

# De spraakproductie van kinderen met een genetisch risico op dyslexie: de fonologische en spraakmotorische vaardigheden op een leeftijd van 41 maanden

Patricia Gulpen<sup>1</sup>, Ben Maassen<sup>2</sup>

<sup>1</sup>*Universitair Medisch Centrum St. Radboud Nijmegen, Klinische Neurofysiologie (KNF) & Kinderneurologie (IKNC)*

<sup>2</sup>*Universitair Medisch Centrum St. Radboud Nijmegen, Medische psychologie*

Voor dyslectici is het een groot probleem dat de lees- en spellingsmoeilijkheden meestal worden gediagnosticeerd als de negatieve gevolgen zich al hebben aangediend. In de huidige studie werd onderzocht of reeds op een leeftijd van 41 maanden verschillen bestaan in de spraakproductie tussen kinderen met een genetisch risico op dyslexie en kinderen zonder een genetisch risico op dyslexie. Gevonden verschillen zouden als indicatoren kunnen worden gebruikt voor de vroegtijdige signalering van dyslexie. In totaal negen risico en tien controle kinderen werden onderzocht met een Benoemtaak en Nazegtaak (woorden en non-woorden). De verbale reacties van de kinderen werden fonetisch getranscribeerd. Vervolgens werden de geproduceerde fonemen en syllabestructuren geteld (onafhankelijke analyse) en vergeleken met de doeluitingen (relationele analyse). Samenvattend waren in beide groepen dezelfde ontwikkelingsstendensen zichtbaar. Er werden geen significante verschillen gevonden in de fonologische en spraakmotorische vaardigheden tussen de risico en controle kinderen. Bij de Nazegtaak was wel een tendens te zien, dat controle kinderen meer profijt ondervonden van de lexicale status van een woord dan risico kinderen. Mogelijke verklaringen hiervoor zijn minder efficiënte woordrepresentaties in het mentale lexicon en/of problemen bij het samenstellen van spraakmotorische programma's vanuit nieuwe fonologische codes bij kinderen met een genetisch risico op dyslexie.

## Inleiding

Ongeveer negen procent van de Nederlandse kinderen ondervindt op de basisschool problemen met het leren lezen en spellen. Bij een deel van deze kinderen (3,6 % van

de populatie) zijn de problemen niet toe te schrijven aan zintuiglijke of emotionele stoornissen, een onderwijsachterstand of te een lage intelligentie. In dergelijke gevallen is er sprake van een specifiek lees- en spellingsprobleem en wordt de term dyslexie gebruikt (Blomert, 2003). Voor dyslectici is het een groot probleem dat de lees- en spellingsmoeilijkheden vaak pas laat in de basisschoolperiode worden onderkend. Negatieve gevolgen op cognitief, emotioneel en sociaal gebied zijn dan meestal niet meer te voorkomen. Momenteel is er echter nog onvoldoende kennis over de onderliggende oorzaak van dyslexie en over indicatoren in de vroege ontwikkeling, die als voorspeller voor latere lees- en spellingsmoeilijkheden kunnen dienen. Dit was de reden voor de Nederlandse organisatie voor Wetenschappelijk Onderzoek (NWO) om in 1999 het landelijke multidisciplinaire dyslexieonderzoek 'Identifying the core features of dyslexia' op te starten. In dit onderzoek worden ruim 200 kinderen met een genetisch risico op dyslexie (risico kinderen) en ruim 100 kinderen zonder een genetisch risico op dyslexie (controle kinderen) gevolgd vanaf de leeftijd van 2 maanden tot 10 jaar. Een belangrijk deel van het onderzoek bestaat uit elektrofysiologische metingen bij visuele en auditieve paradigma's. Daarnaast wordt op de locatie Nijmegen de vroege spraakontwikkeling van de kinderen vanaf een leeftijd van 23 maanden tot 53 maanden in kaart gebracht. In dit artikel worden de resultaten gepresenteerd van de studie naar de fonologische en spraakmotorische ontwikkeling van kinderen met een genetisch risico op dyslexie en kinderen zonder een genetisch risico op dyslexie op een leeftijd van 41 maanden.

Uit de literatuur volgt dat een vertraagde spraak- en taalontwikkeling op jonge leeftijd het risico op latere lees- en spellingsproblemen vergroot (o.a. Catts, 1993, Habib, 2000). Nathan et al. (2004) volgden 47 kleuters met spraakproblemen tot een leeftijd van 7 jaar en concludeerden dat vooral kinderen met ernstige en hardnekkige spraakproblemen in combinatie met een beperkt fonologisch bewustzijn een verhoogd risico hebben om ook lees- en spellingsproblemen te krijgen. Deze bevindingen suggeren dat spraak- en taalproblemen meer dan gemiddeld voorkomen bij dyslectici. De problemen met de spraakproductie worden veroorzaakt door één of meerdere defecten in het taal- en spraakproductieproces. De aanwezigheid van een fonologisch defect wordt algemeen als één van de kernproblemen van dyslexie gezien; de fonologische representaties en/of fonologische processen zijn gestoord (Ramus, 2001). Zowel uit simulatie-experimenten met een connectionistisch computermodel (Harm & Seidenberg, 1999) als uit gedragsmatig onderzoek (Elbro et al., 1998) blijkt dat de kwaliteit van de fonologische representaties een belangrijke rol speelt tijdens de lees- en spellingsontwikkeling. Onvoldoende gespecificeerde fonologische representaties bemoeilijken de opbouw van verbindingen tussen fonemen en grafemen en kunnen leiden tot lees- en spellingmoeilijkheden. Daarnaast zijn voldoende gespecificeerde fonologische representaties een noodzakelijke voorwaarde om te komen tot een goede uitspraak. De oorzaak voor de verminderde kwaliteit van de fonologische representaties kan gelegen zijn in afwijkende fonologische processen aan de inputkant (spraakperceptie) (Tallal et al., 1997; Mody et al., 1997), aan de outputkant (spraakproductie) (Carroll & Snowling, 2004; Carroll et al., 2003; Webster et al., 1997) of in het fonolo-

logische werkgeheugen (De Bree et al., 2004; Gathercole & Baddeley, 1990; Ramus, 2001).

Naast een fonologisch defect wijzen een aantal onderzoeksresultaten op de aanwezigheid van een defect in de spraakplanning en de spraakmotorische uitvoering bij dyslectici. Tijdens de spraakplanning worden de fonologische woordvormen omgezet in motorische programma's voor de spraakuitvoering. Bij bekende woorden kunnen delen van het spraakmotorische programma worden opgehaald uit het mentale lexicon (lange termijn geheugen). Voor onbekende woorden en non-woorden moeten geheel nieuwe programma's worden samengesteld. In een volgende stap worden deze spraakmotorische programma's vertaald in spiercommando's, die worden doorgegeven aan het uitvoerapparaat (Levelt, Roelofs & Meyer, 1999). In het vervolg zullen de spraakplanning en de spraakmotorische uitvoering samen worden genomen onder de term spraakmotorische vaardigheden. De spraakmotorische problemen van dyslectici zijn meestal mild van aard en worden pas zichtbaar bij een verhoging van het spreektempo, zoals bij een Maximum Repetition Rate Task (Fawcett & Nicolson, 2002), of als dyslectici worden geconfronteerd met woorden waarvoor geen mentale representaties voorhanden zijn (Stackhouse & Wells, 1997). Dit laatste wordt ondersteund door een onderzoek van Snowling (1981). Zij vergeleek 13 dyslectische kinderen, met een gemiddelde leeftijd van 12;0 jaar en een gemiddelde leesleeftijd van 7;11 jaar, met 13 niet-dyslectische kinderen gematched op leesleeftijd en met een gemiddelde leeftijd van 8;4 jaar. De kinderen moesten 30 woorden en 30 non-woorden nazeggen, die overeenstemden qua moeilijkheidsgraad. Hoewel beide groepen kinderen gelijk presteerden tijdens het nazeggen van bestaande woorden, hadden de dyslectische kinderen relatief meer moeite met het nazeggen van de non-woorden. Blijkbaar hebben dyslectische kinderen moeite met het opstellen van spraakmotorische programma's voor woorden, die geen representatie hebben in het mentale lexicon.

