

Een procesgerichte aanpak van differentiaaldiagnose en therapieplanning bij spraakontwikkelingsstoornissen

Hayo Terband¹, Ben Maassen², Edwin Maas³

¹*Utrechts Instituut voor Linguïstiek - OTS, Universiteit Utrecht*

²*Centre for Language and Cognition (CLCG) & Universitair Medisch Centrum,
Rijksuniversiteit Groningen*

³*Department of Communication Sciences and Disorders,
Temple University, Philadelphia, PA, VS*

Samenvatting

De classificatie en differentiaaldiagnose van spraakontwikkelingsstoornissen is nog altijd een controversieel thema. De verschillende diagnostische categorieën zijn gedefinieerd op procesniveau, in termen van het cognitieve proces waar de kern van de onderliggende stoornis zich bevindt, en ook de meeste behandelmethoden zijn gericht op verschillende delen van het spraakproductieproces. In de klinische praktijk wordt de differentiaaldiagnose echter gebaseerd op gedragsymptomen, met methoden die bovendien vaak niet gestandaardiseerd en/of genormeerd zijn.

Het diagnostische dilemma is dat het onderzoek naar de gedragskarakteristieken van de verschillende subtypes afhankelijk is van 'zuivere' casussen geselecteerd op basis van niet-ambigue, helder afgebakende criteria, die echter alleen gedefinieerd en beschikbaar gemaakt kunnen worden als resultaat van onderzoek naar a priori ongedefinieerde casussen. In dit paper bespreken we een procesgerichte aanpak van differentiaaldiagnose en indicatiestelling gebaseerd op drie onderzoekslijnen waarmee die circulariteit doorbroken kan worden. De kern van de aanpak bestaat uit drie belangrijke punten/inzichten:

1. Waar gedragsymptomatologie onduidelijk is, is het wel mogelijk om op procesniveau specifieke problemen in deelprocessen helder te definiëren. (Een focus op onderliggende processen in plaats van classificatie op basis van gedragsymptomen.)
2. Processen beïnvloeden elkaar: een stoornis op één procesniveau beïnvloedt het functioneren en de ontwikkeling van andere processen. (Een focus op procesprofielen met gradaties van betrokkenheid.)

3. Spraakproductiesysteem en -stoornis ontwikkelen zich. (Een focus op het veranderen van procesprofielen.)

Op basis van deze inzichten opperen we een model van differentiaaldiagnose en therapieplanning voor spraakstoornissen bij kinderen dat - naast vloeiendheidsstoornis - bestaat uit twee algemene diagnostische categorieën: spraakachterstand en spraakontwikkelingsstoornis. Binnen deze categorieën worden vervolgens op procesniveau de behandeldoelen geformuleerd. Deze procesgeoriënteerde aanpak van diagnose en therapieplanning heeft belangrijke voordelen. In tegenstelling tot diagnostische classificatie op basis van gedragssymptomen biedt het directe aanknopingspunten voor een dynamisch behandelplan op maat; een behandelplan afgestemd op de specifieke tekortkoming(en) van het individu dat continue wordt geëvalueerd en bijgesteld gedurende het verloop van de spraakstoornis. Aan de hand van een voorbeeld wordt geïllustreerd hoe een dergelijke aanpak er in de praktijk uit kan zien.

Summary

The classification and differentiation of paediatric speech sound disorders (SSD) remains a controversial issue. The definitions used in classifying childhood SSD and motor speech disorders (MSD) refer to speech production processes, and accordingly a variety of methods of intervention has been developed aiming at different parts of the speech production process. However, diagnosis in clinical practice is primarily based on behavioural speech symptoms rather than the underlying deficits. The diagnostic dilemma is that the ability to investigate the characteristics of subtypes of SSD requires 'pure' cases selected on the basis of unambiguous/clear-cut criteria. These criteria can only be defined and made available as a result of research (into a priori undefined/undetermined cases). In this paper we propose a process-oriented approach to diagnosis and treatment planning of paediatric SSD based on three pillars of research that will allow us to break through this circularity. The core of this approach comprises three important notions:

1. Although the behavioural symptomatology of paediatric SSD's is not completely clear, it is possible to precisely define a specific core problem in terms of processes. (A focus on underlying processing deficits rather than classification based on symptoms.)
2. Developmental interaction between processes: a specific underlying impairment on one level or domain also affects the development on adjacent levels or domains. (A focus on process profiles with degrees of involvement.)
3. The speech production system and -disorder develop/evolve in time. (A focus on changing profiles.)

Based on these three notions, we propose a model of differential diagnosis and treatment planning for childhood speech disorders that - besides "fluency disorder" - comprises two general diagnostic categories labelled "speech delay" and "developmental speech disorder". Within these categories, treatment goals are formulated on the level of processes. This process-oriented approach to diagnosis and treatment planning holds important advantages. In contrast to diagnostic classification based on a description of

behavioural symptoms, it offers direct leads for treatment aimed at the specific underlying impairment tailored to the specific needs of the individual that is evaluated and adjusted in the course of the speech disorder. The approach is illustrated with an example.

Introductie

We gebruiken spraak elke dag als communicatiemiddel om gevoelens en gedachten te uiten, maar staan zelden stil bij de snelheid en de complexiteit van articulatie en de processen die erbij betrokken zijn. De meeste mensen kunnen moeiteloos vloeiend spreken en bij de meeste kinderen verloopt het leren spreken automatisch en zonder veel problemen. Voor sommige kinderen is het echter een worsteling waarbij ze langdurig en intensief spraaktherapie nodig hebben (Campbell, 1999). Kinderen met spraakstoornissen hebben een verhoogd risico op sociale problemen en een achterblijvende ontwikkeling van lees-, schrijf-, en andere academische vaardigheden (e.g., McCormack, McLeod, McAllister, & Harrison, 2009). Deze problemen verkleinen de sociaal-maatschappelijke kansen in volwassenheid (Felsenfeld, Broen, & McGue, 1994). De ontwikkeling van accurate diagnostische methodes en effectieve interventie-programma's is derhalve belangrijk om de impact van spraakstoornissen op korte- en lange-termijn voor het individu te beperken.

In dit artikel opperen we een model van differentiaaldiagnose en therapieplanning voor spraakstoornissen bij kinderen dat -naast vloeiendheidsstoornis- bestaat uit twee algemene diagnostische categorieën, spraakachterstand en spraakontwikkelingsstoornis waarbinnen vervolgens op procesniveau de behandeldoelen worden geformuleerd. We zullen nadruk leggen op spraakontwikkelingsdyspraxie (SOD), als illustratie van de complexe en uitdagende aspecten van differentiaal diagnose van spraakstoornissen bij kinderen. SOD wordt conventioneel gedefinieerd als een neurologische spraakstoornis waarin de precisie en consistentie van spraakbewegingen zijn verstoord, zonder dat er sprake is van neuromusculaire beperkingen (ASHA, 2007). Functioneel gezien gaat het om een stoornis in de planning en/of programmering van spraakbewegingen (ASHA, 2007), of, in andere woorden, om het onvermogen om een abstracte fonologische code om te zetten in motorcommando's (cf. e.g., Maassen, Nijland, & Terband, 2010).

Classificatie en differentiatie van spraakontwikkelingsstoornissen

De classificatie en differentiatie van spraakstoornissen bij kinderen is één van de grote problemen op het gebied van de spraak-taalpathologie, en er zijn in de loop der tijd verschillende classificatiesystemen voorgesteld (zie Waring & Knight, 2013 voor een overzicht). De voornaamste systemen op dit moment zijn Shriberg's Speech Disorders Classification System (Lewis et al., 2006; Shriberg et al., 2010) en Dodd's Differential Diagnosis systeem (Dodd,

2014, 2005). Het Speech Disorders Classification System is een indeling gebaseerd op de -veronderstelde- etiologische achtergrond van de spraakproblemen. In zijn meest recente vorm bestaat het uit 8 subcategorieën verdeeld over 3 hoofdcategorieën:

- Spraakachterstand
 - Genetisch
 - Otitis media (middenoorontsteking)
 - Psychosociaal
- Spraakmotorische stoornissen
 - Apraxie
 - Dysartrie
 - Overige
- Residuele spraakfouten
 - /s/
 - /r/

Het idee achter het Speech Disorders Classification System is dat er een eenduidige relatie is tussen een identificeerbare oorzaak en specifieke spraaksymptomen (Shriberg, et al., 2010). Hoewel het systeem op het eerste gezicht misschien een logische indruk maakt, kent het een tweetal fundamentele problemen. Allereerst is het systeem niet consistent. De indeling is in beginsel gebaseerd op de veronderstelde etiologische achtergrond van de spraakproblemen, maar de twee categorieën residuele spraakfouten vormen daar een uitzondering op en zijn zuiver beschrijvend (symptomatisch) van aard. De stoornissen in de andere categorieën worden door factoren van verschillende niveau's bepaald: genetisch, neurocognitief en -motorisch, otologisch en psychosociaal. Onduidelijk is wat het gewicht van elk van deze factoren is bij het veroorzaken van spraaksymptomen; tevens vertonen de factoren overlap in de zin dat twee of meer factoren in dezelfde casus een rol kunnen spelen. Een tweede probleem is dat het classificatiesysteem zijn uitgangspunt vooralsnog niet waar heeft kunnen maken. Tot op heden is er zo goed als geen bewijs voor aanwijsbare eenduidige oorzaken voor de onderscheiden categorieën en er zijn ook nog geen diagnostische kenmerken voor de categorieën gevonden die zowel specifiek als sensitief zijn. Het gevolg is dat de verschillende categorieën elkaar niet uitsluiten: symptomen zijn niet uniek, en sommige casussen kunnen onder meerdere categorieën geschaard worden.

Dodd's Differential Diagnosis systeem (Dodd, 2014, 2005) is gebaseerd op het Psycholinguistic Framework van Stackhouse & Wells (1997), een modulair psycholinguïstisch model van spraakproductie en -ontwikkeling. De indeling bevat 5 subgroepen gebaseerd op het theoretische psycholinguïstische procesniveau waar de kern van de spraakproblemen zich bevindt, het procesniveau dat is aangedaan:

- Fonologische stoornis (fonemisch niveau)
 - Fonologische achterstand
 - Consistent
 - Inconsistent
- Fonetische articulatiestoornissen (fonetisch niveau)
- Spraakontwikkelingsdyspraxie (motorische planning, programmering en uitvoering)

In tegenstelling tot Shriberg's Speech Disorders Classification System doet Dodd's Differential Diagnosis systeem geen uitspraken over de mogelijke etiologie van de verschillende stoornissen, de z.g. 'distale' oorzaak, maar benoemt het de proximale oorzaak: het verwerkingsniveau van de stoornis. Ook dit systeem kent echter een gebrekkige validiteit. Alhoewel de indeling van de categorieën in theorie is gebaseerd op het theoretische procesniveau dat is aangedaan, gaat het classificatiesysteem uit van het idee dat deze categorieën kunnen worden onderscheiden op basis van overte spraakkenmerken (spraaksymptomen). Zoals we verderop in dit artikel uitgebreid zullen betogen is de relatie tussen spraakkenmerken en procesniveau om verschillende redenen niet eenduidig, en ook voor het Differential Diagnosis systeem geldt dat er tot op heden geen diagnostische kenmerken zijn gevonden die zowel specifiek als sensitief zijn voor de onderscheiden categorieën.

Behalve een aantal theoretische bezwaren tegen beide classificatiesystemen is er dus ook het praktische probleem dat er tot op heden nog geen betrouwbare diagnostische kenmerken zijn gevonden die de verschillende categorieën differentiëren. Vooral het onderscheid tussen spraakontwikkelingsdyspraxie (SOD) en fonologische stoornissen is controversieel (Guyette & Diedrich, 1981; Shriberg, et al., 2010). Pogingen om specifieke en sensitieve kenmerken te vinden waar differentiaaldiagnose op gebaseerd kan worden, worden gehinderd door een grote overlap in symptomen. Er zijn veel voorbeelden die laten zien dat verschillende onderliggende stoornissen soortgelijke symptomen kunnen veroorzaken (Maassen, et al., 2010; Weismer & Kim, 2010), maar een specifieke onderliggende stoornis kan ook symptomen veroorzaken die tot uiting komen in verschillende delen van het spraakproductieproces. De klinische symptomen veranderen bovendien gedurende de ontwikkeling (Maassen, 2002; Stackhouse, 1992). Vaak wordt door de ouders gerapporteerd dat kinderen met SOD geheel niet, weinig en/of minder gevarieerd hebben gebrabbeld. Klankinventaris en woordenschat breiden zich maar langzaam uit met veel en inconsistente substitutiefouten in de peutertijd. De spraak gaat moeizaam en is slecht of niet verstaanbaar, met in de kleuter-tijd een groot aantal ogenschijnlijk 'normale' versprekingen (bijv. "taptot" voor "kapstok") en vaak een afwijkende prosodie (ASHA, 2007; Dodd, 2005; Maassen, et al., 2010; Maassen, Terband, & Nijland, 2009). Er is een grote overlap met andere diagnoses die ook weinig brabbelen, een langzame ontwikkeling van de woordenschat en veel substitutiefouten laten zien.

