproductie*. Nijmegen: Berkhout Nijmegen BV.
- Severens, J.L., Pahl, C., Kuijpers-Jagtman, A.M., & Pahl-Andersen, B. (1998). Short-term cost-effectiveness analysis of presurgical orthopedic treatment in children with complete unilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 35, 222-226.
- Shaw, W.C. (1978). Early orthopaedic treatment of unilateral cleft lip and palate. *British Journal of Orthodontics*, 5, 119-132.
- Stoel-Gammon, C. (1985). Phonetic inventories, 15-24 months: a longitudinal study. *Journal of Speech and Hearing Research*, 28, 505-512.
- Stoel-Gammon, C. (1985). Phonetic inventories, 15-24 months: a longitudinal study. *Journal of Speech and Hearing Research*, 28, 505-512.
- Stuffins, G.M. (1981). Speech and mental attitudes in the older presurgical child. In B. Kehrer, T. Slingo, B. Graf, & M. Bettex (Eds.), *Long term treatment in cleft lip and palate. Proceedings of the first international symposium*. (pp. 199-206). Bern: Hans Huber Publishers.
- Stuffins, G.M. (1981). Speech and mental attitudes in the older presurgical child. In B. Kehrer, T. Slingo, B. Graf, & M. Bettex (Eds.), *Long term treatment in cleft lip and palate. Proceedings of the first international symposium*. (pp. 199-206). Bern: Hans Huber Publishers.
- van Bon, W.H.J. (1982). *Taaltests voor kinderen*. Lisse: Swets & Zeitlinger BV.
- Vihman, M.M., Macken, M.A., Miller, R., Simmons, H., & Miller, J. (1985). From babbling to speech: a reassessment of the continuity issue. *Language*, 61, 395-443.
- Witzel, M.A., Salyer, K.E., & Ross, R.B. (1984). Delayed hard palate closure: the philosophy revisited. *Cleft Palate Journal*, 21, 263-269.