Uit het voorafgaande blijkt dat de dyslectici zowel problemen ondervinden op fonologisch als op spraakmotorisch gebied. De vraag rijst of deze problemen ook al aantoonbaar zijn in de vroege spraakproductie van dyslectische kinderen, zodat de bijbehorende symptomen als vroege indicatoren voor dyslexie kunnen dienen. Het doel van de huidige studie was dan ook te onderzoeken of er sprake is van een verschil in fonologische en/of spraakmotorische vaardigheden bij kinderen met een genetisch risico op dyslexie (risicogroep) en kinderen zonder een genetisch risico op dyslexie (controlegroep) op een leeftijd van 41 maanden.

Voor het onderzoeken van de fonologische vaardigheden werd een Benoemtaak gebruikt. Het repertoire aan geproduceerde fonemen en syllabestructuren en de vertoonde fonologische vereenvoudigingen in de spraakoutput werden in kaart gebracht. Fonologische vereenvoudigingen zijn een normaal onderdeel van de fonologische ontwikkeling en dienen om de volwassentaal aan te passen aan de mogelijkheden van het kindstelsel. De aanpassingen kunnen betrekking hebben op de structuur van woorden (syllabestructuurprocessen) en op fonemen (substitutieprocessen) (Beers, 1995). De verwachting was dat de risico kinderen een beperkter repertoire aan geproduceerde fonemen en syllabestructuren zouden laten horen dan de controle kinderen.

Daarnaast werden ook verschillen verwacht in het aantal en de aard van de vertoonde fonologische vereenvoudigingen. Een vertraagde fonologische ontwikkeling van de risico kinderen zou leiden tot een groter aantal fonologische vereenvoudigingen, terwijl een afwijkende fonologische ontwikkeling vooral zichtbaar zou worden in de aard van de vertoonde fonologische vereenvoudigingen (Howell & Dean, 1998; Beers, 1995 & 2003; Stes, 1997). De spraakmotorische vaardigheden werden onderzocht door middel van een Nazegtaak van woorden en non-woorden. Aangezien dyslectici problemen hebben met het opstellen van spraakmotorische programma's, werd verwacht dat de risico kinderen relatief meer fouten zouden maken bij het nazeggen van de non-woorden ten opzichte van de bestaand woorden dan de controle kinderen (Dollaghan & Campbell, 1998; Snowling, 1981).

## **Methode van onderzoek**

### ***Proefpersonen***

De onderzochte kinderen waren allemaal afkomstig uit het Nijmeegse cohort van het landelijke dyslexieproject. Kinderen uit de risicogroep voldoen aan de voorwaarde dat één van de ouders en tenminste één familielid uit de eerste graad dyslectisch zijn. Deze kinderen hebben 40 à 50 % kans om ook als dyslectisch te worden gediagnosticeerd (Grigorenko, 2001). Kinderen uit de controlegroep hebben geen familieleden in de eerste graad met dyslexie. De proefpersonen in de huidige studie zijn zodanig geselecteerd dat ze, afgezien van een eventueel verhoogd risico op dyslexie, verder geen sensorische beperkingen (gehoor of visus), geen neurologische stoornis of ontwikkelingsstoornis hadden. Geen van de kinderen had een aantoonbaar spraak- of taalprobleem, zoals gerapporteerd door de ouders tijdens de meetmomenten. Alle kinderen hadden Nederlands als moedertaal en werden ééntalig opgevoed. De samenstelling van de onderzoekspopulatie was als volgt:

Tabel 1. Samenstelling totale onderzoekspopulatie.

<b>Onderzoeksgroep</b>	<b>Aantal meisjes</b>	<b>Aantal jongens</b>	<b>Totaal</b>
Risico groep	3	6	9
Controle groep	4	6	10

### ***Materiaal***

#### ***Benoemen van afbeeldingen***

Het doel van deze taak was het inventariseren van de fonologische vaardigheden. De itemlijst bestond uit 60 doelwoorden en was zodanig samengesteld dat elke klank, klankcombinatie, syllabestructuur of soort fonologisch vereenvoudiging minstens vijf keer kon voorkomen in de uitingen van het kind. Alle doelwoorden behoorden tot de productieve woordenschat van kinderen met een leeftijd van 41 maanden, zodat spontane productie mogelijk was. Het uitgangspunt voor deze Benoemtaak vormde het

‘Assessment of Phonological Processes Revised’ (APP-R) (Hodson & Paden, 1991). Dit fonologische articulatieonderzoek, vertaald in het Nederlands door van de Wijer-Muris en Draaisma (2000), is bruikbaar voor het onderzoeken van de fonologische vaardigheden van kinderen in de voorschoolse leeftijd en van geretardeerde en/of apractische volwassenen (Hodson & Paden, 1991). Voor het huidige onderzoek werd de woordenlijst van het APP-R aangevuld met zeven meerlettergrepige woorden en drie woorden met een prevocale nasaal. De toegevoegde woorden waren afkomstig uit de N-CDI, Lijsten voor Communicatieve Ontwikkeling van Woorden en Zinnen (Zink, Leaegere & Lembrechts, 2002) en werden alle door 80 % of meer van de kinderen van 30 maanden actief gebruikt. Voor het uitlokken van de doelwoorden werden gekleurde tekeningen, foto’s en concreet materiaal gebruikt.

#### *Nazeggen van bestaande woorden en non-woorden*

De Nazegtaak werd gebruikt om de spraakmotorische vaardigheden te onderzoeken en bestond uit 12 woordparen, waarvan 2 oefenparen en 10 testparen. Een woordpaar bestond uit een bestaand woord en een non-woord met een gelijke fonologische complexiteit (syllabestructuur en articulatiwijze) en klemtoonpatroon. De non-woorden waren fonotactisch en prosodisch toegestaan in het Nederlands. De 12 bestaande woorden waren allemaal afkomstig uit de itemlijst van de spreektaak ‘Benoemen van afbeeldingen’. Aangezien deze woorden bekend zijn bij kinderen met een leeftijd van 41 maanden, mocht worden aangenomen dat deze een representatie hebben in het mentale lexicon (Levelt et al, 1999; Stackhouse & Wells, 1997). Daarentegen correspondeerden noch de non-woorden, noch hun samenstellende lettergrepen met bestaande lexicale items. De woordparen varieerden onderling in het aantal lettergrepen (mono-, di- en trisyllaben) en de plaats van de klemtoon. Om een plafondeffect te voorkomen, werden in enkele woordparen ook clusters opgenomen.

