

Het diagnostisch instrument voor apraxie van de spraak

Testontwikkeling, betrouwbaarheid en differentiaaldiagnostisch vermogen

Leonore Meilof¹, Tineke den Exter², Roel Jonkers³, Judith Feiken⁴

¹*Isala Klinieken te Zwolle;* ²*Heliomare Revalidatie, Wijk aan Zee;*

³*Afdeling Taalwetenschap, Rijksuniversiteit Groningen;*

⁴*Centrum voor Revalidatie- UMCG, locatie Beatrixoord, Haren*

Samenvatting

Momenteel is er geen gestandaardiseerd en genormeerd testinstrument voor de diagnose van apraxie van de spraak bij volwassenen voorhanden. De differentiaaldiagnose tussen apraxie van de spraak en andere neurogene stoornissen is dan ook uiterst complex. Een goede diagnosestelling is echter essentieel voor het bepalen van de inhoud van de therapie van apraxie van de spraak. Om de stoornis in de toekomst te kunnen diagnosticeren en differentiëren van overige neurogene stoornissen is gestart met de ontwikkeling van het Diagnostisch Instrument voor Apraxie van de Spraak (DIAS). Het DIAS beoogt de aard en de ernst van apraxie van de spraak te onderzoeken op basis van in de literatuur beschreven differentiaaldiagnostische kenmerken. In het onderhavige onderzoek presenteren we de resultaten van een eerste onderzoek naar het (differentiaal)diagnostische vermogen en de betrouwbaarheid van het DIAS. Hiertoe zijn data geanalyseerd van achttien patiënten. Dit waren patiënten met apraxie van de spraak, conductie-afasie of atactische dysartrie. Uit de resultaten blijkt dat onder meer de DIAS-subtesten ‘buccofaciale apraxie’ en ‘diadochokinese’, evenals de score voor ‘het aantal initiatieproblemen’ een goede interbeoordelaarsbetrouwbaarheid behalen. Daarnaast blijkt uit het test-hertestbetrouwbaarheidsonderzoek, waarbij de scores op twee testmomenten met elkaar vergeleken zijn, dat de resultaten op het DIAS redelijk stabiel zijn. Verder blijken de drie genoemde subtesten evenals ‘de totale inconsistentiescore’ differentiërend te zijn tussen de bovengenoemde stoornissen. Deze uitkomsten bieden interessante aanknopingspunten voor de verdere ontwikkeling van het DIAS, evenals voor verder onderzoek naar de precieze aard en kenmerken van apraxie van de spraak.

Summary

Currently there is no standardised diagnostic instrument available for the diagnosis of apraxia of speech. This complicates the differential diagnosis between apraxia of speech and other neurogenic language or speech disorders. To meet the need for a test instrument for the diagnosis and differentiation of apraxia of speech we developed the Diagnostic Instrument for Apraxia of Speech (DIAS). The DIAS aims to determine the nature and severity of apraxia of speech by examining several characteristics that the literature describes as differential between this disorder and other neurogenic disorders.

The present study examined the diagnostic power and reliability of the DIAS. Data of eighteen patients with apraxia of speech, conduction aphasia or atactic dysarthria were analysed. Results indicated that the DIAS-subtests 'buccofacial apraxia' and 'diadochokinesis' as well as the scores on 'initiation difficulties' were characterised by a high inter-rater reliability. The evaluation of the test-retest reliability indicated that most scores on the DIAS were stable at two moments in time. The results also indicated that the three variables mentioned before and the score 'total inconsistency' are differential between these disorders. The results of this study provide interesting leads for the further development of the DIAS as well as for further research on the understanding of apraxia of speech.

Inleiding

De afgelopen jaren is er veel onderzoek gedaan naar de kenmerken en onderliggende oorzaken van apraxie van de spraak¹. Er worden veel uiteenlopende kenmerken met de stoornis in verband gebracht. Toch heerst er geen overeenstemming over de definitie van apraxie van de spraak en worden de beschreven kenmerken door onderzoekers op verschillende manieren verklaard. Dit gebrek aan consensus over onder andere de differentiaaldiagnostische kenmerken van apraxie van de spraak vormt waarschijnlijk een belangrijke oorzaak voor het vrijwel ontbreken van gestandaardiseerde en genormeerde tests voor het diagnosticeren van de stoornis (Mumby, Bowen en Hesketh, 2007; Feiken, Hofstede en Jonkers, 2008).

