

Nawoord bij Klinisch Forum Spraakontwikkelingsdyspraxie (SOD)

Ben Maassen

Uit de reacties op ons artikel blijkt dat er meerdere invalshoeken zijn om de zeer boeiende problematiek van spraakstoornissen bij kinderen te benaderen. De discussie en de verschillen van inzicht geven in de eerste plaats aan dat er op alle beschrijvingsniveaus nog geen overeenstemming bestaat over de terminologie. Niet alleen bestaat er geen overeenstemming over de klinische definitie van dyspraxie en ontwikkelingsdyspraxie, maar ook niet over meer basale concepten. Wat bedoelen we met: module, vaardigheid, stoornis, probleem, diagnose?

Figuur 1. Niveau's van onderliggende oorzaken van ontwikkelingsstoornissen. (bewerkt naar Bishop & Snowling, 2004)

Verwerkingsniveau, en de begrippen stoornis, vaardigheid, module.

Wat betreft terminologie is het cruciaal dat expliciet duidelijk wordt gemaakt welk verwerkingsniveau wordt aangeduid. In Maassen e.a. geven we aan dat er wat dat betreft een onderscheid is tussen SLI en SOD. SLI is een stoornis gedefinieerd op gedragsniveau, waarvan het onderliggend psycholinguïstische defect (cognitief niveau) onbekend is. Daarentegen zijn de stoornissen AOS en SOD gedefinieerd op psycholinguïstisch-motorisch (cognitief) niveau, te weten een defect in de omzetting van een fonologische representatie naar articulatie-bewegingen, waarbij discussie

bestaat over het gedragsniveau, te weten de differentiaal-diagnostische kenmerken. Vandaar de opmerking van McNeil: “AOS is a disorder in search of a population”. Voor SOD komt daar in vergelijking met AOS het probleem bij dat we weinig weten over de status en de kwaliteit van fonologische representaties bij jonge kinderen. Er zijn aanwijzingen dat de eerste woord-achtige uitingen van kinderen, onmiddellijk aansluitend op de brabbelfase, worden gegenereerd vanuit een directe koppeling tussen betekenis en spraakmotorisch patroon (Nittrouer, Studdert-Kennedy & Neely, 1996). Indien het zo is dat bij kinderen als gevolg van SOD het fonologisch systeem relatief gebrekkig is (cognitief niveau), dan kunnen op gedragsniveau symptomen worden verwacht die men bij een volwassene zou interpreteren als verwijzend naar zowel spraakmotorische als fonologische tekorten. Dit compliceert het vinden van differentiaal diagnostische kenmerken, en heeft met name consequenties voor het hanteren van uitsluitingscriteria bij de diagnose SOD.

Welke beschrijvingsniveaus zijn relevant voor de diagnostiek en verklaring van dyslexie, door Elise de Bree in haar commentaar onder het voetlicht gebracht. Volgens de SDN 2008 dienen we in het klinisch gebruik van ‘dyslexie’ onderscheid te maken tussen de onderkende, verklarende en indicerende diagnose. De SDN hecht eraan de onderkende diagnose uitsluitend te baseren op gedragsbeschrijving:

“Dyslexie is een stoornis die gekenmerkt wordt door een hardnekkig probleem met het aanleren en/of vlot toepassen van het lezen en/of het spellen op woordniveau.”

Noot: In deze korte definitie worden de concepten ‘aanleren en .. toepassen’ gebruikt, die cognitieve mechanismen aanduiden. In de toelichting wordt echter een heldere gedragsmatige operationalisatie van deze begrippen gegeven.

De verklarende diagnose heeft betrekking op tekorten in de cognitieve mechanismen die aan het leren en spellen ten grondslag liggen. De belangrijkste daarvan zijn: verminderd vermogen om associaties tussen schrifttekens en spraakklanken te leren en de automatisering van het oproepen van deze associaties. Andere onderliggende tekorten zijn gebrekkige verwerking van fonologische informatie, gebrekkig fonemisch bewustzijn en verbaal kortetermijngeheugen, en vertraagde lexicale toegang, zich uitend in trage benoemselheid.