### **Procedure**

#### *Algemeen*

De spraakmeting duurde gemiddeld een half uur. Na een korte inleiding volgden achtereenvolgens het benoemen van afbeeldingen, het nazeggen van bestaande woorden en het nazeggen van non-woorden. Alle metingen, met uitzondering van één, vonden plaats in dezelfde testkamer en vóór afname van het EEG-onderzoek. De ouders waren niet aanwezig in de testkamer. Tijdens elke meting zijn audio-opnamen gemaakt. Voor het opnemen van de spraaksignalen is een minidisk (SHARP, MD-MS722H) gebruikt. De microfoon (SONY, ECM-MS907) werd op ca. 30 cm afstand van het kind opgesteld, met een opnamehoek van 120 graden. Over de werktafel werd een fleece-deken gelegd, zodat geluidsecho enigszins werd gedempt.

#### *Benoemen van afbeeldingen*

De afbeeldingen en voorwerpen die benoemd moesten worden, waren verzameld in een testboekje. De kinderen kregen de opdracht om in eigen tempo te vertellen wat ze in het boekje zagen. Indien een kind de afbeelding niet spontaan kon benoemen of

een afwijkende respons gaf, werd een semantische cue gegeven in de vorm van een aanvulzin. Als het kind het doelwoord vervolgens nog niet kon benoemen, werd de beginklank van het woord voorgezegd (fonologische cue). Tenslotte kon een woord nog worden voorgezegd. De bijbehorende afbeelding werd vervolgens, met twee items tussenpauze, nogmaals aangeboden.

#### *Nazeggen van bestaande en niet-bestaande woorden*

Het nazeggen van (non-)woorden doet een beroep op meerdere processen, zoals het verwerken van de auditieve stimuli, het decoderen en recoderen van de foneemreeks, het vormen van spraakmotorische programma's, de motorische uitvoering en het vasthouden van verbale informatie in het auditieve korte termijn geheugen (Catts, 1986; Plaza, Cohen & Chevrie-Muller, 2002; Snowling, 1981; Stackhouse & Wells, 1997). Binnen de huidige studie werd de Nazegtaak gebruikt om de *spraakproductie* te onderzoeken. Door directe imitatie, een verlaging van het spreektempo en het geven van visuele ondersteuning tijdens het aanbieden van de items, werden eventuele verschillen in de input- en geheugenvaardigheden tussen de kinderen zoveel mogelijk opgevangen. Aan het kind werd gevraagd goed te luisteren naar de (non-)woorden die de proefleider zei en deze zo nauwkeurig mogelijk na te zeggen. Een metronoom werd gebruikt om het spreektempo van de proefleider tijdens het aanbieden van de items vast te stellen op 2 syllaben per seconde. Daarnaast zorgde de proefleider ervoor dat het kind ook de bijbehorende mondbeelden zag.

#### **Transcriptie**

De spraakopnames werden met behulp van het hard- en softwarepakket CSL, Model 4300B (Kay Elemetrics Corporation) ingelezen in een PC en opgeslagen in NSP-formaat. De sampling rate bedroeg 22.050 Hz. De uitingen werden vervolgens fonetisch getranscribeerd en ingevoerd in het softwareprogramma Logical International Phonetic Program (LIPP). Voor het beluisteren van de spraakopnames werd een Beyerdynamics hoofdtelefoon type DT 231 gebruikt.

Het spraakmateriaal werd breed, ofwel fonematisch, getranscribeerd. Elke spraakopname werd eerst door twee transcribenten afzonderlijk getranscribeerd. Beide transcribenten hanteerden dezelfde richtlijnen en theoretische uitgangspunten, zoals vastgelegd in een transcriptieprotocol. Vervolgens werd in overleg een consensus-transcriptie opgesteld. Het werken volgens een consensusmethode en een brede transcriptiewijze vergroot de betrouwbaarheid en validiteit van de transcripties (Shriberg & Lof, 1991; Stoel-Gammon, 2001; Thoonen, Maassen, Gabreëls & Schreuder, 1994). Om de waarde van de gehanteerde transcriptiemethode te bepalen, werd de 'point-to-point reliability' tussen beide transcribenten vóór het bereiken van de consensus-transcripties bepaald. Voor beide spreektaken bedroeg de overeenstemming tussen de transcribenten meer dan 85 %. In de literatuur wordt een 'point-to-point reliability' van 60-80 % voor transcripties van kinderspraak als acceptabel beschouwd (Cucchiari, 1996; Shriberg & Lof, 1991).

*Data-analyse*

Na het transcriberen werden de geproduceerde fonemen en syllabestructuren geteld (onafhankelijke analyse) en vergeleken met de doeluitingen (relationele analyse). LIPP biedt de mogelijkheid om deze analyses automatisch uit te voeren voor de distinctieve kenmerken van de fonemen, de syllabestructuur en de woordstructuur.

*Onafhankelijk analyse*

Het doel van de onafhankelijke analyse was om een inventarisatie te maken van de geproduceerde fonemen en syllabestructuren. Hiervoor werden de responsie van de spreektaak 'Benoemen van afbeeldingen' gebruikt, ongeacht de correctheid van deze uitingen. Alleen uitingen die spontaan of met behulp van een cue werden uitgelokt werden geanalyseerd. Imitaties werden niet meegenomen, omdat deze leiden tot betere producties en een vertekend beeld geven van de mogelijkheden van het kind (Winitz, 1969).

De inventarisatie op foneemniveau was gebaseerd op het complexiteitsmodel van Beers (1995). Dit model omvat vijf niveaus ofwel Levels en kan worden gebruikt om de verwervingsgraad van het Nederlands contraststelsel in syllabe-initiale positie te bepalen. Aangezien niet alle Nederlandse consonanten in het complexiteitsmodel van Beers kunnen worden geplaatst, werd een restcategorie toegevoegd. Per onderzoeksgroep werden de proporties geproduceerde consonanten per Level (Levelp) berekend. Hiertoe werd het aantal geproduceerde syllabe-initiale consonanten per Level gedeeld door het totale aantal geproduceerde syllabe-initiale consonanten.

Voor de inventarisatie op syllabestructuurniveau werd per onderzoeksgroep het aantal producties per syllabestructuur bepaald. Vervolgens werden de absolute aantallen omgerekend naar proporties (bijvoorbeeld CVCP) door deze te delen door het totale aantal geproduceerde syllaben.

*Relationele analyse*

Bij de relationele analyse werden de door de kinderen geproduceerde uitingen vergeleken met de doeluitingen. Het doel was tweedelig: ten eerste het in kaart brengen van de vertoonde fonologische vereenvoudigingen (fonologische procesanalyse) en ten tweede het bestuderen van de spraakmotorische vaardigheden.

Voor de fonologische procesanalyse werden de responsie van de Benoemtaak vergeleken met de doeluitingen. De mate van correcte productie werd uitgedrukt in de variabele 'Standaard Correct Ratio' (SCR). Deze variabele geeft aan hoe foutgevoelig een bepaald foneem of syllabestructuur is en is gebaseerd op de veronderstelling dat de correcte producties naar rato van voorkomen zijn verdeeld over de totale spraakproductie. De SCR werd berekend door de geobserveerde proportie correcte producties (aantal correcte producties per Level of syllabestructuur gedeeld door het totale aantal correcte producties) te delen door de verwachte proportie correcte producties (aantal producties per Level of syllabestructuur gedeeld door het totale aantal geproduceerde fonemen of syllabestructuren). Concreet moeten SCR-waarden als volgt worden geïnterpreteerd; hoe hoger de SCR, hoe vaker de betreffende eenheid correct werd gepro-

duceerd in verhouding tot de totale spraakproductie. SCR-waarden werden bepaald voor elk Level van het complexiteitsmodel (foneemniveau) en voor de meest voorkomende syllabestructuren, namelijk CV, CVC en CVCC (syllabestructuurniveau).

