

Reactie op "Modellen van Spraakontwikkelingsdyspraxie" (Maassen, Terband & Nijland)

Werk aan de winkel: onderzoek naar ontwikkeling en co-morbiditeit in ontwikkelingsstoornissen

Elise de Bree

In het artikel van Maassen, Terband en Nijland komen twee punten aan bod die niet alleen essentieel zijn in de studie van spraakontwikkelingsdyspraxie (SOD), maar die mijns inziens gelden voor iedere ontwikkelingsstoornis, namelijk de noodzaak van ontwikkelingsmodellen en de invloed van co-morbiditeit op de classificatie van de stoornis. Hoewel ik het grotendeels eens ben met de stellingen van Maassen et al, wijs ik hier naar een aantal aanvullingen in de bespreking. Deze zullen vooral gebaseerd zijn op onderzoek naar dyslexie en taalontwikkelingsstoornis (SLI), aangezien dit mijn onderzoeksveld betreft.

Ontwikkeling in ontwikkelingsstoornissen

Allereerst laat de overview van Maassen et al. zien dat dyspraxie zich niet beperkt tot motorische problemen, maar dat verschillende niveaus van spraak en verwerking aangedaan zijn in populaties met SOD. Deze bevindingen gaan tegen het idee van een 'modulaire' stoornis in. In plaats daarvan passen ze beter bij de huidige visie op ontwikkelingsstoornissen, waar de aanname is dat een stoornis het gevolg is van interactie tussen genen, hersenstructuur, input en ontwikkeling. Er zijn dus verschillende niveaus waar problemen op kunnen treden en dit kan leiden tot een brede waaier aan gevolgen voor een kind. Voor een (taalgerelateerde) stoornis betekent dat dus dat er 1) naar meer (en anders) gekeken moet worden dan alleen de gediagnosticeerde maat van uitval en 2) dat de ontwikkeling van/naar de uiteindelijke vast te stellen stoornis in ogenschouw genomen moet worden.

Een blik buiten en binnen modules

In het dyslexie-onderzoek van de afgelopen decennia lag de nadruk sterk op de 'modules' leesvaardigheid en fonologische vaardigheden (de verwerking van fonologische input of het bewust kunnen manipuleren ervan), kernproblemen van dyslexie.

Echter, de afgelopen jaren is duidelijk geworden dat dyslexie zich niet noodzakelijk beperkt tot fonologische problemen, maar dat ook bijvoorbeeld verminderde syntactische vaardigheden te vinden zijn in kinderen met dyslexie (bijvoorbeeld Rispens 2004). Bovendien zijn er ook buiten het talige domein problemen te vinden bij dyslectici (bijvoorbeeld Vicari et al., 2003). De blik *buiten* de bekende aangedane modules en domeinen rukt dus op.

Echter, tegelijkertijd wordt duidelijk dat er ook goed gekeken dient te worden *binnen* een gebied of construct. Voor dyslexie, bijvoorbeeld, wordt al decennia gesproken over de fonologische stoornis die kenmerkend is voor de leesstoornis. Meestal worden taken van fonologisch bewustzijn en fonologische verwerking gebruikt om dit fonologische tekort aan te tonen. Het is echter niet duidelijk of deze stoornis ontstaat door problemen in spraakperceptie (input), spraakproductie (output), verbaal kortetermijn geheugen, het lexicon, of het leren van fonologische patronen, bijvoorbeeld. Slechts recentelijk wordt er beter gekeken naar het construct ‘fonologie’ in dyslexieonderzoek en worden verschillende deelcomponenten hiervan bekeken (bijvoorbeeld de Bree, 2007, Marshall et al., ingediend, Ramus & Szenkovits, 2007). Uit het artikel van Maassen et al. blijkt dat hetzelfde ook lijkt te gebeuren in onderzoek naar SOD.

Een probleem dat dan direct de kop opsteekt is dat het duidelijk moet zijn wat gemeten wordt. De taakzuiverheid is in dyslexie-onderzoek soms ver te zoeken, omdat veel taken leunen op verschillende deelcomponenten van spraak. In non-woord herhaling, een taak die fonologische verwerking hoort te meten, bijvoorbeeld, worden alle vaardigheden die ik zojuist opsomde bevroegd. Een probleem op één van deze vaardigheden (bijvoorbeeld spraakperceptie) kan leiden tot zwakkere non-woordherhaling, maar dat geldt ook als andere of alle onderliggende vaardigheden aangetast zijn. Dit maakt het moeilijk een conclusie te trekken over het onderliggende probleem van een stoornis. Ik kan me indenken dat dit voor SOD ook geldt – hoe kan bijvoorbeeld een taak gevonden worden die alleen fonologische encoding meet (die ook nog eens onderscheid kan maken tussen opslag, verwerking, of ophalen van fonologische representaties) zonder beïnvloed te worden door vocabulairegrootte? Of, hoe kan het verschil tussen de niveaus van ‘motor planning’ en ‘motor programming’ 100% zeker gemaakt worden? Dit is een onderwerp dat niet alleen voor onderzoek geldt dat de aanname van een modulaire stoornis houdt, maar dat ook bestaat als ervan wordt uitgegaan dat verschillende vaardigheden aangetast kunnen zijn. Alleen als helemaal duidelijk is wat er gemeten wordt, kunnen er conclusies getrokken worden over de onderliggende problemen van een stoornis. Dit punt wordt door Maassen et al. echter niet besproken. Het zou interessant zijn hun visie daarop te horen.