De paragraaf ‘Een blik buiten en binnen modules’ van de Bree haalt een aantal overwegingen naar voren, die niet altijd nauwkeurig te plaatsen zijn in het hierboven geschetste kader. De Bree spreekt onder andere van de ‘module’ leesvaardigheid, terwijl leesvaardigheid een gedragsbeschrijving is, waaraan meerdere stappen in de cognitieve informatie-verwerking ten grondslag liggen, die mogelijk ‘modules’ kunnen worden genoemd. Door deze wat slordige definitie roept zij het probleem van de taakzuiverheid voor een belangrijk deel over zich af; zo bestaat de vaardigheid non-woord repetitie (NRT) inderdaad uit meerdere stappen, waarvan sommige mogelijk voldoen aan de definitie van module.

Noot: Fodor (1983) geeft drie definiërende kenmerken van module. (1) specifieke input en output, (2) dwingend en automatisch verlopend, d.w.z. geen aandacht vragend, en (3) 'encapsulated': niet open voor introspectie, niet beïnvloedbaar door parallel verlopende processen.

Aan de andere kant haalt de Bree wel een zeer belangwekkend methodologisch punt naar voren: Hoe kunnen we afzonderlijke stappen in de informatieverwerking meten, en defecten in deze stappen diagnosticeren? McNeil argumenteerde dat de in de klinische praktijk gehanteerde spraakmetingen ter diagnosticering van AOS en fonologische spraakstoornissen bij volwassenen onvoldoende differentiatie bieden. Deze constatering lijkt voor SOD eveneens van toepassing, en lijkt alleszins gerelateerd aan het feit dat spraakproductie door een keten van onderliggende processen wordt bepaald (lexicale toegang, fonologische encoding, spraakmotorische processen en auditieve monitoring). Er is duidelijk behoefte aan nauwkeuriger meting en inventieve experimentatie.

Twee wegen staan hier m.i. open. De eerste is verdere verbetering en verfijning van de in de klinische praktijk veelduldig gehanteerde neuropsychologische profiel analyse, bestaande uit analyse van verschil in prestaties op diverse taken ter interpretatie van het onderliggend defect. Zo kunnen op basis van het (relatieve) verschil tussen prestaties op de woord en non-woord repetitie taak uitspraken worden gedaan over de kwaliteit van de lexicale toegang. Immers, een spreker bij wie de woordimitatie nauwelijks beter is dan de non-woordimitatie ondervindt kennelijk geringe ondersteuning in deze taak van lexicale toegang, mogelijk omdat dit een relatief zwak proces is. Deze methode heeft neuropsychologen en taal-spraakpathologen veel inzichten opgeleverd en is nog lang niet uitgeput. Er is verfijning mogelijk wat betreft de spraakmetingen (akoestisch, kinematisch) en uitbreiding wat betreft brain imaging. Brain imaging levert vooral een bijdrage aan de cognitieve wetenschappen omdat het een rijk palet van observaties levert die differentiatie in cognitieve processen kunnen laten zien die bij gedragsmetingen verborgen blijven. Een goed voorbeeld daarvan is de hogere activatie van rechts-parietale en links-frontale gebieden op fMRI tijdens het leesproces bij dyslectici vergeleken met gemiddelde lezers op volwassen leeftijd (Pugh, 2001). Het niveau van leesprestatie (gedragsmeting) kan gering zijn door compenserende processen, de hersen-activiteit laat zien dat het leesproces kwalitatief anders verloopt.

De tweede weg die we voor ogen zien om de relatie tussen op gedragsniveau gediagnosticeerde stoornis (dyslexie, spraakdyspraxie) en onderliggend defect op te sporen, is computationeel modelleren. Een model van een stoornis in de zin van afwijkend gedrag (traag lezen, slecht onverstaanbaar spreken) bestaat uit specificatie van de stappen in informatie-verwerking die worden doorlopen en de defecten die zich daarbij voordien (resp. vertraagde klank-letterkoppeling en insufficiënte omzetting van foneem naar spraakbeweging). Met computationeel modelleren wordt het mogelijk te toetsen of het onderliggende defect inderdaad het symptoom veroorzaakt dat we – wellicht op goede klinische gronden – hadden verondersteld. De hypothese omtrent het onderliggende defect wordt daarmee direct falsificeerbaar. Minstens zo belangrijk