Het tweede onderdeel van de fonologische procesanalyse was gericht op de aard van de vertoonde fonologische vereenvoudigingen. De uitspraakfouten werden verdeeld in typische en atypische fonologische vereenvoudigingen (Beers, 1995). Vervolgens werden, zowel op foneemniveau als op syllabestructuurniveau, proporties van voorkomen berekend. Hiertoe werd het totale aantal typische of atypische fonologische vereenvoudigingen gedeeld door het totale aantal fonologische vereenvoudigingen.

Voor het onderzoeken van de spraakmotorische vaardigheden zijn de prestaties van de kinderen op de spreektaak 'Nazeggen van bestaande en niet-bestaande woorden' gebruikt. Per onderzoeksgroep is een vergelijking gemaakt tussen het aantal correcte producties tijdens het nazeggen van bestaande woorden enerzijds en het nazeggen van non-woorden anderzijds. Per onderzoeksgroep werden de proporties correct geproduceerde consonanten, fonemen, syllabestructuren, clusters en klemtoonpatronen voor beide stimulussoorten berekend.

## Resultaten

### *Fonologische vaardigheden*

De spreektaak 'Benoemen van afbeeldingen' werd gebruikt om de fonologische vaardigheden te onderzoeken. Tabel 2 laat zien hoeveel uitingen spontaan, met behulp van een fonologische cue of door imitatie zijn uitgelokt.

De resultaten in figuur 1 laten zien dat de verschillen in foneemrepertoire *tussen* de risico- en controlegroep minimaal waren. De kinderen uit de risicogroep produceerden een iets grotere proportie consonanten op de minder complexe Levels 1 en 2. Statistische toetsing (T-toets voor ongepaarde waarnemingen,  $\alpha = 0.05$ , observed power Level 1 = 0.15, Level 2 = 0.23, Level 3 = 0.09, Level 4 = 0.08, Level 5 = 0.05) duidde echter niet op de aanwezigheid van significante verschillen *tussen* de beide onderzoeksgroepen.

Tabel 2. Soorten response tijdens de spreektaak 'Benoemen van afbeeldingen'.

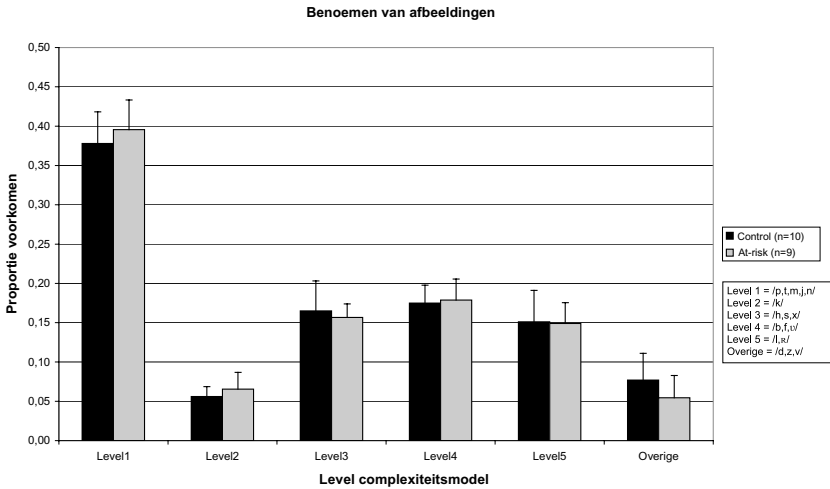
	Spontaan benoemen	Fonologische cue	Imitatie
Controle groep (n = 10)	471 (79 %)	45 (8 %)	79 (13 %)
Risico groep (n = 9)	445 (82 %)	57 (11 %)	39 (7 %)

### *Syllabestructuurrepertoire*

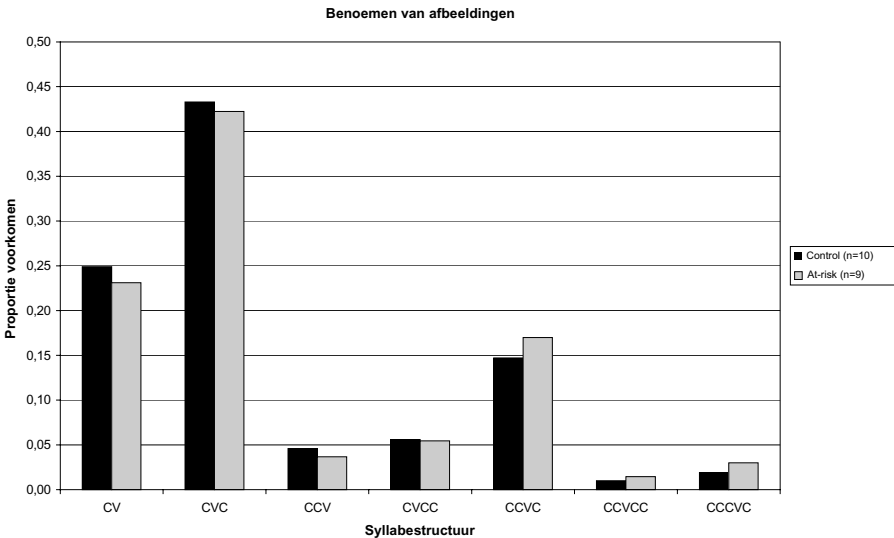
In figuur 2 staan de resultaten vermeld van de syllabestructuurinventarisatie. De volgorde waarin de syllabestructuren worden gepresenteerd, komt overeen met de verwervingsvolgorde van syllabestructuren zoals beschreven door Levelt, Schiller & Levelt (1999).



*Foneemrepertoire*



Figuur 1. Proportie geproduceerde syllabe-initiale consonanten per Level t.o.v. het totale aantal geproduceerde syllabe-initiale consonanten. De lengte van de staven geeft de gemiddelde proportie weer en de lengte van de ‘antennes’ de mate van spreiding.



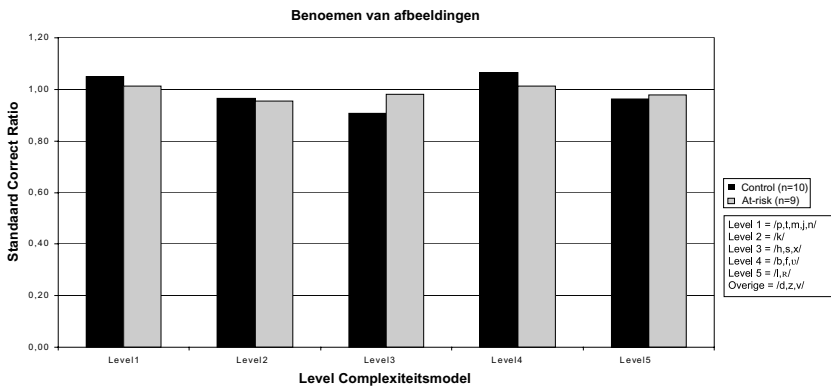
Figuur 2. Proportie geproduceerde syllaben per syllabestructuur ten opzichte van het totale aantal geproduceerde syllaben. De lengte van de staven geeft de gemiddelde proportie weer en de lengtes van de ‘antennes’ de mate van spreiding.