Om kinderen met spraakproblemen te helpen met het verwervingsproces is een variëteit aan behandelmethoden ontwikkeld, die elk op verschillende delen van de spraakproductieketen zijn gericht, bijvoorbeeld lemmaselectie, sequentiëring van spraakklanken en syllabes, planning/programmering en uitvoering van articulatiebewegingen. Duidelijke criteria om te bepalen welke behandeling het meest geschikt is voor een individueel kind zijn er echter niet. Terwijl de definities van SOD en andere spraakontwikkelingsstoornissen verwijzen naar de onderliggende stoornis of oorzaak, zijn de klinische procedures voor differentiaaldiagnose niet gericht op deze definities. Het huidige diagnostische instrumentarium bestaat uit tests die kennis en vaardigheden meten, zoals zinsformulering, woordenschat, plaatjes en kleuren benoemen, foneemrepertoire. Het resultaat is classificatie op basis van een gedragsbeschrijving van vaardigheden en symptomen maar dit geeft geen directe informatie over de onderliggende processen.

Het diagnostische dilemma is dat onderzoek naar de gedragskarakteristieken van de verschillende subtypes afhankelijk is van “zuivere” casussen geselecteerd op basis van niet-ambigue, helder afgebakende criteria, die echter alleen gedefinieerd en beschikbaar gemaakt worden als resultaat van onderzoek. In dit artikel bespreken we een procesgerichte aanpak van differentiaaldiagnose en indicatiestelling gebaseerd op drie onderzoeksparadigma's waarmee die circulariteit doorbroken kan worden. De wetenschappelijke basis wordt gevormd door (1) een focus op individuele data in plaats van groepsdata, (2) een focus op longitudinale data in plaats van cross-sectionele data, en (3) het gebruik van ondersteunende technologische hulpmiddelen (simulaties met computationele modellen). Eerst schetsen we een model van spraakproductie dat als raamwerk kan functioneren, en daarna bespreken we de fundamentele inzichten die aan de basis liggen van de procesgerichte aanpak. Na een kort overzicht van recente experimentele bevindingen van de drie onderzoekslijnen opperen we vervolgens een model van differentiaaldiagnose en therapieplanning voor spraakstoornissen bij kinderen. Tenslotte zullen we middels een vergelijking van spraakontwikkelingsdyspraxie met andere spraakontwikkelingsstoornissen aan de hand van een genormeerde spraakproductietest (Computer Articulation Instrument; Maassen et al., in press) illustreren hoe een dergelijke aanpak er in de praktijk uit kan zien.

Modellen van spraakproductie

Er is in de loop der jaren een variëteit aan modellen gepubliceerd om het spraakproductieproces te beschrijven, elk met een eigen specifieke aanpak, reikwijdte en theoretische basis (e.g., Bohland, Bullock, & Guenther, 2010; Goldstein & Fowler, 2003; Guenther, 1994; Hickok, 2012; Klapp, 2003; Krger, Kannampuzha, & Neuschaefer-Rube, 2009; Levelt, 1989; Van der Merwe, 1997). De wetenschappelijke discussie over welk model de verschillende onderdelen van spraakproductie het beste weergeeft richt zich traditioneel vooral op de verschillen tussen de modellen -wat een belangrijk onderdeel van het wetenschappelijke onderzoeksveld vormt. Vanuit klinisch perspectief zijn echter daarnaast de overeenkomsten tussen de verschillende modellen belangrijk (zie ook Maassen & Terband, 2015; Terband, Maassen, & Maas, 2016). Allereerst hebben alle modellen een hiërarchische contro-

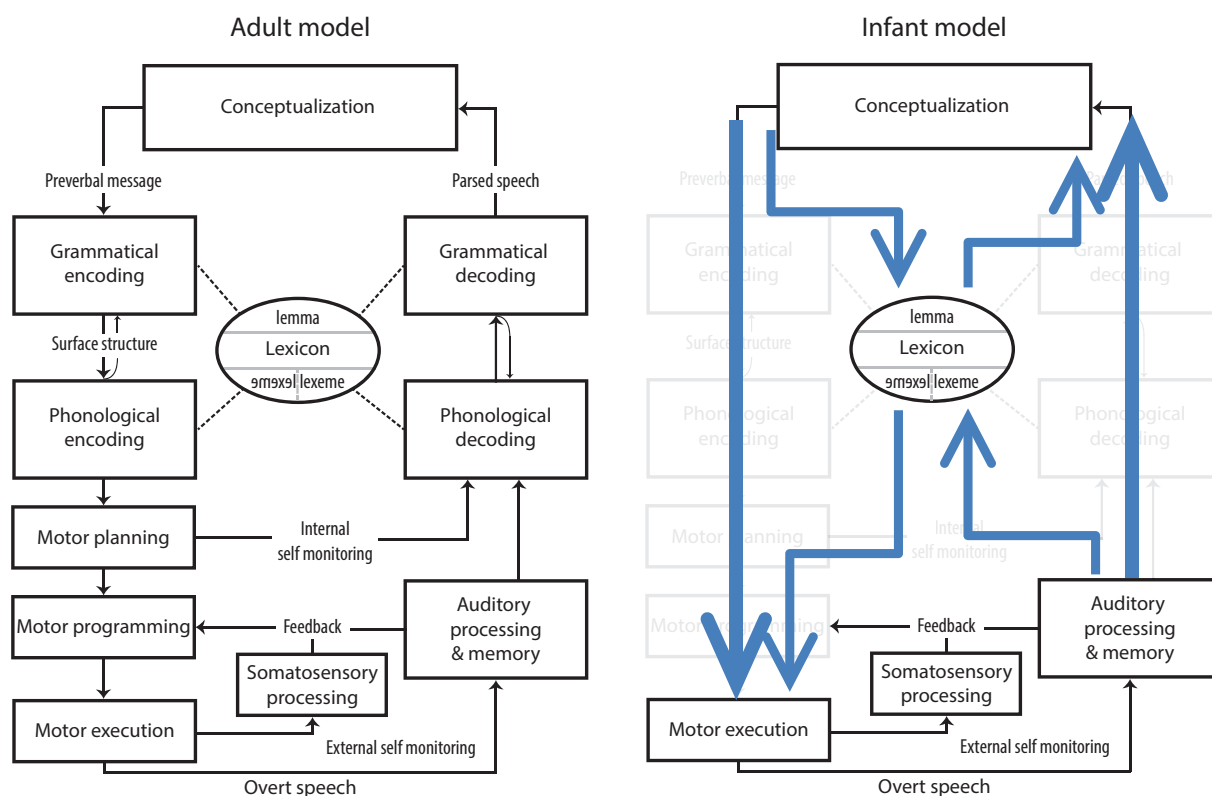
lestructuur, zoals elk model dat fijne motoriek beschrijft. Alle modellen zijn het er vervolgens over eens dat spraakproductie bestaat uit een psycholinguïstisch proces dat een sequentie van één of meerdere woordvormen (frase) produceert die wordt opgeslagen in een kortetermijngeheugen-buffer, gevolgd door een serie processen die de articulatiebewegingen uitrekenen (encoding; transcoding; planning; programmering), en vervolgens worden uitgevoerd om de frase uit te spreken. Wanneer we de verschillen tussen de modellen op detailniveau even terzijde laten, zijn de modellen van volwassen spraakproductie het dus eens over de volgende stadia:

1. Selecteren van lexicale elementen (woordvorm) die, georganiseerd in frases, in een geheugenbuffer worden geplaatst (grammaticale & fonologische encoding);
2. Omzetten van deze frases in specificaties voor articulatiebewegingen (motorische planning & programmering);
3. Uitvoeren van de bewegingen, rekening houdend met de omstandigheden (motorische uitvoer & zelf-monitoring).

Gebaseerd op deze overeenkomsten toont Figuur 1 (linker paneel) een hiërarchisch cascade-model van de linguïstische-, fonetische- en sensomotorische functies die bij de productie van spraak betrokken zijn. Volgens dit model worden lexicale elementen (woordvorm of lexeem) opgehaald uit het lexicon, georganiseerd in frases, en daarna worden opgeslagen in een geheugenbuffer. De woordvormen worden vervolgens fonologisch geëncodeerd, waarbij de sensomotorische doelen die de spraakklanken of syllabes vormen worden geselecteerd en gesequentieerd in een reeks van linguïstische/symbolische eenheden. Het volgende stadium van motorische planning omvat de selectie van articulatorische bewegingsdoelen, die vervolgens gedurende de motorische programmering worden geïmplementeerd in spier-specifieke motorprogramma's. Tenslotte worden de geconstrueerde neurale signalen die de motorprogramma's vormen tijdens de motorische uitvoering naar de perifere systemen gestuurd en uitgevoerd, resulterend in daadwerkelijke bewegingen van de articulatieorganen. Tijdens het spreken vormen deze stappen een continu proces, dat op verschillende niveaus doorlopend wordt gemonitord. Deze zelf-monitoring gebeurt op basis van interne en externe feedback. Tijdens de motorische planning wordt interne feedback gebruikt om bijvoorbeeld te voorkomen dat foutief geplande bewegingen worden uitgevoerd. Externe feedback omvat zowel snelle somatosensorische als langzame auditieve monitoring en levert actuele informatie over de staat van de articulatie-organen (zoals de positie, bewegingsrichting en -snelheid) als input voor motorische programmering. Verder kan externe feedback worden gebruikt voor online aanpassingen van de articulatie en de correctie van fouten.

In het volwassen spraakproductiesysteem zijn de verschillende processen en representaties sterk ingeslepen ("highly overlearned"), en bovendien is het volwassen systeem zeer redundant. Deze twee eigenschappen maken het een zeer robuust systeem. Bijvoorbeeld in het geval van verworven doofheid kan men verstaanbaar blijven spreken ondanks dat de

auditiële zelfmonitoring volledig is uitgeschakeld. Tijdens de spraakontwikkeling bij baby's en kinderen is de situatie echter anders. De verschillende linguïstische-, fonetische- en sensomotorische functies zijn in het brein niet vooraf gespecificeerd (Figuur 1; rechter paneel) maar ontwikkelen zich gradueel tot het volwassen systeem (Bishop, 1997; Karmiloff-Smith, 2006; Karmiloff-Smith, Scerif, & Ansari, 2003). De verschillende functies en representaties ontwikkelen zich simultaan in onderlinge afhankelijkheid en beïnvloeden elkaar dan ook tijdens het ontwikkelingsproces. Waar een volwassene bij verworven doofheid verstaanbaar kan blijven spreken, is het leren spreken voor kinderen met een aangeboren of vroeg verworven doofheid een bijna onmogelijke opgave.



Figuur 1: (Terband, et al., 2016). Linker paneel: Volwassen model van spraakproductie, gebaseerd op Levelt (1989) en Van der Merwe (1997), met de linguïstische- en sensomotorische processen betrokken bij spraakproductie en -perceptie. Rechter paneel: Baby model. Verwerkingsprocessen zijn nog niet gevormd en ontstaan geleidelijk gedurende de ontwikkeling (cf. Levelt, 1998; Maassen, 2002).