is het toetsen of het onderliggende defect ook andere symptomen veroorzaakt. Weismer (2009) geeft het voorbeeld van traag spreektempo bij spraakmotorische stoornissen: differentiaal diagnostisch van gering belang omdat dit kenmerk bij vrijwel alle spraakmotorische stoornissen voorkomt, maar voor het begrip van onderliggende mechanismen mogelijk cruciaal. Gaat het om ontwikkelingsstoornissen dan is een lange termijn perspectief van belang. In Maassen e.a. werken we met computationeel modelleren het voorbeeld uit dat een onderliggend defect in de feedforward/feedback mechanismen, die in de vroege ontwikkeling tot uiting kunnen komen in de vorm van verminderd brabbelen, leidt tot de typische kenmerken van SOD in het stadium waarin het kind nieuwe woorden leert. Computationeel modelleren legt relaties tussen onderliggende defecten en symptomen bloot, die op het eerste gezicht mogelijk niet inzichtelijk zijn. Volgende stappen in deze lijn van onderzoek zijn gericht op de fonologische en lexicale ontwikkeling bij SOD.

In hun reactie hanteren Beers en Frijns een klinische invalshoek. Deze auteurs illustreren met een casusbeschrijving het belang van inzicht in achtergronden van spraakproductieproblemen voor de klinische praktijk. Bij casus M, een jongen van 4;2 jaar met zeer onverstaanbare spraak ligt de vraag voor of de spraakafwijkingen fonologisch danwel meer motorisch van aard zijn. Beers en Frijns constateren dat M de coronale klanken in minder dan 50% correct produceert, en concluderen daaruit dat in de onderliggende fonologische representaties van M deze klanken niet gespecificeerd zijn. Omdat M de coronale klanken consequent als dorsale klanken realiseert, leiden de auteurs af dat M een fonologische regel toepast ('backing') waarbij deze coronale klanken worden gespecificeerd als dorsaal. Vervolgens stellen de auteurs dat deze conclusie alleen gerechtvaardigd is als er geen problemen zijn met de tussenliggend niveaus, d.w.z. dat M in staat is coronale klanken te produceren.

Een impliciete veronderstelling die aan deze gedachtegang ten grondslag ligt stellen we hier aan de orde, omdat deze goed aangeeft waar de clinicus in de praktijk mee worstelt en wat de boodschap van ons artikel is.

De kern van mijn commentaar op bovenstaande gedachtegang betreft het impliciete onderscheid tussen een fonologisch en spraakmotorisch niveau. Dit komt tot uiting in het van toepassing verklaren van de regel 'backing'. Backing veronderstelt dat er een representatie is die ge-'backt' kan worden. In deze definitie speelt de doeluiting duidelijk een rol, want we spreken wel van 'backing' als een kind "doek" uitspreekt als "koek", maar niet als het "koek" uitspreekt als "koek". Indien de initiale coronale consonant niet gespecificeerd is, kan de vraag worden gesteld of de initiale dorsale klank wel gespecificeerd is. Misschien spreekt het kind alle initiale consonanten als dorsaal uit als uiting van het ontbreken in de onderliggende representatie van het onderscheid tussen coronaal en dorsaal, en heeft het feit dat het kind voor deze dorsale oplossing kiest i.p.v. de omgekeerde oplossing ('fronting' of in extreme vorm hottentottisme) een motorische oorzaak of is er sprake van gewoontevorming. Indien het fonologisch regelsysteem nog zwak ontwikkeld is, waardoor tijdens het fonologisch productie-

proces het kenmerk plaats van articulatie niet of niet voldoende sterk gespecificeerd wordt, zou het kunnen zijn dat het motorisch onvermogen om coronale klanken te produceren tot resultaat heeft dat alle consonanten als dorsaal worden gerealiseerd. De auteurs gebruiken de mondmotorische problemen die M heeft met het produceren van coronale klanken als evidentie tegen de fonologische verklaring, daarmee uitdrukkend dat niet kan worden beslist of het onderliggende probleem fonologisch of spraakmotorisch van aard is. Het onderliggende defect kan bij M niet worden gespecificeerd, omdat het consequent produceren van dorsalen voor coronalen van zowel op fonologisch als op spraakmotorisch niveau zou kunnen ontstaan.

Bovenstaande redenering is zo complex geworden, omdat die gebaseerd op de veronderstelling dat bij de spraakproductie van M twee onderscheiden productieniveaus betrokken zijn: fonologische en spraakmotorische planning (en uitvoering). In Maassen e.a. stellen we juist deze veronderstelling ter discussie, op basis van het ontwikkelingsgegeven dat in de vroege spraakontwikkeling een klankrepresentatie uit een auditief en senso-motorisch patroon bestaat. Nittrouer e.a. hebben laten zien dat spraakklanken niet het begin, maar het resultaat zijn van spraakmotorische ontwikkeling.