*Tussen* de onderzoeksgroepen bestonden kleine verschillen in de omvang van de proporties. De kinderen uit de controlegroep produceerden relatief meer ‘eenvoudigere’ syllabestructuren (CV, CVC en CCV) en de kinderen uit de risicogroep produceerden relatief meer ‘complexere’ syllabestructuren (CCVC, CCVCC en CCCVC). Statistische toetsing (T-toets voor ongepaarde waarnemingen,  $\alpha = 0.05$ , observed power CV-structuur = 0.27, CVC-structuur = 0.09) leverde echter alleen voor de CCVC-structuur een significant verschil *tussen* de groepen op ( $t(17) = , p < 0.05$ ).

#### *Fonologische vereenvoudigingen, foneemniveau*

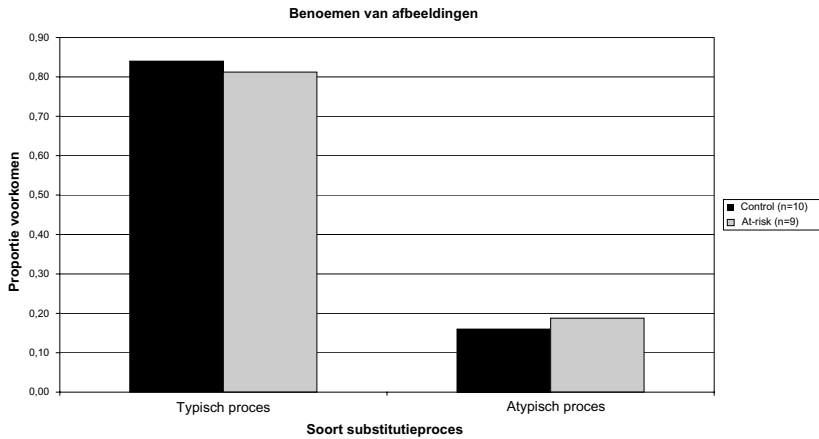
In figuur 3 staan de resultaten vermeld van de fonologische procesanalyse op foneemniveau. Ter herinnering; hoe groter de SCR-waarde, hoe vaker de betreffende consonanten correct werden geproduceerd in verhouding tot de totale spraakproductie.

In figuur 3 zijn slechts kleine verschillen te zien tussen beide onderzoeksgroepen. De SCR's voor de Levels 1 en 4 hadden binnen de controlegroep een hogere waarde dan binnen de risicogroep. Voor de SCR van Level 3 gold het tegenovergestelde. De verschillen *tussen* de onderzoeksgroepen waren echter niet significant, zoals bleek uit statistische toetsing (T-toets voor ongepaarde waarnemingen,  $\alpha = 0.05$ , observed power Level 1 = 0.35, observed power Level 2 = 0.05, observed power Level 3 = 0.14, observed power Level 4 = 0.18, observed power Level 5 = 0.05). De consonanten van de verschillende Levels waren in beide onderzoeksgroepen in gelijke mate foutengevoelig.



Figuur 3. Proportie correct geproduceerde initiale consonanten per Level, uitgedrukt in SCR, tijdens de spreektaak ‘Benoemen van afbeeldingen’.

Figuur 4 toont de resultaten van de analyse met betrekking tot het soort vertoonde fonologische vereenvoudigingen op foneemniveau, ofwel substitutieprocessen.



Figuur 4. Proportie substituties per processoot (typisch of atypisch) ten opzichte van het totale aantal substituties, tijdens de spreektaak 'Benoemen van afbeeldingen'.

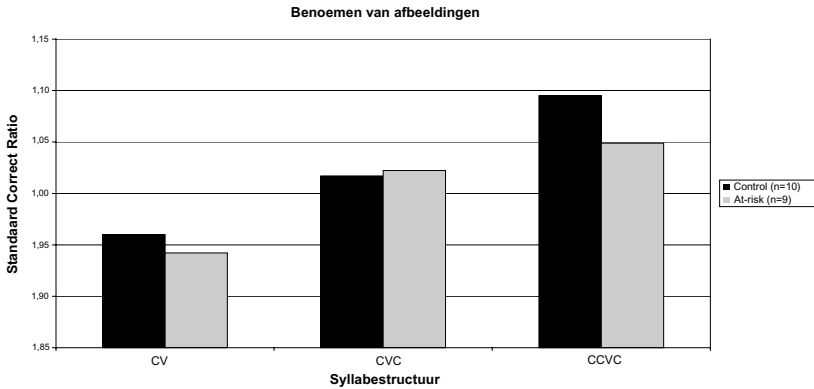
*Binnen* beide onderzoeksgroepen kwamen meer typische dan atypische substitutieprocessen voor. Statistische toetsing van verschillen *binnen* de groepen, met behulp van een Chi-kwadraat Toets, leverde voor beide onderzoeksgroepen een significant resultaat op (Risicogroep: Chi-Square(1) = 29.897,  $p < 0.05$ ; Controlegroep: Chi-Square(1) = 29.453,  $p < 0.05$ ). Zowel *binnen* de risico- als *binnen* de controlegroep kwamen significant meer typische dan atypische substitutieprocessen voor. *Tussen* de onderzoeksgroepen was er nauwelijks een verschil in de verdeling van typische en atypische substitutieprocessen. Statistische toetsing (T-toets voor ongepaarde waarnemingen,  $\alpha = 0.05$ , observed power Typische processen = 0.06, Atypische processen = 0.06) wees dan ook niet op de aanwezigheid van significante verschillen *tussen* de groepen.

#### *Fonologische vereenvoudigingen, syllabestructuurniveau*

Figuur 5 toont de resultaten van de analyse met betrekking tot het soort vertoonde fonologische vereenvoudigingen op syllabestructuurniveau, ofwel syllabestructuurprocessen. Alleen de syllabestructuren die meer dan vijf keer in het targetmateriaal voorkwamen, staan vermeld.

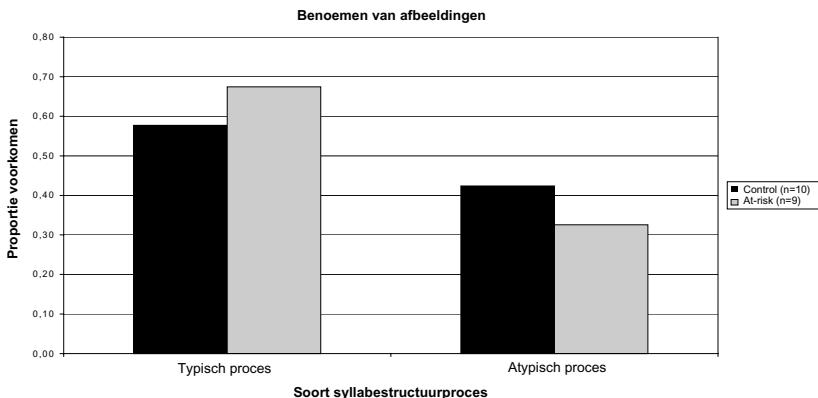
De SCR's voor de CV- en CCVC-structuur waren hoger binnen de controlegroep, terwijl de SCR voor de CV-structuur net een fractie hoger was binnen de risicogroep. Deze verschillen *tussen* de onderzoeksgroepen waren echter niet significant, zoals bleek uit statistische toetsing (T-toets voor ongepaarde waarnemingen,  $\alpha = 0.05$ , observed power CV-structuur = 0.07, observed power CVC-structuur = 0.06, observed power CCVC-structuur = 0.12). De CV-, CVC- en CCVC-structuur waren in beide onderzoeksgroepen in gelijke mate foutengevoelig.