Ook in het volwassen spraakproductiesysteem staan de verschillende delen van de productieketen echter niet volledig los van elkaar. De interactie en onderlinge afhankelijkheid tussen processen uit zich voornamelijk in het geval van verstoringen. In het volwassen model kunnen twee soorten interacties onderscheiden worden: directe en indirecte. Met di-

recte interactie bedoelen we dat processen afhankelijk zijn van de input van andere processen. Gebrekkige input afkomstig van een specifiek beschadigd deelproces kan leiden tot problemen op een volgend procesniveau (dat op zichzelf intact kan zijn). Fonologische encodeerproblemen kunnen bijvoorbeeld spraakmotorische processen beïnvloeden en zo als “vervolgschade” sensomotorische symptomen veroorzaken (e.g., Goldrick & Blumstein, 2006).

Indirecte interactie verwijst naar adaptatie- en compensatiemechanismen. In het geval van een verstoring zal het systeem trachten zich aan te passen aan de afwijkende omstandigheden en/of voor de defecten te compenseren. Een langzaam spraaktempo is bijvoorbeeld een algemeen kenmerk van spraakmotorische stoornissen, ongeacht de onderliggende tekortkoming, en in veel gevallen is het geen primair symptoom maar een compensatiemechanisme (Duffy, 2005; Weismer & Kim, 2010). Ook ontwikkelen mensen met anatomische afwijkingen vaak specifieke articulatiepatronen om voor de afwijkingen te compenseren, zoals bijvoorbeeld bij kinderen met een gespleten gehemelte (Chapman, 1993; Konst, Rietveld, Peters, & Prah-Andersen, 2003; Van Lieshout, Rutjens, & Spauwen, 2002), als een eenduidig voorbeeld van adaptatie- en compensatiemechanismen op functioneel-cognitief niveau. Casussen van spontaan herstel na een herseninfarct vormen direct bewijs van adaptatie en compensatieprocessen op neurologisch niveau. Riecker en collega's beschreven bijvoorbeeld een patiënt met een cerebrovasculair accident (CVA) in de linker capsula interna (verbinding tussen primaire motor cortex en ruggemerg) die binnen 9 dagen volledig herstelde van dysartrie (Riecker, Wildgruber, Grodd, & Ackermann, 2002). Functional magnetic resonance imaging (fMRI) scans van 4 en 35 dagen post onset toonden een reorganisatie van corticale activatiepatronen naar de rechter sulcus centralis en linker cerebellum (Ackermann, Riecker, & Wildgruber, 2004; Riecker, et al., 2002).

In het geval van een stoornis in één van de processen of representaties bij kinderen, krijgt de interactie tussen de verschillende processen nog een extra dimensie. Door de interactie in de ontwikkeling van de verschillende processen zijn de effecten van vervolgschade en adaptatie- en compensatiemechanismen nog sterker: een specifiek beschadigd deelproces beïnvloedt ook de ontwikkeling op andere procesniveau's (Kent, 2004; Smith & Goffman, 2004; Strand, McCauley, Weigand, Stoeckel, & Baas, 2013; Terband & Maassen, 2010; Terband, Maassen, Guenther, & Brumberg, 2014). Een kernstoornis op akoestisch-perceptueel niveau kan bijvoorbeeld leiden tot incorrecte of ondergespecificeerde fonologische representaties en daardoor een afwijkend en incompleet fonologisch systeem, maar alleen omdat het heeft moeten leren van gebrekkige input. Soortgelijke dingen zien we ook bij kinderen met een gespleten gehemelte, waar compensatoire articulatiepatronen kunnen blijven bestaan nadat het gehemelte chirurgisch is gerepareerd, met problemen in de ontwikkeling van het fonologisch systeem tot gevolg (e.g., Chapman, 1993; Konst, et al., 2003; Whitehill, Francis, & Ching, 2003). Een ander voorbeeld is het correlationele bewijs dat suggereert dat zwakke motorische controle in SOD geassocieerd is met een zwakke ontwikkeling van lexicon, fonologisch systeem, en auditieve verwerking (Crary, Landess, & Towne, 1984; Marion, Sussman, & Marquardt, 1993).

Naar een procesgerichte benadering van diagnose en behandelplanning

Het ontwikkelingstraject dat baby's en kinderen doorlopen om een volwassen spreekvaardigheid te bereiken is een elementair onderwerp in de discussie over differentiaaldiagnose van spraakontwikkelingsstoornissen en de zoektocht naar de onderliggende tekortkomingen. De effecten van de verschillende interacties op individuele ontwikkelingstrajecten zijn grotendeels onbekend en kunnen mogelijk sterk variëren tussen kinderen. Wel is duidelijk dat kernstoornissen in verschillende delen van de spraakproductieketen op gedragsniveau niet duidelijk van elkaar onderscheiden kunnen worden. Zoals we hierboven al aangaven kunnen fonologische encodeerproblemen spraakmotorische processen beïnvloeden en zo sensomotorische symptomen veroorzaken (Goldrick & Blumstein, 2006). Vice versa zijn fonologische symptomen niet altijd het gevolg van fonologische encoderingsproblemen, maar kunnen ze ook veroorzaakt worden door gestoorde akoestisch-perceptuele en/of articulatoirisch-motorische representaties (Edwards, Fourakis, Beckman, & Fox, 1999; Nijland, 2009). Als gevolg van de onderlinge afhankelijkheden tussen de verschillende delen van de spraakproductieketen is een overlap van symptomen bij spraakontwikkelingsstoornissen de regel, niet de uitzondering. Door deze grote overlap zijn er tot op heden geen betrouwbare diagnostische markeerders gevonden voor differentiaaldiagnose. Profielen met een combinatie van meerdere diagnostische markeerders zijn succesvol gebruikt voor diagnostische classificatie ten behoeve van onderzoekstoepassingen (e.g., Nijland, 2009; Terband, Maassen, Van Lieshout, & Nijland, 2011) en zijn betrouwbaar gebleken voor het onderscheiden van kinderen met SOD en kinderen met dysartrie of structurele afwijkingen (Murray, McCabe, Heard, & Ballard, 2015; zie ook Thoonen, Maassen, Gabreëls, & Schreuder, 1999; Thoonen, Maassen, Wit, Gabreëls, & Schreuder, 1996). Zoals een gedragsbeschrijving geen directe informatie verschaft over de onderliggende stoornis, geeft een diagnostische classificatie geen duidelijke aanwijzingen voor interventie. Meer specifieke aanwijzingen voor doelgerichte behandeling vereisen een aanpak gericht op de ontwikkeling van onderliggende tekortkomingen op procesniveau (Maassen & Terband, 2015; Terband & Maassen, 2012; Terband, Maassen, et al., 2014).

Hoewel de symptomatologie van de verschillende spraakontwikkelingsstoornissen niet compleet helder is, is het wel mogelijk om op procesniveau problemen specifiek te definiëren. Dit is in wezen precies wat Stackhouse en Wells (Stackhouse & Wells, 1997) met hun Psycholinguistic Framework doen. Een opmerkelijk detail is dat de definities van de verschillende diagnostische categorieën, zoals in Dodd's Differential Diagnosis systeem (Dodd, 2014, 2005), hier ook al op gebaseerd zijn maar in de praktijk enkel als label worden gebruikt. Bijvoorbeeld, het ASHA Technical Report (ASHA, 2007) definieert SOD als een stoornis in de planning en/of programmering van spraakbewegingen (cf. bijv. Davis, Jacks, & Marquardt, 2005; Nijland et al., 2003; Peter, Button, Stoel-Gammon, Chapman, & Raskind, 2013), maar de precieze aard van de veronderstelde planning- en/of programmeringstoornis is grotendeels ongespecificeerd. Traditioneel ligt de nadruk in de literatuur voor een groot deel op de beschrijving van gedragsymptomen (bijv. Davis, Jakielski, & Marquardt, 1998; McCabe, Rosenthal, & McLeod, 1998). Het diagnostisch dilemma kan worden opgelost door de focus

te verschuiven van gedragssymptomen naar onderliggende processen, met andere woorden: door modellen als het Psycholinguistic Framework serieus te nemen. Op basis van dit inzicht opperen we een model van differentiaaldiagnose en therapieplanning voor spraakstoornissen bij kinderen waarbinnen de behandeldoelen op procesniveau worden geformuleerd.

De oplettende lezer zal zich echter herinneren dat we hierboven juist hebben uiteengezet dat er interactie is tussen de verschillende componenten van het spraakproductiesysteem, dat spraakproductiesysteem en -stoornis zich ontwikkelen en dat dezelfde gedragssymptomen soms op verschillende manieren verklaard kunnen worden. Hoe kun je dan een onderscheid maken tussen verschillende (deel)processen? De kern van de aanpak is dat waar gedragssymptomatologie onduidelijk is, het op procesniveau wel mogelijk is om specifieke problemen in (deel)processen helder te definiëren. Om inzicht te krijgen in de relatie tussen symptomen en onderliggende tekortkomingen moet de zoektocht dus worden omgekeerd, i.e. niet uitgaan van een symptoomcomplex en proberen daar tekortkomingen bij te vinden, maar uitgaan van de tekortkoming en onderzoeken welke symptoomprofielen daaraan geassocieerd zijn en hoe deze zich ontwikkelen. Dit begint bij een gedetailleerd model van de cognitieve processen die bij spraakproductie betrokken zijn. Binnen dat model kunnen we hypothetische stoornissen definiëren die dienen als vertrekpunt voor empirisch onderzoek. In de volgende secties bespreken we kort experimentele bevindingen uit drie lijnen van onderzoek naar de onderliggende oorzaken van spraakontwikkelingsstoornissen die in dit verband hebben geleid tot relevante inzichten, waarbij we ons voornamelijk richten op SOD.

Individualistische benadering (multiple single cases)

Zoals hierboven uiteengezet is met betrekking tot spraakproductie -maar dit is van toepassing op neuropsychologische ontwikkeling in het algemeen-, ontstaat het (volwassen) systeem geleidelijk en ontwikkelen de verschillende processen in interactie. Ontwikkelingsstoornissen laten dientengevolge typisch een complex patroon van geassocieerde stoornissen zien en de traditionele focus van de cognitieve neuropsychologie op dissociaties is niet geschikt om ontwikkelingsstoornissen te beschrijven en differentiëren (Bishop, 1997; Karmiloff-Smith, et al., 2003; Maassen, et al., 2010).

Hoewel SOD wordt gezien als een spraakstoornis, laten de meeste kinderen met SOD ook stoornissen in andere cognitieve functies zien (zie Nijland, Terband, & Maassen, 2015 voor een overzicht), zoals bijvoorbeeld algemene motoriek (motorische sequentiëring en coördinatie), geheugencapaciteit (in het bijzonder kortetermijn, sequentieel geheugen), en sensorische verwerking (orosensorisch en auditief). De resultaten van deze studies zijn echter vaak niet erg specifiek. Tekortkomingen in kortetermijngeheugen worden bijvoorbeeld zowel bij spraak- als taalstoornissen gerapporteerd. Resultaten zijn verder vaak moeilijk te vergelijken of combineren vanwege verschillen in taak en selectiecriteria van proefperso-

nen. Een echt begrip van de tekortkomingen die spraakontwikkelingsstoornissen onderliggen vereist daarom de bestudering van het complete mechanisme, niet alleen spraakoutput, gericht op het identificeren en karakteriseren van de patronen van geassocieerde en gedissocieerde stoornissen bij kinderen. Twee belangrijke elementen betrokken bij SOD en spraakontwikkelingsstoornissen, te weten sensorische informatieverwerking en zelf-monitoring worden hieronder kort besproken.

Sensorische informatieverwerking

Problemen met de verwerking van orosensorische informatie wordt in de literatuur vaak genoemd als symptoom van SOD (e.g., Hall, Jordan, & Robin, 2007; McCabe, et al., 1998), en is naar voren gebracht als mogelijke oorzaak van de motorische programmeringsproblemen (Terband & Maassen, 2010; Terband, Maassen, Guenther, & Brumberg, 2009). Objectieve data van kinderen met SOD zijn niet beschikbaar, maar subjectieve data verkregen met de Sensory Profile (een gestandaardiseerde vragenlijst voor ouders/verzorgers die het vermogen van kinderen om sensorische informatie te verwerken meet en een profiel van het effect van sensorische informatieverwerking op de prestaties op alledaagse taken verschaft; Dunn, 2006) laat een afwijkende sensorische informatieverwerking zien bij kinderen met SOD die gecorreleerd is met de ernst van de apraxie (Newmeyer et al., 2009). De profielresultaten suggereren dat kinderen met SOD mogelijk passief reageren op sensorische input (Newmeyer, et al., 2009). De causale relatie is echter suggestief en sensorische informatieverwerkingsstekorten zijn ook gevonden in andere populaties (zonder SOD; e.g., Taal, Rietman, van der Meulen, Schipper, & DeJonckere, 2013).