De auteurs gaan aan de hand van voorbeelden van afwijkingen in de spraakproductie bij kinderen met doofheid (CI) en schisis in op de complexiteit van de interactie tussen de verschillende onderdelen van het spraakproductieproces. Deze voorbeelden laten duidelijk zien dat de auditieve waarneming en de anatomie van de spraakorganen niet alleen bepalend zijn voor de kwaliteit van de spraakproductie, maar ook een grote rol spelen in de fonologische ontwikkeling. Ook de visuele waarneming heeft grote invloed, vooral in gevallen waar de auditieve waarneming vermindert is. Verder blijkt uit het korte literatuuroverzicht en eigen onderzoek van de auteurs, dat afwijkende patronen tijdens de vroege brabbelfase ook gevonden worden in het volgende stadium van spraakontwikkeling waarin het kind woorden en meerwoord-uitingen produceert. We onderschrijven dan ook graag de conclusie dat de perifere auditieve en spraakmotorische problemen bij ernstige slechthorendheid en bij schisis een effect hebben op het fonologisch systeem in ontwikkeling. Differentiaaldiagnostiek is inderdaad essentieel, opgevat als het achterhalen van de cognitieve en biologische factoren in de ontwikkeling die ten grondslag liggen aan de op gedragsniveau beschreven spraakafwijkingen of -symptomen. Uit de klinische praktijk weten we dat er meerdere mogelijke oorzaken zijn voor een bepaald symptomen-complex op een bepaalde leeftijd, en dat vergelijkbare stoornissen tot verschillende symptomen kunnen leiden -afhankelijk van co-morbiditeit en contextuele factoren. Inderdaad, voorlopig nog voldoende werk aan de winkel.

Het commentaar van Kuijpers stelt terecht dat een niet-modulaire visie geen antwoord geeft op de klinische vraag naar differentiaal diagnostiek. In de eerste plaats stelt Kuijpers aan de orde hoe de aanname dat er bij ontwikkelingsstoornissen zoals SOD

geen sprake kan zijn van selectieve dysfuncties, zich verhoudt tot hypothesen aangaande de onderliggende stoornis en kenmerkende symptomen. Daarmee slaat ze de spijker op zijn kop: bij ontwikkelingsstoornissen is het toeschrijven van symptomen aan een specifiek verwerkingsniveau twijfelachtig. De reden is, dat een bepaalde dysfunctie kan leiden tot tekorten in andere functies die in hun ontwikkeling afhankelijk zijn van de specifieke dysfunctie. Juist om deze reden kunnen bij kinderen met een specifieke spraakmotorische stoornis tekorten in de fonologische en lexicale ontwikkeling ontstaan, die maken dat het symptomencomplex wisselend is over de leeftijd of het stadium van taal- en spraakontwikkeling. Ook tekorten in ritmische structuur van woorden en in fonologische vaardigheden kunnen het gevolg zijn een selectieve spraakmotorische dysfunctie. De differentiaal diagnose van spraakmotorische stoornis enerzijds en primaire stoornis in de ontwikkeling van fonologie en woordenschat anderzijds, wordt door deze onderlinge afhankelijkheden in de ontwikkeling ernstig bemoeilijkt.

Precies om deze reden gaven we een overzicht van onderzoek waarin op alle niveaus, van het lexicale ophaalproces tot aan de motorische uitvoering tekorten zijn aangetoond bij kinderen met SOD. Uit deze multiple tekorten concluderen dat er evenzovele oorzaken van SOD zouden bestaan, lijkt niet terecht. Indien we vanuit ontwikkelingsperspectief een theoretische verklaring kunnen vinden voor al deze tekorten op basis van één onderliggend spraakmotorisch defect, draagt dat enorm bij aan het inzicht in SOD. Het klinisch handelen heeft niet alleen tot doel de onderliggende dysfunctie te diagnosticeren, maar ook de tekorten in de spraak- en taalontwikkeling als gevolg daarvan in kaart te brengen. Daarom is voor het klinisch handelen brede diagnostiek van alle bijkomende tekorten in de spraakproductie bij deze kinderen van groot belang.