Apraxie van de spraak gaat vaak gepaard met andere stoornissen, zoals dysartrie, afasie en/of buccofaciale apraxie. De differentiaaldiagnose tussen apraxie van de spraak en deze stoornissen is tot op heden complex gebleken en gebeurt vaak door met behulp van diagnostische instrumenten voor afasie en dysartrie deze stoornissen uit te sluiten en kenmerken van apraxie van de spraak te observeren (Den Ouden,

¹ In dit artikel gaat het om apraxie van de spraak bij volwassenen. Dat wat beschreven wordt geldt niet zonder meer ook voor kinderen met apraxie van de spraak.

2002; Hofstede, 2006). Het gebrek aan een diagnostisch instrument is een van de aanleidingen geweest voor de start van het project 'Apraxie van de spraak' in het Centrum voor Revalidatie UMCG, locatie Beatrixoord. In het kader van dit project wordt er in samenwerking met de Rijksuniversiteit Groningen gewerkt aan de ontwikkeling van een test. Dit Diagnostisch Instrument voor Apraxie van de Spraak (DIAS) beoogt de aard en de ernst van apraxie van de spraak te meten op basis van in de literatuur beschreven differentiaaldiagnostische kenmerken.

Ter voorbereiding op een grootschalig normeringsonderzoek is het onderhavige onderzoek uitgevoerd. Het onderzoek heeft bijgedragen aan de ontwikkeling van het DIAS door de psychometrische eigenschappen van de huidige testversie te onderzoeken. Ten eerste zijn de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid en test-hertestbetrouwbaarheid van het DIAS onderzocht. De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid geeft een indicatie of de scoringsregels van het DIAS duidelijk zijn. De test-hertestbetrouwbaarheid is onderzocht om te bepalen in hoeverre de resultaten van patiënten op het DIAS stabiel zijn. Daarnaast is er onderzoek gedaan naar het (differentiaal)diagnostische vermogen van het DIAS en de mogelijkheid tot ernstbepaling. Hierbij is onderzocht of het DIAS in staat is om te differentiëren tussen apraxie van de spraak en overige neurogene stoornissen door te beoordelen of de data van patiënten met apraxie van de spraak, patiënten met atactische dysartrie en patiënten met conductie-afasie significante verschillen vertonen op de testonderdelen van het DIAS.

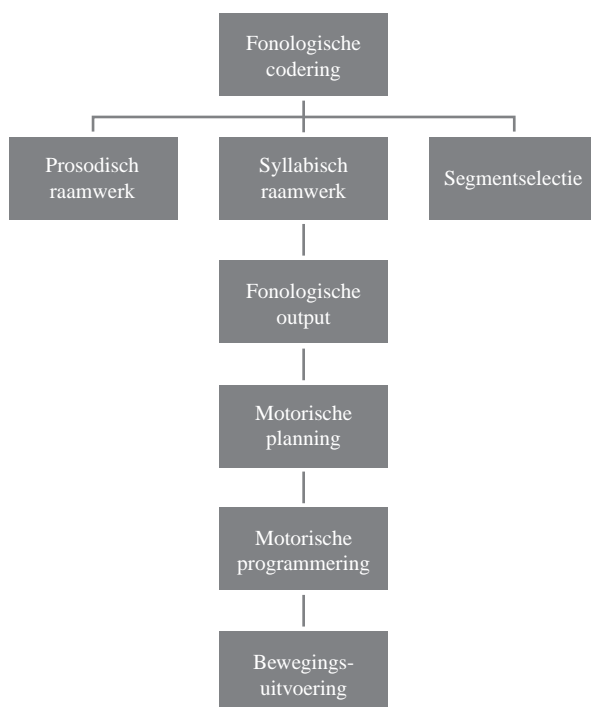
De stoornis apraxie van de spraak

Een algemeen geaccepteerde definitie van apraxie van de spraak ontbreekt momenteel. In het onderhavige onderzoek wordt daarom in eerste instantie uitgegaan van een van de meest uitgebreide definities, namelijk die van McNeil, Robin en Schmidt (2002). Zij definiëren apraxie van de spraak als een fonetisch-motorische spraakstoornis waarbij, in het geval van een pure apraxie van de spraak, een correct gevormde fonologische representatie van een boodschap foutief wordt omgezet in een doelgericht, eerder aangeleerd motorisch patroon (Ballard, Granier en Robin, 2000; Corijn, 2005). Deze definitie omvat de aspecten waarover verschillende onderzoekers het veelal eens zijn en heeft daarom de basis gevormd voor de aanname van differentiaaldiagnostische kenmerken die in het DIAS getest worden.