Met betrekking tot auditieve verwerking bij kinderen met SOD is er een grote hoeveelheid neurofysiologische data beschikbaar (zie Nijland, et al., 2015 voor een overzicht). Subtiele, subklinische auditieve verwerkingstekorten worden veelvuldig gerapporteerd in de literatuur, bijvoorbeeld zwakke auditieve discriminatie van consonanten (Groenen, Maassen, Crul, & Thoonen, 1996; Raaymakers & Crul, 1988) en klinkers (Maassen, Groenen, & Crul, 2003), en zwakke prestaties op nonwoorddiscriminatie- en rijmtaken (Nijland, 2009) bij kinderen met SOD, in vergelijking met normaal ontwikkelende kinderen. Verschillende studies hebben verder een specifieke relatie tussen productiesymptomen en perceptuele sensitiviteit aangetoond bij kinderen met SOD (e.g., Groenen, et al., 1996; Raaymakers & Crul, 1988), in lijn met de algemene bevinding dat de articulatorische vaardigheid van sprekers om een foneemcontrast te produceren is gerelateerd aan het perceptieve vermogen om dat contrast te onderscheiden (e.g., Ghosh et al., 2010; Perkell, Guenther, et al., 2004; Perkell, Matthies, et al., 2004). Soortgelijke correlaties zijn gevonden voor kinderen gediagnosticeerd met fonologische stoornissen (Edwards, Fox, & Rogers, 2002; Nijland, 2009), dus voor auditieve verwerkingstekorten geldt eveneens dat de causale relatie met SOD suggestief is.

Zelf-monitoring

Naast het belang voor het opbouwen van fonologische/spraakmotorische representaties speelt sensorische informatieverwerking ook een belangrijke rol als sturend signaal voor de controle en correctie van lopende spraakbewegingen. Data van volwassen sprekers zonder spraakstoornissen wijzen erop dat zowel auditieve als somatosensorische terugkoppeling (feedback) hierbij een rol spelen (e.g., Houde & Jordan, 2002; Katseff, Houde, & Johnson, 2012; Lametti, Nasir, & Ostry, 2012; Purcell & Munhall, 2006; Tremblay, Shiller, & Ostry, 2003; Villacorta, Perkell, & Guenther, 2007). De sterkte van feedback in de aansturing van lopende spraakproblemen varieert echter voor individuele sprekers. Daarnaast zou sprake kunnen zijn van een trade-off tussen auditieve en somatosensorische feedback, waarbij beide informatiestromen verschillend gewogen worden door individuele sprekers (Katseff, et al., 2012; Lametti, et al., 2012; Purcell & Munhall, 2006).

Onderzoek naar de rol van zelfmonitoring in spraakontwikkelingsstoornissen is slechts relatief recent opgekomen en is tot op heden gelimiteerd tot auditieve feedback. Terband en collega's (Terband & Maassen, 2010; Terband, et al., 2009) beredeneerden in de context van SOD dat een kernstoornis in de planning/programmering van spraakbewegingen ertoe zou leiden dat het spraakproductiesysteem meer afhankelijk wordt van controle middels feedback, als afgeleide stoornis of als strategische aanpassing. Recentelijk onderzochten Iuzzini-Seigel en collega's (Iuzzini-Seigel, Hogan, Guarino, & Green, 2015) de afhankelijkheid van auditieve feedback bij kinderen gediagnosticeerd met spraakontwikkelingsstoornissen (waaronder SOD) door middel van het auditieve feedback maskering-paradigma. Op groepsniveau toonden de resultaten dat de maskering alleen bij de kinderen met SOD een effect had op de spraak. De kinderen met SOD hadden een kleinere klinkerruimte en maakten meer fouten met steminzet wanneer auditieve feedback was gemaskeerd dan in de controleconditie (Iuzzini-Seigel, et al., 2015). Deze bevindingen ondersteunen het idee dat kinderen met SOD meer gebruik maken van auditieve feedback en suggereren dat dit een faciliterende functie heeft voor de productie van klinker- en stemcontrasten. Helaas hebben Iuzzini en collega's geen individuele uitkomsten of correlatieve data met auditieve verwerkingsmaten gerapporteerd.

In een andere recente studie onderzochten Terband en collega's (Terband, van Brenk, & van Doornik-van der Zee, 2014) de relatie tussen auditieve en motorische functies bij kinderen met spraakontwikkelingsstoornissen (waaronder SOD) met een auditieve feedback perturbatie-paradigma waarin de eerste en tweede formant in real-time worden geperturbeerd (verschoven) tijdens de productie van CVC woorden. De formantverschuivingen werden tijdens het verloop van het experiment gradueel geïntroduceerd, vastgehouden en dan ineens weggehaald. Zowel het vermogen tot compensatie (berekend als het verschil tussen de geproduceerde formant in de conditie zonder perturbatie en de conditie met maximale perturbatie) en adaptatie (de nawerking, berekend als het verschil tussen de geproduceerde formant in de conditie zonder perturbatie en de conditie nadat de perturbatie ineens is weggehaald) werden geëvalueerd. De hoeveelheid compensatie meet in hoeverre de spreker in

staat is om de discrepantie tussen het motorcommando en het overeenkomende auditieve resultaat op te merken en te corrigeren, en is een maat van spraakmotorische controle. De hoeveelheid adaptatie meet in hoeverre sprekers in staat zijn om hun spraakmotorische representaties bij te werken, en is een maat voor het motorisch leervermogen. Groepsresultaten lieten zien dat de kinderen met spraakontwikkelingsstoornissen niet in staat waren tot compensatie en adaptatie maar de perturbatie juist volgden, en dus de formantverschuiving versterkten. De zich normaal ontwikkelende kinderen daarentegen lieten wel compensatie- en adaptatiegedrag zien. Omdat deze resultaten laten zien dat de kinderen met spraakontwikkelingsstoornissen in staat waren om de incongruenties tijdens auditieve perturbatie op te merken en om hun representaties bij te werken, wijst het er mogelijk op dat het bij deze groep niet gaat om een kernstoornis in auditieve verwerking of het impliciet leren. De kern van de bevindingen is derhalve dat de spraakontwikkelingsstoornissen-groep niet in staat was om de opgemerkte incongruentie om te zetten in een correcte aanpassing. Achter de groepsresultaten bleken echter grote individuele verschillen schuil te gaan. Niet alle kinderen met spraakontwikkelingsstoornissen volgden de perturbatie, en enkele van de zich normaalontwikkelende kinderen deden dat juist wel. Correlationele analyse toonde een sterke correlatie tussen de mate van compensatie en de prestaties op nonwoord repetitie en snelle sequentiële oromotorische bewegingen, taken die zwaar zijn voor spraakmotorisch systeem. Omdat interne representaties (zogenaamde forward- en inverse model) vereisten zijn voor doel-gestuurd motorisch leren, suggereren deze bevindingen dat zwakke interne representaties mogelijk een sleutelrol spelen in SOD en andere spraakontwikkelingsstoornissen (Terband, van Brenk, et al., 2014).

Longitudinale in plaats van cross-sectionele benadering

Stoornissen ontwikkelen zich, zoals zowel klinische studies (e.g., McCune & Vihman, 2001: van weinig/geen brabbelen tot fonologische stoornis; Oller, Eilers, Neal, & Schwartz, 1999) als modeleerstudies (e.g., Terband & Maassen, 2010; Terband, Maassen, et al., 2014: systemische en fonemische mappings) hebben geïllustreerd. Met andere woorden, hoe een bepaalde onderliggende tekortkoming zich uit in symptomen verandert. Om een onderliggende tekortkoming klinisch te beoordelen moeten daarom korte diagnostische therapieën (een vorm van dynamische assessment; e.g., Nijssen, van Brenk, & Terband, 2015; Peña, Iglesias, & Lidz, 2001) worden geïntroduceerd. Bij dit soort korte therapieën is de patiënt zijn/haar eigen controle en is de interpretatie van de resultaten niet afhankelijk van vergelijking met een gematchte controlegroep.

Om spraakverwerving en -stoornissen volledig te kunnen begrijpen in de context van hun ontwikkeling zijn prospectieve longitudinale studies nodig. Hoewel er in de SOD-literatuur een aantal longitudinale studies bestaan (e.g., Davis, et al., 2005; Highman, Hennessey, Leitão, & Piek, 2013; Lewis, Freebairn, Hansen, Iyengar, & Taylor, 2004; Stackhouse & Snowling, 1992), zijn dit doorgaans retrospectieve studies en/of studies met relatief lage deelnemersaantallen. Andere longitudinale studies differentiëren of specificeren vaak geen subty-

pes van spraakontwikkelingsstoornissen (bijv., Johnson, Beitchman, & Brownlie, 2010; Lewis et al., 2015; Rvachew, 2006). In veel gevallen kregen de kinderen ook therapie gedurende de studie, ook al lag de focus van de studie niet op de interventie zelf. Behalve correlatieve ontwerpen kunnen (quasi)-experimentele interventiestudies ook waardevolle informatie opleveren, ook al is de duur vaak korter dan in de meeste longitudinale studies. Experimentele interventiestudies volgen patiënten tijdens een experimentele manipulatie waardoor causaliteit onderzocht kan worden. Rvachew et al. (2004) vergeleken bijvoorbeeld het effect van twee verschillende taken voorafgaand aan de(zelfde) spraaktherapie bij kinderen met fonologische spraakontwikkelingsstoornissen: een auditieve discriminatietask en een leestaak. De resultaten toonden een grotere vooruitgang bij de kinderen die de auditieve taak hadden uitgevoerd dan bij de leestaak-groep, wat een causale invloed van perceptie op productie suggereert.

Spraakmotorische kenmerken

Een aantal studies heeft veranderingen in spraakmotorische kenmerken bij kinderen met spraakontwikkelingsstoornissen longitudinaal onderzocht, het merendeel met perceptuele maten (e.g., Davis, et al., 2005; Lewis, et al., 2015; Preston, Hull, & Edwards, 2013), maar ook een aantal met akoestische maten (e.g., Tyler, Figurski, & Langsdale, 1993) of kinematische maten (e.g., Grigos & Kolenda, 2010). Preston et al. (2013) onderzochten een verscheidenheid van uitkomstmaten, waaronder op transcriptie gebaseerde maten van consonantproductie, bij een groep kinderen tijdens hun kleuterschooltijd (gemiddelde leeftijd 4;6) en later tijdens de basisschool (gemiddelde leeftijd 8;3). De resultaten lieten zien dat kinderen wiens spraakfouten in de kleutertijd vooral distorties waren, op latere leeftijd vaker persistente articulatieproblemen hadden. Dit suggereert dat persistente articulatieproblemen misschien een motorische basis hebben. Kinderen die in de kleutertijd veel atypische substitutiefouten maakten, hadden ook vaker problemen met fonologisch bewustzijn en problemen met lezen op latere leeftijd, wat aangeeft dat atypische fouten zwakkere fonologische representaties of verwerking zouden kunnen reflecteren. Davis et al. (2005) volgden drie kinderen met SOD over een periode van drie jaar (van 4;6 tot 7;7) met een specifieke focus op klinkerproductie. Gebaseerd op transcripties van fragmenten van verbonden spraak rapporteerden ze dat de kinderen een compleet klinkerinventaris hadden (met uitzondering van de r-gekleurde klinkers). Het percentage correct geproduceerde klinkers was echter wel over de gehele periode lager dan verwacht op basis van hun chronologische leeftijd, wat wijst op persistente problemen met klinkerproductie. Soortgelijke resultaten zijn voor dezelfde kinderen ook gerapporteerd met betrekking tot consonanten en syllabestructuur (Jacks, Marquardt, & Davis, 2006). Token-to-token variabiliteit in woordproductie liet bij deze kinderen echter wel een afname zien, al was die afname niet consistent (Marquardt, Jacks, & Davis, 2004). Lewis et al. (2015) volgden een groot cohort van kinderen in de leeftijd van 4 tot 6 jaar met (N=170) en zonder (N=146) spraak- en taalstoornissen op latere leeftijd (11-18 jaar). Ze rapporteerden dat kinderen met spraak- maar geen taalstoornissen op jonge leeftijd, op latere leeftijd ook nog articulatieproblemen lieten zien, met name in multisyllabische woorden.