Een blik op de ontwikkeling

Naast het gegeven dat een modulaire visie op stoornissen te simplistisch blijkt te zijn, geven Maassen et al. ook aan dat het ontwikkelingstraject naar een stoornis van

belang is om meer inzicht te krijgen in mogelijk onderliggende oorzaken. Binnen het dyslexie-onderzoek is bijvoorbeeld aangetoond dat kinderen met een familiair risico voor dyslexie een vertraagde taalontwikkeling vertonen vergeleken met kinderen zonder dyslexie in de familie (bijvoorbeeld van Alphen et al., 2004, Scarborough, 1990, Snowling, Gallagher & Frith, 2003). De kinderen uit de risicogroep die uiteindelijk daadwerkelijk leesproblemen vertonen, hebben over het algemeen minder compensatiemogelijkheden dan de kinderen uit de risicogroep die geen leesproblemen krijgen. Het traject voorafgaand aan de diagnose dyslexie laat dus al mogelijke voorlopers van de stoornis zien. Bovendien heeft Engels onderzoek aangetoond dat risicokinderen die op achtjarige leeftijd geen leesproblemen hadden, op twaalfjarige leeftijd wel meer problemen hadden met bepaalde aspecten van het lezen dan normaal-lezende kinderen (Snowling, Muter & Carroll, 2007). De mogelijke diagnose van dyslexie kan dus ook op een later moment in de ontwikkeling tot stand komen.

Deze bevindingen laten zien dat een risico voor dyslexie niet aan of uit staat. In plaats daarvan, gaat het om gradaties van een risico. Er is een basisrisicofactor voor dyslexie, bijvoorbeeld in de genen, wat via hersenontwikkeling leidt tot een fonologisch probleem. Door compenserende vaardigheden, als bijvoorbeeld normale taalontwikkeling, of goede instructie op school, kan het risico voor dyslexie verminderd worden. Dit leidt tot dyslexie als een multirisicostoornis, waarin verschillende risicofactoren en compensatiemogelijkheden bijdragen aan het uiteindelijke individuele profiel van een dyslecticus. Dit kan alleen vastgesteld worden door de ontwikkeling van/naar een stoornis te volgen. Langlopend onderzoek naar een ontwikkelingsstoornis is dus van onschatbare waarde.

Het cognitieve statische model in de prullenbak?

De voorbeelden op basis van SOD en de redenering van Maassen lijken aan te tonen dat het idee van een cognitief model dat niet kijkt naar de ontwikkeling niet nuttig is. Dit lijkt mij echter te ver gaan. Een cognitief model zorgt ervoor dat het *proximale* probleem, dus het patroon van problemen ‘nu’, van de stoornis duidelijk kan worden. Dit kan nodig zijn om na te gaan welke *distale* oorzaken (problemen in het ontwikkelingstraject) geleid hebben tot de uiteindelijke stoornis. Zoals gezegd wordt dyslexie gekenmerkt door een fonologisch probleem. Dit is het proximale patroon dat wordt gevonden in dyslexie over leeftijden en talen heen. Mogelijke distale oorzaken kunnen onderzocht worden op basis van deze aanname, zoals auditieve verwerking, korte termijngeheugen en vocabulaireverwerving. Het cognitieve model is dus een opstap naar verder onderzoek.

Daarnaast houdt een statisch model de mogelijkheden van onderzoek beperkt. Immers, als de hele ontwikkeling in kaart gebracht moet worden, dan leidt dit tot een duizelingwekkende hoeveelheid deelgebieden die onderzocht moeten worden en met elkaar in verband gebracht moeten worden.

Tot slot kan een proximaal profiel een startpunt zijn voor interventie. Het heeft immers geen zin om bijvoorbeeld auditieve training te geven aan dyslectische kinderen als dit probleem alleen op een eerder moment in ontwikkeling bestond. Fonologische vaardigheden, het meest waarschijnlijke proximale probleem bij dyslectici, kunnen wel getraind worden, net als vaardigheden die compensatiemogelijkheden op kunnen leveren.