Traditioneel gezien wordt apraxie van de spraak beschouwd als een stoornis in de motorische programmering van de spraak (Darley, Aronson en Brown, 1975). Andere onderzoekers proberen een meer linguïstische verklaring te vinden voor de stoornis en leggen de nadruk op de fonologische verwerking (Varley en Whiteside, 2001). Deze verklaringen zijn echter aan kritiek onderhevig gebleken, onder andere omdat is gebleken dat er een duidelijke samenhang bestaat tussen problemen met de aansturing van de spraak en met bijvoorbeeld de gezichtsmotoriek. Een dergelijke samenhang

wordt niet verondersteld wanneer wordt uitgegaan van een linguïstische verklaring (Aichert en Ziegler, 2004; Code, 2005).

Een verklaring waar minder kritiek op is, maar die wel minder specifiek is, wordt gegeven door McNeil (2002). In Figuur 1 staat het taalproductiemodel dat McNeil gebruikt weergegeven. In dit model geeft hij een overzicht van de fases van fonologische en fonetische codering op basis waarvan hij probeert de onderliggende stoornis bij apraxie van de spraak weer te geven.



Figuur 1. Taalproductiemodel van McNeil (2002).

McNeil geeft in het model het productiecontroleproces weer. Dit proces is gebaseerd op het driefasige model van Van der Merwe (1997). In de eerste fase, de motorische planning, worden de articulatoren aangepast aan de context van het woord. Een onjuiste planning kan leiden tot valse starts en herstarts van een woord. Daarnaast kunnen onbewuste en bewuste compensatietechnieken leiden tot een gescandeerde spraak. In de tweede fase, de motorische programmering, worden voorafgaand aan de articulatiebeweging

instructies naar de spieren gestuurd. Een gestoorde motorische programmering veroorzaakt auditief en visueel zoekgedrag, addities, omissies en distorsies. In de derde fase, de articulatorische bewegingsuitvoering vindt de uiteindelijke articulatie plaats. Stoornissen in deze fase zullen resulteren in een dysartrie. Volgens Van der Merwe (1997) kan apraxie van de spraak gezien worden als een stoornis op het niveau van de motorische planning. Van der Merwe ziet enkele dysartriesyndromen, waaronder atactische dysartrie, eveneens als een gevolg van een stoornis van de motorische programmering of van zowel de programmering als de uitvoering. Volgens McNeil (2002) leiden een gestoorde planning en programmering tot verschillende gradaties van apraxie van de spraak.

Mede door de onduidelijkheid over de definitie en onderliggende oorzaken van apraxie van de spraak spreken veel publicaties in termen van kenmerken die de stoornis karakteriseren. De kenmerken die worden beschreven zijn zeer divers. Allereerst worden er zowel fonetische fouten (distorsies) als fonemische fouten (waaronder substituties) met apraxie van de spraak in verband gebracht. Een ander kenmerk is het inconsistente karakter van de fouten. Daarnaast worden ook initiatieproblemen en prosodische verstoringen in veel publicaties genoemd. Door verschillende auteurs wordt, tot slot, de moeite met complexe structuren, zoals consonantclusters, als kenmerkend beschouwd voor apraxie van de spraak (Darley et al., 1975; Wertz, LaPointe en Rosenbek, 1984; Deger en Ziegler, 2002; Liepold, Ziegler en Brendel, 2002; McNeil, 2002; Aichert en Ziegler, 2004; Corijn, 2005; Romani en Galluzzi, 2005; Ogar, Willock, Baldo, Wilkins, Ludy en Dronkers, 2006; Staiger en Ziegler, 2008).

Differentiatie tussen apraxie van de spraak en andere neurogene stoornissen

Waarschijnlijk een belangrijke oorzaak voor de verdeeldheid over de exacte definitie, oorzaken en kenmerken van apraxie van de spraak, is het feit dat de stoornis zelden in een pure vorm voorkomt. Het gaat frequent samen met afasie, dysartrie en/of buccofaciale apraxie. Het gelijktijdig voorkomen van meerdere stoornissen bij een patiënt bemoeilijkt de differentiaaldiagnose. Daarbij is het ook nog het geval dat er symptomen zijn die bij verschillende stoornissen op kunnen treden, hetgeen ook complicerend werkt bij de diagnosestelling. Bovenstaande factoren vormen tevens een belemmering voor het samenstellen van zuivere, homogene onderzoeksgroepen voor wetenschappelijk onderzoek naar meer duidelijkheid over de exacte aard en kenmerken van de stoornis (Mumby et al., 2007).

Het DIAS richt zich op het differentiëren tussen apraxie van de spraak, fonologische stoornissen bij afasie, in het bijzonder bij conductie-afasie en (atactische) dysartrie. Deze stoornissen zullen daarom nader toegelicht worden.