Met betrekking tot kinematische of fysiologische metingen zijn slechts een beperkt aantal studies met longitudinale data van kinderen met spraakontwikkelingsstoornissen gerapporteerd (e.g., Grigos & Kolenda, 2010; Klein, Byun, Davidson, & Grigos, 2013). Grigos en Kolenda (2010) volgden een 3 jaar oud jongetje met SOD over de periode van 8 maanden en vergeleken de kaakbewegingen op een aantal kinematische parameters met die van drie zich normaal ontwikkelende kinderen. De uitkomsten verschilden iets per doelwoord, maar over het algemeen vielen de veranderingen in de snelheid en duur en de toename in de stabiliteit van de kaakbewegingen binnen het normale bereik, wat suggereert dat de bewegingspatronen van het kind begonnen te normaliseren. Klein en collega's (2013) rapporteerden perceptuele, akoestische en ultrasound data van twee kinderen die veel fouten maakten met /ɪ/ over een periode van 8 maanden. Perceptueel incorrecte /ɪ/ producties bleken geassocieerd met atypische tongrondding achter in de mond. Na 8 maanden (waarin therapie werd gegeven) hadden beide kinderen de klank verworven en maakten zij perceptueel correcte /ɪ/ op manieren zoals normaalontwikkeldende sprekers dat ook doen.

Onderzoek met prospectieve longitudinale designs, gevoelige uitkomstmaten en grotere samples van kinderen met verschillende spraakontwikkelingsstoornissen zullen in de toekomst meer helderheid verschaffen over hoe spraakmotorische tekortkomingen zich manifesteren gedurende de ontwikkeling. Door middel van gecontroleerde interventiestudies met lange termijn follow-ups kunnen verder causale relaties blootgelegd worden.

Cognitieve functies / sequentiëring

Spraakontwikkelingsstoornissen zijn vooral gedefiniëerd als *spraakstoornis*, maar veel kinderen laten ook problemen zien met andere cognitieve functies (hetzelfde geldt overigens voor taalontwikkelingsstoornissen). Vooral bij kinderen met SOD lijkt comorbiditeit van andere cognitieve stoornissen eerder regel dan uitzondering te zijn. één aspect dat in verschillende studies naar voren is gekomen is een globale tekortkoming in motorische sequentiëring bij complexere sequentiele motoriek. Dewey en collega's (1988) vonden bijvoorbeeld dat kinderen met SOD moeite hebben met de transitie tussen verschillende bewegingen binnen een sequentie (bijv. een knop uittrekken en dan draaien), maar niet bij het herhalen van eenvoudige bewegingen (zoals bijvoorbeeld bij het tikken met de vingers). Bradford en Dodd (1996) rapporteerden dat kinderen met SOD lager scoorden op fijn-motorische taken en sequentieel oromotorische bewegingen in vergelijking met zowel zich normaalontwikkeldende kinderen als kinderen met andere spraakstoornissen. In hun onderzoek bij meerdere generaties van verschillende families met een geschiedenis van SOD vonden Peter en collega's verder dat afwisselende sequentieel-motorische taken langzamer waren dan herhalende sequentieel-motorische taken, voor zowel articulatie- als vingerbewegingen (Button, Peter, Stoel-Gammon, & Raskind, 2013; Peter, et al., 2013; Peter & Raskind, 2011). Deze studies vonden eveneens residuele effecten van globale sequentiëringstekortkomingen bij volwassenen met een SOD-geschiedenis, zelfs al was de spraakproductie in conversatie genormaliseerd (Button, et al., 2013; Peter, et al., 2013).

Nijland en collega's (2015) onderzochten de ontwikkeling van sequentiëring en andere cognitieve vaardigheden in 17 kinderen met SOD in vergelijking met 17 zich normaalontwikkende kinderen. Op twee tijdstippen met een interval van 15 maanden werden zowel spraakgerelateerde als ongerelateerde functies getest, ingedeeld in drie brede domeinen: complexe sensomotorische vaardigheden en sequentiëel-geheugenfuncties (auditief ritme, imitatie van handbewegingen, getallen onthouden, en woordvolgorde), eenvoudige sensomotorische vaardigheden (vinger-tikken, vinger localisatie, en orosensorische object herkenning), en niet-gerelateerde controletaken (aandacht, ruimtelijk geheugen, en navigatie door een doolhof). De resultaten toonden lagere scores maar een gelijkmatige verbetering bij de tweede meting voor de kinderen met SOD in vergelijking met de controlegroep, wat wijst op een algemene achterstand in de ontwikkeling van cognitieve functies. Meer specifiek met betrekking tot de complexe sensomotorische vaardigheden en sequentiëel-geheugenfuncties, toonden de resultaten dat de kinderen met SOD op tijdstip twee ook zwakker scoorden vergeleken met de zich normaal ontwikkelende kinderen op tijdstip één (die op dat moment dus 15 maanden jonger waren). De scores op de complexe sensomotorische vaardigheden en sequentiëel-geheugenfuncties waren bovendien gecorreleerd met de ernst van de spraakstoornis. De kinderen met SOD presteerden hetzelfde als de jongere controles op eenvoudige sensomotorische vaardigheden en op de niet-gerelateerde controletaken. Tezamen wijzen deze resultaten erop dat kinderen met SOD een ontwikkelingsachterstand hebben met betrekking tot deze vaardigheden, maar deze kunnen inlopen. Voor wat betreft de complexe sensomotorische vaardigheden en sequentiëel-geheugenfuncties is er echter sprake van een afwijkende ontwikkeling. Deze bevindingen suggereren dat SOD te maken heeft met een tekortkoming in het sequentiëren van spraakbewegingen, met comorbiditeit van nonverbale sequentiële vaardigheden bij de meeste kinderen met SOD (Nijland, et al., 2015).

Computationele modelering

Een veelbelovende, relatief nieuwe benadering van spraakstoornissen zijn simulaties met behulp van (neuro)computationele modellen (e.g., Civier, Tasko, & Guenther, 2010; Kroger, Miller, & Lowit, 2011; Terband & Maassen, 2010; Terband, et al., 2009; Terband, Maassen, et al., 2014). Een van de meest geavanceerde modellen waarmee computersimulaties van de spraakacquisitie- en -productieprocessen kunnen worden uitgevoerd is het *Directions Into Velocities of Articulators*-model (DIVA; Guenther, 1994; Guenther, Ghosh, & Tourville, 2006), een neurale netwerk model dat bestaat uit feedforward and feedback controlelussen die betrokken zijn bij de aansturing van het articulatieapparaat. Het model is gekoppeld aan een articulatoire spraaksynthesizer, zodat het articulatoire en akoestische data genereert die met data van menselijke sprekers kan worden vergeleken.

De belangrijkste functie van computationele modelering is het leren begrijpen van de effecten van een bepaalde onderliggende stoornis. Klinici hebben de neiging om symp-

tomen intuïtief te interpreteren, bijvoorbeeld plaats-van-articulatie fouten als veroorzaakt door problemen met motorische programmering). Computationale modelering maakt het mogelijk om dergelijke interpretaties direct te testen op basis van deductieve redenering, en vormt zo een krachtig middel om inductieve redeneringen (van symptoom naar tekortkoming) te valideren. Doordat parameters systematisch en onafhankelijk van elkaar gemanipuleerd kunnen worden, kunnen modeleerstudies waardevol inzicht verschaffen in de relatie tussen kernstoornis, afgeleide stoornissen en adaptatie en compensatieprocessen.

Deze modeleerbenadering omvat drie stappen die overeenkomen met het idee van de empirische cyclus. Eerst worden op basis van bestaande benaderingen en gedragsdata, specifieke hypothesen gegenereerd over de onderliggende tekortkomingen. Deze hypothesen worden dan getest in computersimulaties en de resulterende spraakpatronen worden vergeleken met de beschikbare gedragsdata (en het model wanneer nodig bijgewerkt). Tenslotte dient het model als basis voor het afleiden van nieuwe hypothesen die empirisch getest kunnen worden in gedragsexperimenten en voor het afleiden van nieuwe ideeën voor klinische interventie (Terband & Maassen, 2010).

Feedforward/feedback controle

In termen van psychomotorische functie kan SOD worden samengevat als een stoornis in het genereren van robuuste spraakmotorische commando's. In het DIVA model worden de motorcommando's voor de verschillende spraakklanken/syllabes opgeslagen als feedforwardprojecties die de articulatorische trajecten specificeren die tot het gewenste auditieve doel leiden. Een probleem in het genereren van robuuste spraakmotorische commando's komt dus overeen met zwakke feedforward controle in het DIVA model. Omdat onjuiste of onnauwkeurige motorcommando's zullen leiden tot fouten die het model met behulp van het feedback-controle subsysteem zal trachten te repareren, voorspelt het model dus dat de spraakproductiesysteem in SOD in verhoogde mate afhankelijk is van het feedback-controle subsysteem. In een eerste serie computersimulaties hebben Terband et al. (2009) de steun op feedback controle systematisch gevarieerd tijdens het aanleren van motorcommando's. De simulaties verklaarden vier sleutelkenmerken van spraakproductie in SOD: sterkere/afwijkende coarticulatie, vervorming van spraakklanken, zoekend articulatiegedrag, en vergrote variabiliteit tussen producties. Een vervolgsérie simulaties met het DIVA model suggereerden dat het vertragen van de articulatie en daardoor het faciliteren van auditieve feedback zou kunnen helpen bij het aanleren van motorische commando's in de context van een spraakmotorische stoornis (Terband & Maassen, 2010).

Voor wat betreft de oorzaak van verslechterde forwardcontrole in SOD zijn twee mogelijkheden naar voren gebracht: gebrekkige somatosensorische informatieverwerking (noodzakelijk om de staat van het articulatiesysteem af te leiden) en een algemeen verhoogd niveau van neurale ruis (Terband et al., 2009; zie ook Terband & Maassen, 2010). Deze simulaties leidden ook tot de nieuwe voorspelling dat bij kinderen met SOD perseveratieve coarticulatie sterker is dan anticipatorische coarticulatie, in tegenstelling tot zich normaal-

ontwikkende kinderen waar dit verschil niet wordt verwacht. Op dit moment is er werk gaande om deze voorspelling te testen. Overeenkomstig heeft een recente serie computersimulaties de interpretatie van verbale apraxie bij volwassenen als slechte feedforwardcontrole bevestigd (Maas, Mailend, & Guenther, 2015; Terband, Rodd, & Maas, 2015). De systematische aanpak van computationele modelering is derhalve veelbelovend voor het identificeren van onderliggende tekortkomingen, evenals voor het genereren van (mogelijk niet-intuïtieve) voorspellingen die empirisch getest kunnen worden. Gezamenlijk leveren de resultaten van deze computersimulaties vanuit een andere bron convergerend bewijs dat de interpretatie van SOD als een tekortkoming in feedforwardcontrole ondersteunt.