De suggestie met betrekking tot response to intervention (RTI) nemen we graag ter harte. Indien het zo is dat het in een diagnostische momentopname geconstateerde profiel van spraakafwijkingen geen eenduidige classificerende diagnose oplevert, kan de mate waarin een bepaalde behandeling aanslaat zeer verhelderend zijn. Met betrekking tot SOD is hierover in de literatuur enige evidentie. De evidentie betreft resistentie voor therapie: ondanks herhaalde oefening veel minder vorderingen dan bij kinderen met spraakmoeilijkheden van andere origine. Behandelingen volgens Metaphon of Hodson en Paden hebben tot doel dat het kind fonologische contrasten verwerft en streven er vervolgens naar dat het kind een nieuw verworven contrast consistent spraakmotorisch realiseert. Typerend voor motorische vaardigheden is dat het verwerven ervan veel herhaling vergt. Indien een kind een bepaald fonologisch contrast in het fonologisch systeem heeft opgenomen, en hiervan blijk geeft bijvoorbeeld door correcte auditieve discriminatie en identificatie, en door correcte productie in bepaalde konteksten, maar bij herhaalde productie en variatie van konteksten inconsistente producties realiseert, kan dat een aanwijzing zijn voor een dysfunctie op spraakmotorisch niveau. Het behandelresultaat levert in een dergelijk geval een bij-

drage aan de differentiaal diagnostiek. Belangrijk om op te merken is, dat vanuit ontwikkelingsperspectief te verwachten is dat de specifieke problematiek van een kind met een spraakstoornis kan wijzigen. Het vraagt veel flexibiliteit van de behandelaar om hierop in te spelen en de behandeling aan te passen aan het ontwikkelingsstadium.

Hiermee keren we terug naar het hanteren van een computationeel model. In ons artikel vergelijken we het computationeel modelleren van SOD met de eerdere poging van Max & Guenther stotteren te modelleren op basis van de veronderstelling dat stotterfenomenen worden veroorzaakt door overdreven reactie op kleine afwijkingen in de spraak. Hypercorrectie van fouten ontdekt door de interne monitor als oorzaak van stotteren geeft een verklaring niet alleen voor meerdere stotterfenomenen, maar bovendien voor de werkzaamheid van stotterreducerende condities zoals auditieve maskering van de eigen spraak door ruis. Gefundeerde suggesties voor diagnostiek of behandeling van SOD op basis van de neurale ruis hypothese zijn nog niet te geven, maar speculatieve suggesties wel. Eén daarvan is multi-modale aanpak: tracht de te verwerven bewegingspatronen in zoveel mogelijk modaliteiten gerepresenteerd te krijgen. Volgens het DIVA-model is de spraakmotorische controle multimodaal, waarbij de feedforward commando's on-line worden gecontroleerd en gecorrigeerd op basis van tactiele, kinesthetische en auditieve feedback. Dit betekent dat het effect van neurale ruis in één van deze systemen, bijvoorbeeld in de feedforward controle, geringer is dan zonder deze controle-mechanismen. Omdat het totale systeem niet sequentieel, maar parallel geschakeld is, is ook het effect van een bepaalde proportionele toename van de neurale ruis in alle subsystemen kleiner dan het geval zou zijn bij uni-modale aansturing.

Het toetsen van het DIVA model als model van SOD vereist een longitudinaal onderzoek van de spraakontwikkeling bij kinderen met spraakstoornissen. Zoals op diverse plaatsen geconstateerd: er is nog veel werk aan de winkel.

Literatuur

- Nittrouer, S., Studdert-Kennedy, M. & Neely, S. T. (1996). How children learn to organize their speech gestures: Further evidence from fricative-vowel syllables. *J.Speech.Hear.Res.* 39 (2):379-389.
- Pugh, K.R., Mencl, W. E., Jenner, A. R., Katz, L., Frost, S. J., Lee, J. R., Shaywitz, S. E., & Shaywitz, B. A. (2001). Neurobiological studies of reading and reading disability. *J.Commun. Disord.* 34:479-492.
- Weismer, G. (2009). Classification and Taxonomy of Motor Speech Disorders: What are the Issues? To appear in: Maassen, B. & van Lieshout, P.H.H.M. (Eds.): *Speech Motor Control: New Developments in Basica and Applied Research*. Oxford University Press, in press.