Bij conductie-afasie is er sprake van een stoornis op het niveau van de fonologische codering, zie Figuur 1. Patiënten hebben vooral moeite met het naspreken van

woorden en zinnen, waarbij een lengte-effect aanwezig is. Kenmerkend voor conductie-afasie zijn inconsistente klanksubstituties, -inserties en -deleties, evenals klankherhalingen, volgordefouten en conduite d'approche. Er komen geen distorsies voor. Patiënten spreken over het algemeen redelijk vloeiend en hebben een goed vermogen tot zelfcorrectie (Kohn, 1984; Canter, Trost en Burns, 1985; Nespoulous, Joannette, Ska, Caplan en Lecours, 1987; Goodglass, Kaplan en Barresi, 2001; Den Ouden, 2002; McNeil, 2002).

Dysartrie is een neurologische spraakstoornis als gevolg van paralyse, zwakte of incoördinatie van de spraakmusculatuur. Deze spraakstoornis omvat alle symptomen van een motorische dysfunctie in respiratie, fonatie, resonantie, articulatie en prosodie (Lambert, 1990). Er worden verschillende soorten dysartrie onderscheiden die elk karakteristieke spraakafwijkingen hebben. Dysartrie wordt gezien als een stoornis in de uitvoeringsfase (Spencer en Rogers, 2005). Een uitzondering hierop is atactische dysartrie. Deze stoornis zal daarom apart besproken worden. Een atactische dysartrie kan optreden ten gevolge van een laesie in het cerebellum. Het cerebellum zorgt voor de coördinatie van spierbewegingen ten behoeve van een vloeiend verloop ervan (Darley et al., 1975). Spencer en Rogers (2005) stellen voor om atactische dysartrie niet bij de standaard dysartriesyndromen te rekenen. In plaats van een stoornis in de articulatorische uitvoeringsfase is atactische dysartrie volgens deze auteurs, evenals volgens Van der Merwe (1997), eerder een stoornis in de motorische programmering. Kenmerkend voor atactische dysartrie zijn onder andere een inconsistent foutenpatroon, distorsies van vocalen, onnauwkeurige articulatie van consonanten, een traag spreektempo en syllabesegmentatie (Darley et al., 1975; Lambert, 1990; Dharmapaperwira-Prins, 1996; Ziegler en Wessel; 1996; Kent, Kent, Duffy, Thomas, Weismer en Stunteback, 2000; Schalling en Hertelius, 2004).

Uit bovenstaande informatie blijkt dat verschillende kenmerken bij zowel apraxie van de spraak als (atactische) dysartrie en/of conductie-afasie voorkomen. Een aantal kenmerken lijkt echter op basis van wetenschappelijk onderzoek differentiaaldiagnostisch te zijn voor apraxie van de spraak of wordt in de literatuur als kenmerk van apraxie van de spraak beschreven, maar niet in verband gebracht met andere stoornissen. Deze kenmerken staan weergegeven in kolom 2 van Tabel 1. Ze hebben de basis gevormd voor de individuele testonderdelen van het DIAS, die worden weergegeven in kolom 1. In Tabel 1 is tevens aangegeven in hoeverre de kenmerken ook bij conductie-afasie of atactische dysartrie voorkomen.

Onderbouwing onderdelen van het DIAS

Het DIAS bestaat uit vier testonderdelen die de differentiaaldiagnostische kenmerken van apraxie van de spraak in kaart brengen. In Tabel 1 wordt hier een overzicht van gegeven. Tevens wordt aangegeven tussen welke stoornissen het betreffende kenmerk

Tabel 1. Testonderdelen en differentiaaldiagnostische kenmerken van het DIAS.

Testonderdeel	Differentiaaldiagnostisch kenmerk	Conductie-afasie	Apraxie van de spraak	Atactische dysartrie	Overige dysartrieën
1. Test voor buccofaciale apraxie	Aanwezigheid van buccofaciale apraxie vaststellen	x	x		
2. Articulatie van consonanten	Inconsistente vorming van consonanten	x	x	x	
	-Substituties	x	x		
	-Distorsies		x	x	x
	Meer fouten bij de productie van consonanten dan bij de productie van vocalen		x		
3. Articulatie van vocalen	Inconsistente vorming van vocalen	x	x	x	
	-Substituties	x	x		
	-Distorsies		x	x	x
4. Diadochokinese	Meer fouten bij de afwisseling van consonanten dan bij de herhaling van consonanten		x		
	Inconsistente vorming van syllabes	x	x	x	
5. Articulatie van woorden	Initiatieproblemen		x		
	Lettergreepsegmentatie		x		x
	Clustersegmentatie		x	x	x
	Effect van lettergreepcomplexiteit		x		x

differentiërend is. Het inconsistente foutenpatroon is bijvoorbeeld niet differentiërend tussen apraxie van de spraak, conductie-afasie en atactische dysartrie, maar wel tussen apraxie van de spraak en de overige dysartrieën.