Auditieve zelf-monitoring

Een belangrijke verdienste van computationele modelering is de mogelijkheid om ontwikkelingstrajecten te simuleren onder systematisch gevarieerde omstandigheden. In een recente studie onderzochten Terband, Maassen en collega's (2014) zo de ontwikkelingsinteractie tussen neurologische tekortkomingen in auditieve en motorische verwerkingsprocessen. Verschillende studies uit de literatuur wijzen erop dat er een nauwe relatie is tussen spraakproductiesymptomen en perceptieve sensitiviteit, zowel bij kinderen met SOD als bij kinderen met spraakontwikkelingsstoornissen in het algemeen (e.g., Edwards, et al., 2002; Groenen, et al., 1996; Munson, Swenson, & Manthei, 2005; Nijland, 2009; Raaymakers & Crul, 1988), maar de mechanismen en causaliteit achter deze relatie zijn onduidelijk. Wel is bekend dat auditieve zelf-monitoring belangrijk is voor het leren van sensorische doelen voor spraakklanken en voor de coördinatie van timing en grootte van bewegingen in de verschillende betrokken systemen (bijvoorbeeld de spierstructuren die ademhaling, stemgeving en articulatie controleren; Perkell, Guenther, et al., 2004; Perkell et al., 1997; Perkell, Matthies, et al., 2004). In een modeleerstudie met het DIVA model onderzochten Terband, Maassen, et al. (2014) de invloed van de kwaliteit van auditieve zelf-monitoring op het traject en eindpunt van spraakmotorische ontwikkeling in de context van een motorisch verwerkingstekort. Gedurende computersimulaties van brabbelen en imitatieleren werden tekortkomingen in de verwerking van auditieve en motorische informatie systematisch gevarieerd. De effecten van de tekortkomingen wanneer geïmplementeerd na asymptotisch leren dienden als controlecondities. De resultaten toonden een afname in perceptuele beoordelingen van verstaanbaarheid en kwaliteit en een toename in de ernst van vier symptomen van SOD in het algemeen -sterkere/afwijkende coarticulatie, vervorming van spraakklanken, zoekend articulatiegedrag, en vergrote variabiliteit-, maar voor verschillende condities om verschillende redenen. Waar een geïsoleerde tekortkoming in de verwerking van motorische informatie voornamelijk leidde tot een verslechtering op het fonologisch niveau (fonemische mappings), leidde de combinatie van auditieve en motorische verwerkingstekorten voornamelijk tot een verslechtering op het systemisch niveau (interne representaties; *forward-* en *inverse model*). Deze bevindingen impliceren dat de betrokkenheid van de verschillende processen bij kinderen met SOD en andere spraakontwikkelingsstoornissen voor een groot deel afhankelijk is van eigenschappen van het systeem voor auditieve zelf-monitoring. De resultaten zijn ook een voorbeeld van hoe een stoornis op het niveau van

fonologische representaties een motorische oorsprong kan hebben.

Een procesgericht model van spraakontwikkelingsstoornissen

Hoewel er natuurlijk nog veel werk te doen is, zijn de initiële bevindingen van de aanpak van het testen van hypothesen gebaseerd op spraakproductiemodellen veelbelovend. Het voornaamste belang van de drie onderzoeklijnen is om de effecten van een specifieke tekortkoming, en alle factoren die daarbij komen kijken, te begrijpen en zodoende het effect van een interventie te kunnen voorspellen.

Op basis van deze inzichten opperen we een model van differentiaaldiagnose en therapieplanning voor spraakstoornissen bij kinderen dat -naast vloeiendheidsstoornis- bestaat uit twee algemene diagnostische categorieën, spraakachterstand en spraakontwikkelingsstoornis, waarbinnen vervolgens op procesniveau behandeldoelen worden geformuleerd. We zullen in dit artikel niet diep op vloeiendheidsstoornissen in gaan, maar willen wel voor de volledigheid benadrukken dat deze een plaats behoeven in dit model en dat het model daarin kan voorzien. Behandelmethodes voor kinderen met spraakontwikkelingsstoornissen richten zich op verschillende delen van de spraakproductieketen. Duidelijke criteria om te bepalen welke behandeling het meest gepast is, ontbreken zo lang we de onderliggende processen niet kunnen diagnosticeren. Meer specifieke indicaties voor doelgerichte behandeling vereist een stap van classificatie op basis van gedragsymptomen naar een meer dynamische procesgerichte diagnostiek (Maassen & Terband, 2015; Terband & Maassen, 2012). Een dergelijke aanpak heeft belangrijke voordelen. Proces-analyse biedt direct aanknopingspunten voor behandeling gericht op de specifieke onderliggende tekortkomingen afgestemd op de specifieke behoefte van het individu die wordt geëvalueerd en bijgesteld gedurende het beloop van de spraakstoornis. Zo'n meer doelgerichte therapie zal effectiever en efficiënter zijn en betere resultaten opleveren. Hoewel de diagnostische procedure meer tijd in beslag neemt dan de huidige procedure (beoordeling door een deskundige gebaseerd op een gedragsbeschrijving van spraaksymptomen op een bepaald tijdsmoment), zal dit waarschijnlijk gecompenseerd worden door een verkorting van de noodzakelijke duur van de interventie.

Twee essentiële kenmerken van het model dat we voorstellen is dat het bestaat uit *algemene* diagnostische categorieën waarbinnen vervolgens *op procesniveau behandeldoelen* worden geformuleerd.

Algemene diagnostische categorieën

Het model dat we voorstellen onderscheidt nogmaals drie algemene categorieën: spraakachterstand, spraakontwikkelingsstoornis, vloeiendheidsstoornis. De indeling in deze categorieën is gebaseerd op fundamentele verschillen in de algemene kenmerking van de spraakontwikkeling. Deze verschillen zeggen nog niets over behandeldoelen, maar zijn van wezen-

lijk belang voor de latere keuze van *behandelwijze*. Bij spraakachterstand volgt de ontwikkeling het normale patroon, maar is deze vertraagd. De spraakproblemen die het kind ervaart zijn in principe niet ongebruikelijk en worden door veel zich normaal ontwikkelende kinderen ook ervaren, maar zijn aanhoudend of ongebruikelijk voor de leeftijd. In het geval van een spraakontwikkelingsstoornis is de ontwikkeling vaak ook vertraagd, essentieel is echter dat de ontwikkeling niet het normale patroon volgt. Er komen spraakproblemen voor die op geen enkel punt tijdens normale ontwikkeling gebruikelijk zijn. Tenslotte is er bij vloeiendheidsstoornissen sprake van een in principe normale ontwikkeling tot de spraakproblemen beginnen en worden de onvloeiendheden primair veroorzaakt door problemen met de lopende (*on-line*) uitvoering van de processen. Periodes van onvloeiendheid komen in normale ontwikkeling ook veelvuldig voor, maar bij een vloeiendheidsstoornis zijn de onvloeiendheden persistent. De verschillen in de kenmerking van de spraakontwikkeling tussen deze drie categorieën zijn nogmaals niet informatief voor de keuze van behandeldoelen, maar zijn essentieel voor de keuze van behandelwijze.

Behandeldoelen op procesniveau

Het doel van het spraakontwikkelingsproces is de vorming van de verschillende onderdelen van de spraakproductieketen zoals deze bestaan en functioneren in het volwassen systeem (zie figuur 1). Wat we met het huidige model voorstellen is dat wanneer de spraakontwikkeling niet goed verloopt de behandeldoelen ook in termen van deze onderdelen worden gedefinieerd. Met andere woorden: de mogelijke behandeldoelen komen overeen met de processen die zijn weergegeven in het volwassen spraakproductiemodel in Figuur 1. De talige processen achterwege gelaten onderscheidt het model vier verwerkingsprocessen en twee monitoringsprocessen. Verder bevat het model een set fonologische regels en een tweetal representaties die door verschillende processen worden gebruikt. (Merk op dat het onderscheid tussen regels en representaties puur op traditie gebaseerde terminologie is, de wijze waarop deze in het brein worden gecodeerd komt waarschijnlijk sterk overeen.) Eerder in dit artikel hebben we het model al besproken, maar voor het overzicht worden de verschillende onderdelen in Tabel 1 nog even kort opgesomd.

Procesanalyse

Om de onderliggende processen te kunnen isoleren zijn spraakproductiemodellen en bijbehorende experimentele onderzoeksmethoden nodig die pas recent beschikbaar zijn gekomen en nog doorontwikkeld en verfijnd moeten worden, en vervolgens geïmplementeerd in het klinisch instrumentarium. In essentie kan de analyse van de processen en verwerkingstekorten die ten grondslag liggen aan een spraakstoornis worden bereikt door objectieve metingen van spraak in systematisch gevariëerde spreektaken onder systematisch gevariëerde condities. In de juiste combinatie maakt dit het mogelijk de diagnose te specificeren door directe demonstratie van de onderliggende tekortkoming(en). Gebaseerd op een bepaald testresultaat wordt een hypothese over de onderliggende tekortkoming opgesteld of bijgesteld. Vervolgens wordt die hypothese geëvalueerd door middel van een volgende test

Tabel 1: De mogelijke behandeldoelen komen overeen met processen en regels/representaties.

Proces	Regels/representatie	Omschrijving
<i>Verwerkingsprocessen</i>		
Fonologische encoding	Fonotactische regels	Selectie en sequentiëring sensomotorische doelen die de spraakklanken of syllabes vormen in een reeks van linguïstische/symbolische eenheden.
Motorische planning	Fonemische mappings	Selectie articulatorische bewegingsdoelen.
Motorische programmering	Systemische mapping	Implementatie in spier-specifieke motorprogramma's.
Motorische uitvoering	-	Verzending neurale signalen naar de perifere systemen.
<i>Monitoringsprocessen</i>		
Interne zelfmonitoring	Fonemische mappings	Voorkomen uitvoering foutief geplande klanken of bewegingen.
Externe zelfmonitoring - auditief	Systemische mapping	Ad hoc aanpassing van articulatie en correctie van fouten.
Externe zelfmonitoring - somatosensorisch	Systemische mapping	Informatie over actuele staat articulatorisch systeem, ad hoc aanpassing van articulatie en correctie van fouten.

of conditie. Na een x aantal stappen leidt dit uiteindelijk tot de identificatie van het verstoorde onderliggende proces (cf. de hypothese-test aanpak gebruikt in de PALPA; Kay, Lesser, & Coltheart, 2009).

Ter illustratie van deze aanpak het volgende voorbeeld. Een kind is doorverwezen waarvan de spraak algemeen gekenmerkt wordt als moeizaam en onverstaanbaar. Een gestandaardiseerde testbatterij wordt afgenomen bestaande uit plaatjes benoemen, woord- en nonwoordrepetitie en maximum-prestatietaken (diadochokinese), zoals bijvoorbeeld het Computer-Articulatie Instrument (CAI; Maassen, et al., in press). Als een eerste stap ter aanvulling van perceptuele beoordeling en fonetische transcriptie wordt de productie van klinkers akoestisch geanalyseerd. Laten we nu aannemen dat deze initiële akoestische analyse een grote variabiliteit in klinkerkwaliteit laat zien. Dit zou kunnen duiden op een probleem in de motorische programmering ofwel een probleem in motorische uitvoering, wat een fundamenteel verschil kan maken voor wat betreft de behandeling. De volgende stap is dan om de maximum-prestatietaken (diadochokinese) te analyseren en akoestische metingen van mono- en trisyllabsche repetitiesnelheid en van klinker- en fricatieverlenging uit te voeren. Als deze analyse geen abnormaal langzame monosyllabische repetitiesnelheid of korte stemgevingsduur oplevert, zit het probleem waarschijnlijk niet in de motorische uitvoering (cf. Thoonen, et al., 1999; Thoonen, et al., 1996), maar in de motorische program-

mering. Vervolgens rijst de vraag of het motorische programmeringsprobleem is gelegen in de parametrisatie (het schalen en aanpassen van bewegingen aan de bepaalde context) en uitvoering van motorcommando's of dat de opgeslagen motorische representaties zelf afwijkend zijn. Voor de behandeling kan dit wederom een fundamenteel verschil maken. Dit kan worden onderzocht met behulp van het auditieve feedback maskeringsparadigma, waarin tijdens spraakproductie maskeringsruis wordt gepresenteerd over een hoofdtelefoon en de akoestische realisatie van spraakklanken wordt vergeleken in de condities met en zonder auditieve zelf-monitoring. Als er een verschil is tussen de condities, met bijvoorbeeld een verminderd klinkercontrast in de gemaskeerde spraakconditie, dan is het probleem waarschijnlijk gelegen in de opgeslagen motorprogramma's (cf. Iuzzini, et al., 2015; Maas, et al., 2015). Als er geen verschil gevonden wordt tussen de condities zit het probleem waarschijnlijk in de parametrisatie en uitvoering van de motorprogramma's.