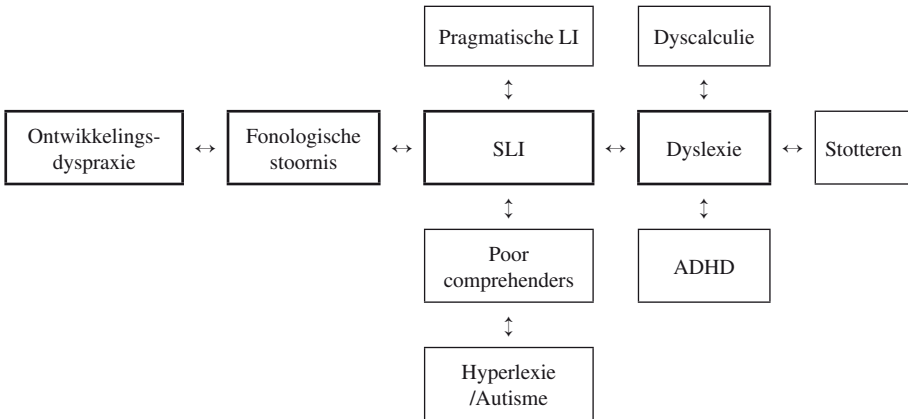
Maassen et al stellen zelf voor hun toekomstonderzoek voor om neurale netwerkmodellen te gebruiken in het onderzoek naar SOD. Dit is zeker een waardevol instrument om meer inzicht te krijgen in probleemgebieden bij ontwikkelingsstoornissen. Het is minder tijds- en kostenintensief dan een langlopend onderzoek naar de ontwikkelingsprofielen die leiden tot SOD. Helaas kan dit type onderzoek ook maar een fractie van de complexe werkelijkheid aan. In de ontwikkeling van een kind spelen gradaties van veel verschillende risico- en compensatiefactoren een rol. Door te kijken naar één of meerdere deelgebieden wordt de interactie met andere factoren niet duidelijk en is de generaliseerbaarheid naar de echte stoornispopulatie beperkt. Bovendien is het moeilijk om in een netwerksimulatie complexe factoren die een rol spelen bij dyslexie, zoals leesinstructie (wel of niet, slaat het aan, en hoe vindt het plaats) of de thuissituatie (stimuleren van lezen of niet, andere stressfactoren) mee te nemen.

Co-morbiditeit van stoornissen

Op het moment dat we aannemen dat het concept van modulariteit in ontwikkelingsstoornissen losgelaten moet worden en dat er door gradaties van risico('s) en interacties tussen domeinen weinig 'zuivere' gevallen van een stoornis zijn, dan wordt het ook duidelijk dat een overlap tussen verschillende stoornissen niet alleen mogelijk, maar ook waarschijnlijk is. In het artikel verwijzen Maassen et al. naar de problemen die ontstaan als spraakdyspraxie onderscheiden moet worden van een fonologische stoornis (FS; fonologische vertraging of een spraakstoornis). Ook wordt FS in verband gebracht met SLI. SOD kan co-morbide zijn met FS en FS kan co-morbide zijn met SLI.

Een vraag is of co-morbide stoornissen niet beter samengevoegd kunnen worden, als kinderen met twee verschillende stoornissen dezelfde problemen lijken te vertonen. Het antwoord hierop is nee.

Er is een ketting van stoornissen te bedenken op basis van co-morbiditeit (figuur 1). Dyslexie, bijvoorbeeld, kan co-morbide zijn met SLI, maar ook met stotteren, ADHD en dyscalculie. SLI kan weer co-morbide zijn met FS, maar ook met pragmatische taalstoornis en de diagnose van poor comprehender. Dit maakt duidelijk dat het onmogelijk is om alle stoornissen samen te voegen; er zijn te veel overlappen tussen te veel verschillende aandoeningen.



Figuur 1. De mogelijke overlap (co-morbiditeit) tussen enkele ontwikkelingsstoornissen zoals gerapporteerd in de literatuur (SLI: specifieke taalstoornis, Pragmatische LI: pragmatische taalstoornis, ADHD: Attention Deficit Hyperactivity Disorder).