Net zoals de substitutieprocessen werden ook de syllabestructuurprocessen onderverdeeld in typische en atypische procesfouten.



Figuur 5. Proportie correct geproduceerde syllaben per syllabestructuur, uitgedrukt in SCR, tijdens de spreektaak 'Benoemen van afbeeldingen'.

Zowel de risico als de controle kinderen leken meer typische dan atypische syllabestructuurprocessen te vertonen. Het toetsen van deze verschillen leverde alleen *binnen* de risicogroep een significant resultaat op ( $\text{Chi-square}(1) = 8.667, \alpha < 0.05$ ). Dus alleen *binnen* de risicogroep was er sprake van een significant verschil tussen de proporties typische en atypische syllabestructuurprocessen. Het verschil *binnen* de controlegroep was niet significant ( $\text{Chi-kwadraat Toets}, \alpha = 0.05$ ). Het verschil in de verdeling tussen typische en atypische syllabestructuurprocessen *tussen* de onderzoeksgroepen bleek na statistische toetsing ook niet significant te zijn (T-toets voor ongepaarde waarnemingen,  $\alpha = 0.05$ , observed power = 0.16).



Figuur 6. Proportie syllabestructuurprocessen per processsoort (typisch of atypisch) ten opzichte van het totale aantal syllabestructuurprocessen, tijdens de spreektaak 'Benoemen van afbeeldingen'.

### *Spraakmotorische vaardigheden*

In tabel 3 zijn voor beide onderzoeksgroepen de proporties correct geproduceerde consonanten en syllabestructuren per stimulussoort (bestaande woorden en non-woorden) genoteerd.

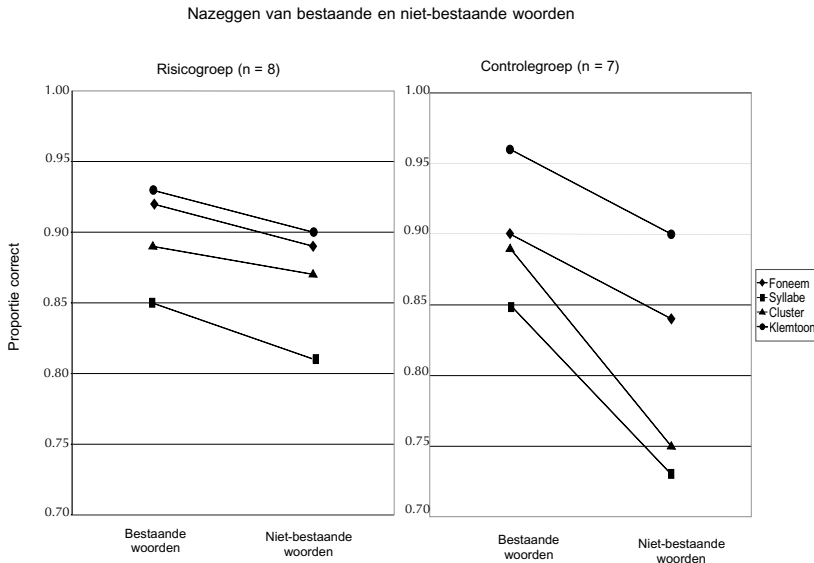
In tabel 3 is te zien dat kinderen uit beide onderzoeksgroepen meer correcte consonanten en syllabestructuren produceerden tijdens het nazeggen van bestaande woorden dan tijdens het nazeggen van non-woorden. Echter, statistische toetsing (T-test voor gepaarde waarnemingen,  $\alpha = 0.05$ , observed power CCtot R-groep = 0.24, CCtot C-groep = 0.29, SSCtot R-groep = 0.49, SSCtot C-groep = 0.08) duidde, zowel *binnen* de risico als *binnen* de controlegroep, niet op de aanwezigheid van significante verschillen tussen beide stimulussoorten. Met andere woorden; de kinderen uit beide onderzoeksgroepen produceerden niet significant meer correcte consonanten en syllabestructuren tijdens het nazeggen van bestaande woorden dan tijdens het nazeggen van non-woorden.

Tabel 3. Proportie correcte producties op foneem- en syllabestructuurniveau. Tussen haakjes staan de standaarddeviaties vermeld.

	<b>Stimulussoort</b>	<b>CCtot</b>	<b>SSCtot</b>
Risico groep (n = 8)	Nazeggen bestaande woorden	0.918 (0.028)	0.850 (0.125)
	Nazeggen non-woorden	0.883 (0.059)	0.811 (0.082)
Controle groep (n = 7)	Nazeggen bestaande woorden	0.891 (0.036)	0.890 (0.129)
	Nazeggen non-woorden	0.835 (0.097)	0.728 (0.134)

Figuur 7 geeft inzicht in de verschillen *tussen* de onderzoeksgroepen. In de linker grafiek staan de resultaten voor de risicogroep vermeld en in de rechter figuur de resultaten voor de controlegroep.

Voor beide onderzoeksgroepen gold dat de proporties correct geproduceerde foneemen, syllabestructuren, clusters en klemtoonpatronen groter waren tijdens het nazeggen van bestaande woorden dan tijdens het nazeggen van non-woorden. Maar, de lijnen in de linker grafiek verlopen steiler dan de lijnen de rechter grafiek. Dit wijst erop dat het verschil in moeilijkheidsgraad van het nazeggen van non-woorden versus bestaande woorden groter was binnen de controlegroep dan binnen de risicogroep. Dit verschil in moeilijkheidsgraad bleek na statistische toetsing echter niet significant te zijn (T-toets voor ongepaarde waarnemingen,  $\alpha = 0.05$ , observed power Fpc = 0.80, Syllpc = 0.12, CCpc = 0.13, Upc = 0.08).



Figuur 7. Proportie correct geproduceerde fonemen, syllabestructuren, clusters en klemtoonpatronen door de tijdens het nazeggen van bestaande woorden en non-woorden.

## Discussie en conclusie

In de huidige studie werd onderzocht of reeds op een leeftijd van 41 maanden verschillen bestaan in de spraakproductie tussen kinderen met een genetisch risico op dyslexie en kinderen zonder een genetisch risico op dyslexie. Het is namelijk bekend dat een vertraagde spraak- en taalontwikkeling op jonge leeftijd het risico op het ontstaan van latere lees- en spellingsproblemen vergroot (Catts, 1993, Habib, 2000). Indien inderdaad verschillen gevonden kunnen worden, zouden deze, in aanvulling op andere risicofactoren, als indicatoren kunnen gaan dienen voor de vroegtijdige signalering van dyslexie.