Conclusie

Een cruciale kwestie in de stap naar een procesgeoriënteerde aanpak van diagnose en therapieplanning is dat het een andere manier van denken vereist. Logopedisten en taal-spraakpathologen zijn goed geschoold en beschikken over een brede kennis, maar de meeste zijn gewend te focussen op gedragssymptomen. Ze zijn getraind om te denken en te werken volgens een model van diagnostische classificatie en de behandeling te plannen volgens de overeenkomende protocollaire aanpak. Een verandering van focus naar onderliggende processen vereist een heel andere manier van denken die begint bij onderwijs aan en opleiding van professionals, zodat deze over de theoretische achtergrondkennis en praktisch-klinische vaardigheden beschikken om het onderzoeksinstrumentarium te hanteren en interpreteren. (Maassen & Terband, 2015; Terband & Maassen, 2012; Terband, et al., 2016)

Referenties

- Ackermann, H., Riecker, A., & Wildgruber, D. (2004). Functional brain imaging of motor aspects of speech production. In B. Maassen, R. Kent, H. F. M. Peters, P. H. H. M. van Lieshout & W. Hulstijn (Eds.), *Speech Motor Control in Normal and Disordered Speech* (pp. 85-111). Oxford, UK: Oxford University Press.
- ASHA. (2007). Childhood Apraxia of Speech [technical report]. American Speech-Language-Hearing Association. Available from www.asha.org/policy.
- Bishop, D. V. M. (1997). Cognitive neuropsychology and developmental disorders: Uncomfortable bedfellows. *The Quarterly Journal of Experimental Psychology*, 50A, 899-923.
- Bohland, J. W., Bullock, D., & Guenther, F. H. (2010). Neural representations and mechanisms for the performance of simple speech sequences. *Journal of Cognitive Neuroscience*, 22(7), 1504-1529.
- Bradford, A., & Dodd, B. (1996). Do all speech-disordered children have motor deficits? *Clinical Linguistics & Phonetics*, 10(2), 77-101. doi: 10.3109/02699209608985164

- Button, L., Peter, B., Stoel-Gammon, C., & Raskind, W. H. (2013). Associations among measures of sequential processing in motor and linguistics tasks in adults with and without a family history of childhood apraxia of speech: A replication study. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 27(3), 192-212. doi: 10.3109/02699206.2012.744097
- Campbell, T. F. (1999). Functional treatment outcomes in young children with motor speech disorders. In A. Caruso & E. Strand (Eds.), *Clinical Management of Motor Speech Disorders in Children* (pp. 385-396). New York: Thieme.
- Chapman, K. L. (1993). Phonologic Processes in Children with Cleft Palate. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 30(1), 64-72.
doi: 10.1597/1545-1569(1993)030<0064:ppicwc>2.3.co;2
- Civier, O., Tasko, S. M., & Guenther, F. H. (2010). Overreliance on auditory feedback may lead to sound/syllable repetitions: simulations of stuttering and fluency-inducing conditions with a neural model of speech production. *Journal of Fluency Disorders*, 35(3), 246-279. doi: 10.1016/j.jfludis.2010.05.002
- Crary, M. A., Landess, S., & Towne, R. (1984). Phonological error patterns in developmental verbal dyspraxia. *Journal of Clinical Neuropsychology*, 6(2), 157-170.
- Davis, B. L., Jacks, A., & Marquardt, T. P. (2005). Vowel patterns in developmental apraxia of speech: three longitudinal case studies. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 19(4), 249-274.
- Davis, B. L., Jakielski, K. J., & Marquardt, T. P. (1998). Developmental apraxia of speech: Determiners of differential diagnosis. *Clinical Linguistics and Phonetics*, 12, 25-45.
- Dewey, D., Roy, E. A., Square-Storer, P. A., & Hayden, D. (1988). Limb and oral praxic abilities of children with verbal sequencing deficits. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 30(6), 743-751. doi: 10.1111/j.1469-8749.1988.tb14636.x
- Dodd, B. (2014). Differential Diagnosis of Pediatric Speech Sound Disorder. *Current Developmental Disorders Reports*, 1-8.
- Dodd, B. (Ed.). (2005). *Differential Diagnosis and Treatment of Children with Speech Disorder* (2nd ed.). London: Whurr.
- Duffy, J. R. (2005). *Motor Speech Disorders: Substrates, Differential Diagnosis, and Management*. St Louis, MO: Mosby.
- Dunn, W. (2006). *Sensory profile supplement user's manual*. San Antonio, TX: The Psychological Corporation.
- Edwards, J., Fourakis, M., Beckman, M. E., & Fox, R. A. (1999). Characterizing knowledge deficits in phonological disorders. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 42(1), 169-186.
- Edwards, J., Fox, R. A., & Rogers, C. L. (2002). Final consonant discrimination in children: effects of phonological disorder, vocabulary size, and articulatory accuracy. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 45(2), 231-242.
- Felsenfeld, S., Broen, P. A., & McGue, M. (1994). A 28-year follow-up of adults with a history of moderate phonological disorder: educational and occupational results. *Journal of Speech and Hearing Research*, 37(6), 1341-1353.
- Ghosh, S. S., Matthies, M. L., Maas, E., Hanson, A., Tiede, M., Ménard, L., . . . Perkell, J. S. (2010). An investigation of the relation between sibilant production and somatosen-

- sory and auditory acuity. *The Journal of the Acoustical Society of America*, 128(5), 3079-3087.
- Goldrick, M., & Blumstein, S. E. (2006). Cascading activation from phonological planning to articulatory processes: Evidence from tongue twisters. *Language and Cognitive Processes*, 21(6), 649-683.
- Goldstein, L. M., & Fowler, C. A. (2003). Articulatory phonology: A phonology for public language use. In N. O. Schiller & A. S. Meyer (Eds.), *Phonetics and Phonology in Language Comprehension and Production: Differences and Similarities* (pp. 159-207). Berlin: Mouton de Gruyter.
- Grigos, M. I., & Kolenda, N. (2010). The relationship between articulatory control and improved phonemic accuracy in childhood apraxia of speech: A longitudinal case study. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 24, 17-40.
- Groenen, P., Maassen, B., Crul, T., & Thoonen, G. (1996). The specific relation between perception and production errors for place of articulation in developmental apraxia of speech. *Journal of Speech and Hearing Research*, 39(3), 468-482.
- Guenther, F. H. (1994). A neural network model of speech acquisition and motor equivalent speech production. *Biological Cybernetics*, 72(1), 43-53.
- Guenther, F. H., Ghosh, S. S., & Tourville, J. A. (2006). Neural modeling and imaging of the cortical interactions underlying syllable production. *Brain and Language*, 96(3), 280-301.
- Guyette, T., & Diedrich, W. M. (1981). A critical review of developmental apraxia of speech. In N.J.Lass (Ed.), *Speech and Language. Advances in basic research and practice*. (pp. 1-49). New York: Academic Press Inc.
- Hall, P., Jordan, L., & Robin, D. (Eds.). (2007). *Developmental Apraxia of Speech: Theory and Clinical Practice* (2nd ed.). Austin, TX: Pro-ed.
- Hickok, G. (2012). Computational neuroanatomy of speech production. *Nat Rev Neurosci*, 13(2), 135-145. doi: 10.1038/nrn3158
- Highman, C., Hennessey, N. W., Leitão, S., & Piek, J. P. (2013). Early Development in Infants at Risk of Childhood Apraxia of Speech: A Longitudinal Investigation. *Developmental Neuropsychology*, 38(3), 197-210. doi: 10.1080/87565641.2013.774405
- Houde, J. F., & Jordan, M. I. (2002). Sensorimotor Adaptation of Speech I: Compensation and Adaptation. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 45(2), 295-310.
- Iuzzini-Seigel, J., Hogan, T. P., Guarino, A. J., & Green, J. R. (2015). Reliance on auditory feedback in children with childhood apraxia of speech. *Journal of Communication Disorders*, 54, 32-42.
- Jacks, A., Marquardt, T. P., & Davis, B. L. (2006). Consonant and syllable structure patterns in childhood apraxia of speech: developmental change in three children. *Journal of Communication Disorders*, 39(6), 424-441.
- Johnson, C. J., Beitchman, J. H., & Brownlie, E. (2010). Twenty-year follow-up of children with and without speech-language impairments: Family, educational, occupational, and quality of life outcomes. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 19(1), 51-65.
- Karmiloff-Smith, A. (2006). The tortuous route from genes to behavior: A neuroconstruc-

- tivist approach. *Cognitive, Affective, & Behavioral Neuroscience*, 6(1), 9-17.
- Karmiloff-Smith, A., Scerif, G., & Ansari, D. (2003). Double dissociations in developmental disorders? Theoretically misconceived, empirically dubious. *Cortex*, 39(1), 161-163.
- Katseff, S., Houde, J., & Johnson, K. (2012). Partial Compensation for Altered Auditory Feedback: A Tradeoff with Somatosensory Feedback? *Language and Speech*, 55(2), 295-308.
- Kay, J., Lesser, R., & Coltheart, M. (2009). *PALPA: Psycholinguistic assessments of language processing in aphasia*: Psychology Press.
- Kent, R. D. (2004). Models of speech motor control: Implications from recent developments in neurophysiological and neurobehavioral science. In B. Maassen, R. Kent, H. F. M. Peters, P. H. H. M. van Lieshout & W. Hulstijn (Eds.), *Speech Motor Control in Normal and Disordered Speech* (pp. 1-28). Oxford: Oxford University Press.
- Klapp, S. T. (2003). Reaction time analysis of two types of motor preparation for speech articulation: Action as a sequence of chunks. *Journal of Motor Behavior*, 35(2), 135-150.
- Klein, H. B., Byun, T. M., Davidson, L., & Grigos, M. I. (2013). A Multidimensional Investigation of Children's /r/ Productions: Perceptual, Ultrasound, and Acoustic Measures. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 22(3), 540-553.
- Konst, E. M., Rietveld, T., Peters, H. F., & Prah-Andersen, B. (2003). Phonological development of toddlers with unilateral cleft lip and palate who were treated with and without infant orthopedics: a randomized clinical trial. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 40(1), 32-39.
- Kröger, B.J., Miller, N., Lowit, A., Neuschäfer-Rube, C. (2011) Defective neural motor speech mappings as a source for apraxia of speech: Evidence from a quantitative neural model of speech processing. In A. Lowit & R. Kent (Eds.), *Assessment of Motor Speech Disorders* (pp. 325-346). San Diego, CA: Plural Publishing.
- Kröger, B. J., Kannampuzha, J., & Neuschäfer-Rube, C. (2009). Towards a neurocomputational model of speech production and perception. *Speech Communication*, 51, 793-809.
- Lametti, D. R., Nasir, S. M., & Ostry, D. J. (2012). Sensory Preference in Speech Production Revealed by Simultaneous Alteration of Auditory and Somatosensory Feedback. *The Journal of Neuroscience*, 32(27), 9351-9358.
- Levelt, W. J. M. (1989). *Speaking: From intention to articulation*. Cambridge, MA: MIT Press.
- Levelt, W. J. M. (1998). The genetic perspective in psycholinguistics or where do spoken words come from? *Journal of Psycholinguistic Research*, 27(2), 167-180.
- Lewis, B. A., Freebairn, L., Tag, J., Ciesla, A. A., Iyengar, S. K., Stein, C. M., & Taylor, H. G. (2015). Adolescent outcomes of children with early speech sound disorders with and without language impairment. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 24(2), 150-163.
- Lewis, B. A., Freebairn, L. A., Hansen, A. J., Iyengar, S. K., & Taylor, H. G. (2004). School-age followup of children with childhood apraxia of speech. *Language, Speech, and Hearing Services in Schools*, 35(2), 122-140.
- Lewis, B. A., Freebairn, L. A., Hansen, A. J., Stein, C. M., Shriberg, L. D., Iyengar, S. K., & Tay-