Bovendien is het waarschijnlijk dat de stoornissen verschillende onderliggende oorzaken hebben. Samenvoeging van stoornissen is dan niet inzichtelijk en nuttig. Een voorbeeld uit het onderzoek naar dyslexie en SLI laat de verschuiving naar de aanname van verschillende onderliggende oorzaken zien. Tallal en collega's stelden voor dat kinderen met dyslexie en SLI als één groep gezien zouden moeten worden, een groep van 'language-learning impaired' kinderen (Tallal et al., 1997). Hun stelling was dat fonologische problemen de oorzaak zijn van zowel SLI als dyslexie. Zowel taal- als leesproblemen worden veroorzaakt door het fonologische probleem. SLI is in deze visie de zwaardere aandoening (taal- en leesproblemen) en dyslexie de mildere (alleen leesproblemen). Kort gezegd is er gehakt van deze stelling gemaakt in de recente literatuur. Niet alleen hebben niet alle kinderen met SLI leesproblemen, is er niet altijd een relatie tussen fonologische vaardigheden en andere taalvaardigheden, maar heeft recent onderzoek bovendien kwalitatieve verschillen aangetoond tussen populaties met dyslexie en SLI (bijvoorbeeld de Bree, 2007, de Bree & Wijnen, 2008, Marshall et al. ingediend, Rispen & Been, 2007). De vraag is nu of dyslexie en SLI een gedeelde onderliggende risicofactor hebben, zwakke fonologische verwerking, of dat het aparte stoornissen zijn. Om dit uit te zoeken is gedetailleerd prospectief onderzoek nodig, waarin zowel kwantitatieve als kwalitatieve vergelijkingen tussen de groepen gemaakt worden (en liefst ook nog cross-linguïstisch met dezelfde selectiecriteria). Datzelfde lijkt ook te gelden voor SOD en FS (en elk ander paar stoornissen die co-morbide zijn).

Uiteindelijk zullen multidimensionale modellen nodig zijn om de stoornissen uit elkaar te houden. Voor dyslexie en SLI is bijvoorbeeld een continuüm van fonologische problemen en een continuüm van taalvaardigheden essentieel, voor dyslexie en ADHD is dat een continuüm van fonologie en een van aandacht (executive functio-

ning), terwijl voor het uit elkaar houden SOD en FS misschien continua van fonologische en motorische vaardigheden cruciaal zullen blijken te zijn.

De notie van co-morbiditeit suggereert dus dat alle ontwikkelingsstoornissen uiteindelijk op zoek zijn naar een onderliggend probleem of onderliggende problemen. Dit geldt ook voor SOD, ook al stellen Maassen et al dat SOD een stoornis is op zoek naar een populatie (p.9). Deze zoektocht betekent dat er dus nog heel veel werk aan de winkel is.

Samenvattend kan gesteld worden dat in het huidige onderzoek de notie van een modulaire (taal)stoornis achterhaald is en dat het noodzakelijk is om langlopend onderzoek te doen naar onderliggende problemen van een ontwikkelingsstoornis. Uiteindelijk kan dit leiden tot nieuwe modellen van stoornissen en hun relaties met andere stoornissen. Het punt dat het meest naar voren is gekomen, is echter dat het nog een ingewikkelde klus gaat worden om dit voor elkaar te krijgen.

Bibliografie

- de Bree, E. (2007). *Dyslexia and Phonology: A study of the phonological abilities of Dutch children at-risk of dyslexia*. Utrecht: LOT dissertatie 155.
- de Bree, E. & Wijnen, F. (2008). Nonwoordrepetitie en leesvaardigheid in kinderen met een risico voor dyslexie en kinderen met een taalstoornis (SLI). *Stem-, Spraak- en Taalpathologie*, 16, 124-134.
- Marshall, C.R., Ramus, F., Rosen, S., Tang, S. & van der Lely, H.K.J. (Ingediend). Deficits in segmental phonology: A heterogeneous picture for SLI and dyslexia.
- Rispens, J. (2004). *Syntactic and phonological processing in developmental dyslexia*. Dissertatie, Universiteit van Groningen.
- Rispens, J. & Been, P. (2007). Subject-verb agreement and phonological processing in developmental dyslexia and specific language impairment (SLI): A closer look. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 42, 293-305.
- Scarborough, H.S. (1990). Very early language deficits in dyslexic children. *Child Development*, 61, 1728-1743.
- Snowling, M.J., Gallagher, A. & Frith, U. (2003). Family risk of dyslexia is continuous: Individual differences in the precursors of reading skill. *Child Development*, 74, 358-373.
- Snowling, M.J., Muter, V. & Carroll, J. (2007). Children at family risk of dyslexia: A follow-up in early adolescence. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 48, 609-618.
- Tallal, P., Allard, L., Miller, S. & Curtiss, S. (1997). Academic outcomes of language impaired children. In C. Hulme and M. Snowling (eds.) *Dyslexia: Biology, cognition, and intervention*. London: Whurr, 167-181.
- Vicari, S., Marotta, L., Menghini, D., Molinari, M. & Petrosini, L. (2003). Implicit learning deficit in children with developmental dyslexia. *Neuropsychologia* 41, 108-114.