De fonologische vaardigheden werden onderzocht door middel van een Benoemtaak. Aangezien een fonologisch defect algemeen als één van de kernproblemen van dyslexie wordt gezien (Ramus, 2001), werd verwacht dat de fonologische ontwikkeling van de risico kinderen anders zou verlopen dan die van de controle kinderen. In deze studie werden echter geen significante verschillen gevonden in de prestaties *tussen* de risico en controle kinderen. De beide onderzoeksgroepen verschilden niet van elkaar wat betreft het repertoire geproduceerde syllabe-initiale consonanten en syllabestructuren, het aantal substituties op foneem- en syllabestructuurniveau en de aard van vertoonde fonologische vereenvoudigingen. Hieruit volgt dat de kinderen met een genetisch risico op dyslexie en de kinderen zonder een genetisch risico op dyslexie zich in dezelfde fase van de fonologische ontwikkeling bevinden.

Voor het onderzoeken van de spraakmotorische vaardigheden werd een Nazegtaak gebruikt, waarbij de kinderen zowel bestaande woorden als non-woorden moesten nazeggen. De verwachting was dat de risico kinderen relatief meer moeite zouden hebben met het nazeggen van non-woorden dan de controle kinderen. Tijdens het nazeggen van non-woorden kan geen gebruik worden gemaakt van informatie uit het mentale lexicon voor het samenstellen van de spraakmotorische programma's. Er moet dan een extra beroep gedaan worden op de spraakplanning; een onderdeel van het spraak- en taalproductieproces, waarvan bekend is dat dyslectici er moeite mee kunnen hebben (Fawcett & Nicolson, 2002; Snowling, 1981; Stackhouse & Wells, 1997). De resultaten lieten zien dat kinderen uit beide onderzoeksgroepen meer fouten maakten tijdens het nazeggen van non-woorden dan tijdens het nazeggen van bestaande woorden. Deze bevinding werd ook gevonden door Snowling (1981). Het vergelijken van de prestaties *tussen* de risico- en controlegroep leverde een interessante tendens op. Het verschil in proportie correctie producties tussen het nazeggen van non-woorden en bestaande woorden was groter voor de controle kinderen dan voor de risico kinderen. Blijkbaar werden de controle kinderen meer geholpen door de lexicale status van een item dan de risico kinderen. Deze bevinding is echter tegenovergesteld aan de bevindingen uit het onderzoek van Snowling (1981), waarbij de risico kinderen relatief meer moeite ondervonden met het nazeggen van non-woorden ten opzichte van bestaande woorden dan de controle kinderen.

Een interessante vraag is nu waarom controle kinderen meer geholpen worden door de lexicale status van een item dan risico kinderen. Aangezien het vinden van een oorzaak voor eventuele verschillen niet het doel was van de huidige studie, kan deze vraag niet met zekerheid worden beantwoord. Toch is het interessant om hieronder een aantal mogelijke verklaringen te vermelden. Ten eerste kunnen risico en controle kinderen van elkaar verschillen met betrekking tot de kwaliteit van hun mentale lexicon. Indien mentale representaties minder volledig of minder efficiënt zijn opgeslagen, is de meerwaarde van het mentale lexicon voor het nazeggen van bestaande woorden in vergelijking met non-woorden beperkt. Een aantal onderzoekers, waaronder Elbro et al. (1998) en Swan & Goswami (1997), veronderstellen inderdaad een belangrijke rol voor de kwaliteit van de mentale (fonologische) representaties bij dyslexie.

Ten tweede kunnen de risico en controle kinderen ook verschillen in de vaardigheid om vanuit de fonologische code een spraakmotorisch programma samen te stellen. Bij het nazeggen van bekende woorden kan gebruik worden gemaakt van kennis in het mentale lexicon over de fonologische structuur en de bijbehorende motorische programma's. Deze kennis ontbreekt echter voor onbekende woorden. Bij het nazeggen van onbekende woorden moeten geheel nieuwe programma's worden samengesteld en wordt een groot beroep gedaan op de bijbehorende fonologische en spraakmotorische processen. Diverse onderzoeken ondersteunen de aanwezigheid van problemen met de fonologische processen aan de outputkant (Carroll & Snowling, 2004; Carroll et al., 2003; Webster et al., 1997) en de spraakmotorische processen (Fawcett & Nicolson, 2002; Snowling, 1981; Stackhouse & Wells, 1997) bij mensen met dyslexie.

Tenslotte kunnen de verkregen resultaten ook door de combinatie van minder efficiënte mentale representaties en afwijkende fonologische en spraakmotorische processen worden verklaard. Deze verklaring sluit goed aan bij de visie dat de verminderde kwaliteit van de mentale representaties veroorzaakt wordt door afwijkende fonologische processen aan de inputkant (spraakperceptie) (Tallal et al., 1997; Mody et al., 1997), aan de outputkant (spraakproductie) (Carroll & Snowling, 2004; Carroll et al., 2003; Webster et al., 1997) of in het fonologische werkgeheugen (De Bree et al., 2004; Gathercole & Baddeley, 1990; Ramus, 2001).

Zoals eerder vermeld, leverden de verzamelde data geen significante verschillen op in de fonologische en/of spraakmotorische vaardigheden *tussen* kinderen met en zonder een genetisch risico op dyslexie op een leeftijd van 41 maanden. Een aantal kritische noten dienen bij deze bevinding te worden vermeld. Ten eerste was de omvang van beide onderzoeksgroepen erg klein. De kans dat een aanwezig verschil tussen de onderzoeksgroepen inderdaad zou worden aangetoond (power) bedroeg gemiddeld 15 %. Binnen het wetenschappelijk onderzoek wordt meestal een minimale power van 80 % gehanteerd (Rietveld & van Hout, 2005). Ten tweede werd het beeld van de risicogroep vertroebeld door de 'niet-dyslectische' risico kinderen. Slechts 40 à 50 % van de kinderen uit de risicogroep zullen immers als dyslectisch gediagnosticeerd worden. Aangezien deze diagnose meestal rond een leeftijd van 7-8 jaar wordt gesteld (Wentink & Verhoeven, 2001), kunnen de onderzoeksgegevens ook dan pas definitief worden geïnterpreteerd. Ten derde kan het uitblijven van significante verschillen verband houden met de gehanteerde selectiecriteria voor de proefpersonen. Kinderen uit beide onderzoeksgroepen mochten geen aantoonbare spraak- en taalproblemen hebben. De spreektaken bleken overigens wel geschikt om te definiëren tussen kinderen met 'goede' en kinderen met 'minder goede' fonologische en/ of spraakmotorische vaardigheden. De verzamelde data lieten binnen beide onderzoeksgroepen een grote mate van spreiding zien, hetgeen een indruk geeft van de sensitiviteit van de spreektaken. Zowel tijdens de Benoemtaak als tijdens de Nazegtaak bleven plafond- of bodemeffecten uit. Kortom, het is dus mogelijk dat verschillen tussen de risico en controle kinderen pas zichtbaar worden bij een grotere groepsvergelijking en nadat bekend is welke risico kinderen inderdaad als dyslectisch worden gediagnosticeerd.

## Summary

Dyslexia is often recognized after the start of the acquisition of reading and writing. By that time however, many children already experience negative consequences of it. The main goal of this study was to look for differences with respect to phonological and/or speech motor skills between children with a genetic risk of dyslexia (at-risk) and children without this risk (control) aged 41 months. Differences could be used as early indicators of dyslexia. In total nine at-risk and ten control children were examined by use of a naming task and a (non-)word imitation task. Verbal responses were phonetically transcribed, such that speech sounds and syllable structures could be determined (independent analysis) and compared to the targets (relational analy-



sis). In summary, the same developmental tendencies were visible in both groups. The data provided no (significant) evidence that differences exist with respect to phonological and/or motor speech skills between both groups. However, the results of the imitation task indicated that control children profited more from the lexical status of a word than at-risk children. Possible explanations could be that at-risk children have less efficiently stored representations for words in their mental lexicon and difficulties in translating new phonological codes into speech-motor programs.