- lor, H. G. (2006). Dimensions of early speech sound disorders: A factor analytic study. *Journal of Communication Disorders*, 39(2), 139-157. doi: 10.1016/j.jcomdis.2005.11.003
- Maas, E., Mailend, M. L., & Guenther, F. (2015). Feedforward and feedback control in apraxia of speech (AOS): Effects of noise masking on vowel production. *Journal of Speech, Language and Hearing Research*, 58(2), 185-200.
- Maassen, B. (2002). Issues contrasting adult acquired versus developmental apraxia of speech. *Seminars in Speech and Language*, 23(4), 257-266.
- Maassen, B., Groenen, P., & Crul, T. (2003). Auditory and phonetic perception of vowels in children with apraxic speech disorders. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 17(6), 447-467.
- Maassen, B., Nijland, L., & Terband, H. (2010). Developmental models of Childhood Apraxia of Speech In B. Maassen & P. Van Lieshout (Eds.), *Speech motor control: New developments in basic and applied research* (pp. 243-258). Oxford: Oxford University Press.
- Maassen, B., & Terband, H. (2015). Process-oriented diagnosis of Childhood and adult Apraxia of Speech (CAS & AOS). In M. A. Redford (Ed.), *Handbook of Speech production*. Malden, MA: Wiley-Blackwell.
- Maassen, B., Terband, H., & Nijland, L. (2009). Modellen van spraakontwikkelingsdyspraxie. *Stem- Spraak- Taalpathologie*, 16(3), 137-154.
- Maassen, B., van Haaften, L., Diepeveen, S., de Swart, B., van der Meulen, S., Terband, H., & Nijland, L. (in press). *Computer Articulatie-Instrument (CAI)*. Amsterdam: Boom test uitgevers.
- Marion, M. J., Sussman, H. M., & Marquardt, T. P. (1993). The perception and production of rhyme in normal and developmentally apraxic children. *Journal of Communication Disorders*, 26(3), 129-160.
- Marquardt, T. P., Jacks, A., & Davis, B. (2004). Token-to-token variability in developmental apraxia of speech: three longitudinal case studies. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 18(2), 127-144.
- McCabe, P., Rosenthal, J. B., & McLeod, S. (1998). Features of developmental dyspraxia in the general speech-impaired population? *Clinical Linguistics & Phonetics*, 12(2), 105-126. doi: 10.3109/02699209808985216
- McCormack, J., McLeod, S., McAllister, L., & Harrison, L. J. (2009). A systematic review of the association between childhood speech impairment and participation across the lifespan. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 11(2), 155-170.
- McCune, L., & Vihman, M. M. (2001). Early phonetic and lexical development: A productivity approach. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 44(3), 670-684.
- Munson, B., Swenson, C. L., & Manthei, S. C. (2005). Lexical and phonological organization in children: evidence from repetition tasks. *Journal of Speech, Language and Hearing Research*, 48(1), 108-124.
- Murray, E., McCabe, P., Heard, R., & Ballard, K. J. (2015). Differential diagnosis of children with suspected Childhood Apraxia of Speech. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 58(1), 43-60. doi: 10.1044/2014_jslhr-s-12-0358
- Newmeyer, A. J., Aylward, C., Akers, R., Ishikawa, K., Grether, S., deGrauw, T., . . . White, J. (2009). Results of the Sensory Profile in Children with Suspected Childhood Apraxia

- of Speech. *Physical & Occupational Therapy in Pediatrics*, 29(2), 203-218.
doi: 10.1080/01942630902805202
- Nijland, L. (2009). Speech perception in children with speech output disorders. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 23(3), 222-239.
- Nijland, L., Maassen, B., Van der Meulen, S., Gabreels, F., Kraaimaat, F. W., & Schreuder, R. (2003). Planning of syllables in children with developmental apraxia of speech. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 17(1), 1-24.
- Nijland, L., Terband, H., & Maassen, B. (2015). Cognitive functions in Childhood Apraxia of Speech. *Journal of Speech, Language and Hearing Research*, 58, 550-565.
doi: 10.1044/2015_JSLHR-S-14-0084
- Nijssen, M., van Brenk, F., & Terband, H. (2015). Procesanalyse van spraakproductie bij kinderen met spraakontwikkelingsstoornissen. *Stem- Spraak- Taalpathologie*, 20, 216-237.
- Oller, D. K., Eilers, R. E., Neal, A. R., & Schwartz, H. K. (1999). Precursors to speech in infancy: The prediction of speech and language disorders. *Journal of Communication Disorders*, 32, 223-245.
- Peña, E., Iglesias, A., & Lidz, C. S. (2001). Reducing test bias through dynamic assessment of children's word learning ability. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 10(2), 138-154.
- Perkell, J., Guenther, F. H., Lane, H., Matthies, M. L., Stockmann, E., Tiede, M., & Zandipour, M. (2004). The distinctness of speakers' productions of vowel contrasts is related to their discrimination of the contrasts. *The Journal of the Acoustical Society of America*, 116(4 Pt 1), 2338-2344.
- Perkell, J., Matthies, M., Lane, H., Guenther, F., Wilhelms-Tricarico, R., Wozniak, J., & Guiod, P. (1997). Speech motor control: Acoustic goals, saturation effects, auditory feedback and internal models. *Speech Communication*, 22(2-3), 227-250.
- Perkell, J., Matthies, M. L., Tiede, M., Lane, H., Zandipour, M., Marrone, N., . . . Guenther, F. H. (2004). The distinctness of speakers' /s/-/S/ contrast is related to their auditory discrimination and use of an articulatory saturation effect. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 47(6), 1259-1269.
- Peter, B., Button, L., Stoel-Gammon, C., Chapman, K., & Raskind, W. H. (2013). Deficits in sequential processing manifest in motor and linguistic tasks in a multigenerational family with childhood apraxia of speech. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 27(3), 163-191. doi: doi:10.3109/02699206.2012.736011
- Peter, B., & Raskind, W. H. (2011). Evidence for a Familial Speech Sound Disorder Subtype in a Multigenerational Study of Oral and Hand Motor Sequencing Ability. *Top Lang Disord*, 31(2), 145-167 110.1097/TLD.1090b1013e318217b318855.
- Preston, J. L., Hull, M., & Edwards, M. L. (2013). Preschool speech error patterns predict articulation and phonological awareness outcomes in children with histories of speech sound disorders. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 22(2), 173-184.
- Purcell, D. W., & Munhall, K. G. (2006). Adaptive control of vowel formant frequency: evidence from real-time formant manipulation. *The Journal of the Acoustical Society of America*, 120, 966-977.

- Raaymakers, E. M., & Crul, T. A. (1988). Perception and production of the final /s-ts/ contrast in Dutch by misarticulating children. *Journal of Speech, Language and Hearing Research, 53*(3), 262-270.
- Riecker, A., Wildgruber, D., Grodd, W., & Ackermann, H. (2002). Reorganization of speech production at the motor cortex and cerebellum following capsular infarction: a follow-up functional magnetic resonance imaging study. *Neurocase, 8*(6), 417-423.
- Rvachew, S. (2006). Longitudinal predictors of implicit phonological awareness skills. *American Journal of Speech-Language Pathology, 15*(2), 165-176.
- Rvachew, S., Nowak, M., & Cloutier, G. (2004). Effect of Phonemic Perception Training on the Speech Production and Phonological Awareness Skills of Children With Expressive Phonological Delay. *American Journal of Speech-Language Pathology, 13*(3), 250-263. doi: 10.1044/1058-0360(2004/026)
- Shriberg, L. D., Fourakis, M., Hall, S., Karlsson, H. K., Lohmeier, H. L., McSweeney, J., . . . Wilson, D. L. (2010). Extensions to the Speech Disorders Classification System (SDCS). *Clinical Linguistics & Phonetics, 24*, 795-824.
- Smith, A., & Goffman, L. (2004). Interaction of motor and language factors in the development of speech production. In B. Maassen, R. Kent, H. F. M. Peters, P. H. H. M. van Lieshout & W. Hulstijn (Eds.), *Speech Motor Control in Normal and Disordered Speech* (pp. 225-252). Oxford, UK: Oxford University Press.
- Stackhouse, J. (1992). Developmental verbal dyspraxia. I: A review and critique. *European Journal of Disorders of Communication, 27*(1), 19-34.
- Stackhouse, J., & Snowling, M. (1992). Developmental verbal dyspraxia. II: A developmental perspective on two case studies. *European Journal of Disorders of Communication, 27*(1), 35-54.
- Stackhouse, J., & Wells, B. (1997). *Children's speech and literacy difficulties: A psycholinguistic framework* (Vol. 9): Wiley.
- Strand, E. A., McCauley, R. J., Weigand, S. D., Stoeckel, R. E., & Baas, B. S. (2013). A Motor Speech Assessment for Children With Severe Speech Disorders: Reliability and Validity Evidence. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research, 56*(2), 505-520. doi: 10.1044/1092-4388(2012/12-0094)
- Taal, M. N., Rietman, A. B., van der Meulen, S., Schipper, M., & DeJonckere, P. H. (2013). Children with specific language impairment show difficulties in sensory modulation. *Logopedics Phoniatrics Vocology, 38*(2), 70-78. doi: 10.3109/14015439.2012.687760
- Terband, H., & Maassen, B. (2010). Speech motor development in Childhood Apraxia of Speech (CAS): generating testable hypotheses by neurocomputational modeling. *Folia Phoniatrica et Logopaedica, 62*, 134-142.
- Terband, H., & Maassen, B. (2012). Spraakontwikkelingsstoornissen: Van symptoom- naar procesdiagnostiek. [invited paper]. *Logopedie en Phoniatrie, 7-8*, 229-234.
- Terband, H., Maassen, B., Guenther, F. H., & Brumberg, J. (2009). Computational neural modeling of Childhood Apraxia of Speech (CAS). *Journal of Speech, Language and Hearing Research, 52*(6), 1595-1609.
- Terband, H., Maassen, B., Guenther, F. H., & Brumberg, J. (2014). Auditory-Motor Interactions in Pediatric Motor Speech Disorders: Neurocomputational Modeling of Disor-

- dered Development. *Journal of Communication Disorders*, 47, 17-33.
- Terband, H., Maassen, B., & Maas, E. (2016). Toward a model of pediatric speech sound disorders (SSD) for differential diagnosis and therapy planning. In: P. van Lieshout, B. Maassen, and H. Terband (Eds.), *Speech Motor Control in normal and disordered speech: Future developments in theory and methodology* (pp. 81-110). Rockville, MD: ASHA.
- Terband, H., Maassen, B., Van Lieshout, P., & Nijland, L. (2011). Stability and composition of functional synergies for speech movements in children with developmental speech disorders. *Journal of Communication Disorders*, 44(1), 59-74.
- Terband, H., Rodd, J., & Maas, E. (2015). Simulations of feedforward and feedback control in apraxia of speech (AOS): Effects of noise masking on vowel production in the DIVA model. *Paper presented at the 18th International Congress of Phonetic Sciences (ICPhS 2015)*, Glasgow, UK.
- Terband, H., van Brenk, F., & van Doornik-van der Zee, J. C. (2014). Auditory feedback perturbation in children with developmental speech disorders. *Journal of Communication Disorders*, 51, 64-77.
- Thoonen, G., Maassen, B., Gabreels, F., & Schreuder, R. (1999). Validity of maximum performance tasks to diagnose motor speech disorders in children. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 13(1), 1-23.
- Thoonen, G., Maassen, B., Wit, J., Gabreëls, F., & Schreuder, R. (1996). The integrated use of maximum performance tasks in differential diagnostic evaluations among children with motor speech disorders. *Clinical Linguistics and Phonetics*, 10, 311-336.
- Tremblay, S., Shiller, D. M., & Ostry, D. J. (2003). Somatosensory basis of speech production. *Nature*, 423(6942), 866-869.
- Tyler, A. A., Figurski, G. R., & Langsdale, T. (1993). Relationships between acoustically determined knowledge of stop place and voicing contrasts and phonological treatment progress. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 36(4), 746-759.
- Van der Merwe, A. (1997). A theoretical framework for the characterization of pathological speech sensorimotor control. In M. R. McNeil (Ed.), *Clinical Management Of Sensorimotor Speech Disorders* (pp. 1-25). New York: Thieme Medical Publishers Inc.
- Van Lieshout, P. H. H. M., Rutjens, C. A. W., & Spauwen, P. H. M. (2002). The Dynamics of Interlip Coupling in Speakers With a Repaired Unilateral Cleft-Lip History. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 45(1), 5-19.
- Villacorta, V. M., Perkell, J. S., & Guenther, F. H. (2007). Sensorimotor adaptation to feedback perturbations of vowel acoustics and its relation to perception. *The Journal of the Acoustical Society of America*, 122(4), 2306-2319.
- Waring, R., & Knight, R. (2013). How should children with speech sound disorders be classified? A review and critical evaluation of current classification systems. *International Journal of Language & Communication Disorders*, 48(1), 25-40.
- Weismer, G., & Kim, Y. (2010). Classification and Taxonomy of Motor Speech Disorders: What are the Issues? In B. Maassen & P. Van Lieshout (Eds.), *Speech motor control: New developments in basic and applied research* (pp. 229-242). Oxford: Oxford University Press.

Whitehill, T. L., Francis, A. L., & Ching, C. K. (2003). Perception of place of articulation by children with cleft palate and posterior placement. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 46(2), 451-461.