## Literatuur

- Beers, M. (1995). *The phonology of normally developing and language-impaired children* (Proefschrift Universiteit van Amsterdam). Amsterdam: IFOTT.
- Blomert, L. (2003). Stand van zaken, indicatiestelling en behandeling van kinderen met dyslexie (Rapportage Universiteit van Maastricht). In: R. Reij, *Dyslexie naar een vergoedingsregeling* (bijlage 1). Rapport uitgebracht aan de minister van Volksgezondheid, welzijn en sport. Amstelveen: college van zorgverzekeringen.
- Bree, E. de, Wilsenach, C., Gerrits, E. (2004). Fonologische verwerking en fonologisch werkgeheugen van kinderen met taalproblemen. *Stem-, Spraak- en Taalpathologie*, 12, 172-186.
- Carroll, J.M. & Snowling, M.J. (2004). Language and phonological skills in children at high risk of reading difficulties. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 45(3), 631-640.
- Carroll, J.M., Snowling, M.J. & Hulme, C. (2003). The development of phonological awareness in preschool children. *Developmental Psychology*, 39(5), 913-923.
- Catts, H.W. (1986). Speech production or phonological deficits in reading-disordered children. *Journal of Learning Disabilities*, 19(8), 504-8.
- Catts, H.W. (1993). The relationship between speech-language impairments and reading disabilities. *Journal of Speech and Hearing Research*, 36(5), 948-958.
- Cucchiari, C. (1996). Assessing transcription agreement: methodological aspects. *Clinical Linguistics and Phonetics*, 10(2), 131-155.
- Dollaghan, C. & Campbell, T.F. (1998). Nonword repetition and child language impairment. *Journal of Speech, Language and Hearing Research*, 41, 1136-1146.
- Elbro, C., Borstrom, I. & Peterson, D. (1998). Predicting dyslexia from kindergarten: The importance of distinctness of phonological representations. *Reading Research Quarterly*, 33, 36-60.
- Fawcett, A.J. & Nicolson, R.I. (2002). Children with dyslexia are slow to articulate a single speech gesture. *Dyslexia*, 8(4), 189-203.
- Gathercole, S. & Baddeley, A. (1990). Phonological memory deficits in language disordered children: Is there a causal connection? *Journal of Memory and Language*, 29, 336-390.
- Grigorenko, E. (2001). Developmental dyslexia: an update on genes, brains and environments. *Journal of Child Psychiatry and Psychology*, 42, 91-125.
- Gulpen, P. (2004). *De zoektocht naar vroege indicatoren voor ontwikkelingsdyslexie: de fonologische en spraakmotorische ontwikkeling bij kinderen met een genetisch risico op dyslexie op een leeftijd van 41 maanden*. Afstudeerscriptie Radboud Universiteit Nijmegen.
- Habib, M. (2000). The neurological basis of developmental dyslexia: an overview and working hypothesis. *Brain*, 123 Pt 12, 2373-2399.
- Harm, M. & Seidenberg, M. (1999). Phonology, reading and dyslexia: Insights from connectionist models. *Psychological Review*, 106, 491-528.

- Hodson, B. & Paden, E. (1991). *Targeting intelligible speech, a phonological approach to remediation*. San Diego: College Hill Press.
- Levelt, C.C., Schiller, N.O. & Levelt, W.J.M. (1999). A developmental grammar for syllable structure in the production of child language. *Brain and Language*, 68, 291-299.
- Levelt, W.J.M., Roelofs A. & Meyer, A.S. (1999). A theory of lexical access in speech production. *Behavioral and Brain Sciences*, 22, 1-75.
- Mody, M., Studdert-Kenney, M. & Brady, S. (1997). Speech perception deficits in poor readers: Auditory processing or phonological coding? *Journal of Experimental Child Psychology*, 64, 199-231.
- Nathan, L., Stackhouse, J., Goulandris, N. & Snowling, M.J. (2004). The development of early literacy skills among children with speech difficulties: a test of the 'Critical Age Hypothesis'. *Journal of Speech, Language and Hearing Research*, 47, 377-391.
- Plaza, M., Cohen, H., Chevrie-Muller, C. (2002). Oral language deficits in dyslexic children: weaknesses in working memory & verbal planning. *Brain and Cognition*, 48(2-3): 505-512.
- Ramus, F. (2003). Developmental dyslexia: specific phonological deficit or general sensimotor dysfunction? *Current Opinion in Neurobiology*, 13(2), 212-218.
- Rietveld, T. & van Hout, R. (2005). *Statistics in Language Research: Analysis of Variance*. Berlin: Gruyter Mouton.
- Shriberg, L.D. & Lof, G.L. (1991). Reliability studies in broad and narrow phonetic transcription. *Clinical Linguistics and Phonetics*, 5(3), 225-279.
- Snowling, M.J. (1981). Phonemic deficits in developmental dyslexia. *Psychological Research*, 43, 219-234.
- Stackhouse, J. & Wells, B. (1997). *Children's Speech and Literacy Difficulties, a psycholinguistic framework*. London: Whurr Publishers Ltd.
- Stes, R. (1997). *Articulatiestoornissen: Fenomenen, oorzaken en behandeling*. Leuven/Amersfoort: Uitgeverij Acco.
- Stoel-Gammon, C. (2001). Transcribing the speech of young children. *Topics in Language Disorders*, 21(4), 12-21.
- Swan, K. & Goswami, U. (1997). Phonological awareness deficits in developmental dyslexia and the phonological representations hypothesis. *Journal of Experimental Child Psychology*, 66, 18-41.
- Tallal, P., Miller, S.L., Jenkins, W.M. & Merzenich, M.M. (1997). The role of temporal processing in developmental language-based learning disorders: Research and clinical implications. In: B.A. Blachman (ed.), *Foundations of reading acquisition and dyslexia. Implications for early intervention*, 49-66. London etc.: Lawrence Erlbaum Associates.
- Thoonen, G., Maassen, B., Gabreëls, F. & Schreuder, R. (1994). Feature Analysis of Singleton Consonants Errors in Developmental Verbal Dyspraxia (DVD), *Journal of speech and Hearing Research*, 37, 1424-1440.
- Webster, P., Plante, A. & Couvillion, L. (1997). Phonologic impairment and prereading: update on a longitudinal study. *Journal of Learning Disabilities*, 30(4), 365-375.
- Wentink, H. & Verhoeven L. (2001). *Protocol Leesproblemen en Dyslexie*. Nijmegen: Expertise-centrum Nederlands.
- Wijer-Muris, van der I., Draaisma, Y. (2000). *Cursusreader 'Fonologische stoornissen'*, versie oktober 2000. Z.pl.
- Winitz, H. (1969). *Articulatory acquisition and behaviour*. New York: Appleton-Century Crofts.
- Zink, I. & Lejaegere, M. (2002). *N-CDIs: Lijsten voor communicatieve ontwikkeling: Aanpassing en hernormering van de MacArthur CDIs van Fenson et al.* Leuven/ Leusden: Uitgeverij Acco.