Test voor buccofaciale apraxie

Het testonderdeel 'Test voor buccofaciale apraxie' is in het DIAS opgenomen om te bepalen of de patiënt een buccofaciale apraxie heeft en beoogt bij te dragen aan de differentiaaldiagnose. Daarnaast geeft informatie over de aanwezigheid van een buccofaciale apraxie aanwijzingen voor een eventueel op te zetten therapie. Het testonderdeel bestaat uit tien items waarbij aan de patiënt wordt gevraagd om bepaalde bewegingen met de lippen en de tong uit te voeren. Gescoord wordt in hoeverre de patiënt in staat is om de opdrachten in één keer correct uit te voeren zonder zoekend monddrag. De uiteindelijke foutscore kan vergeleken worden met de normgegevens

om een uitspraak te kunnen doen over de aanwezigheid van buccofaciale apraxie en de ernst ervan.

Een eventuele stoornis kenmerkt zich door het onvermogen om op verzoek bewuste bewegingen van de larynx, farynx, lippen, tong en kaken uit te voeren. Apraxie van de spraak gaat vaak samen met een buccofaciale apraxie (Duffy, 1995). Het is echter ook mogelijk dat beide stoornissen afzonderlijk van elkaar voorkomen (Wertz et al., 1984). Volgens Benson, Sheremata, Bouchard, Segarra, Prince en Geschwind (1973) kan conductie-afasie zowel zonder als met buccofaciale apraxie voorkomen.² Er zijn geen bronnen gevonden die schrijven over atactische dysartrie in combinatie met buccofaciale apraxie.

Articulatie van consonanten en vocalen

De testonderdelen 'Articulatie van consonanten en vocalen' zijn in het DIAS opgenomen om de mogelijkheid tot het bewust produceren van individuele consonanten en vocalen te onderzoeken. De patiënt wordt gevraagd dertig verschillende klanken die visueel en auditief aangeboden worden driemaal te herhalen zonder dat het mondbeeld gegeven wordt. Er wordt gescoord in hoeverre de klankproductie correct is en in hoeverre de productie consistent dan wel inconsistent is. Het testonderdeel draagt bij aan de differentiaaldiagnose door te onderzoeken of er sprake is van een inconsistente productie van individuele consonanten en vocalen.

Het voorkomen van klankfouten is kenmerkend voor zowel apraxie van de spraak, conductie-afasie als atactische dysartrie. De klankfouten bij apraxie van de spraak bestaan echter over het algemeen uit inconsistente distorsies en substituties. Kenmerkend hierbij is dat er meer fouten worden gemaakt bij de productie van consonanten dan bij de productie van vocalen (Darley et al., 1975; LaPointe en Johns, 1975; Wertz et al., 1984; Varley en Whiteside, 2001; Den Ouden, 2004; Romani en Galuzzi, 2005).

Bij atactische dysartrie kan er net als bij apraxie van de spraak sprake zijn van een inconsistent foutenpatroon, waarbij een onnauwkeurige articulatie van consonanten en een vervormde articulatie van vocalen kenmerkend is (Dharmaperwira-Prins, 1996; Kent et al., 2000). Bij de overige dysartriesyndromen zal het foutenpatroon van de patiënt consistent zijn (Darley et al., 1975; Dharmaperwira-Prins, 1996; Lambert 1990). Vanuit de literatuur wordt niet beschreven dat patiënten met atactische dysartrie meer fouten maken bij consonanten dan bij vocalen.

² In het onderzoek van Benson et al. worden twee patiënten beschreven met een buccofaciale apraxie en een conductie-afasie. Gezien het feit dat er verder nooit is geschreven over de samenhang tussen bovenstaande syndromen, kan ook geconcludeerd worden dat bij de twee patiënten in het onderzoek van Benson et al. de beide syndromen toevallig samenkwamen zonder dat er een verband tussen is.

Bij een conductie-afasie kan er ook sprake zijn van een inconsistent foutenpatroon. Canter et al., (1985) stellen op basis van hun onderzoek echter dat patiënten met conductie-afasie evenveel fouten maken bij consonanten als bij vocalen (zie ook Monoi, Fukusako, Itoh en Sasanuma, 1983).

Diadochokinese

Onder mondelinge diadochokinese wordt het ‘snel afwisselen van de articulatoren door het snel herhalen van lettergrepen’ verstaan. Diadochokinese is een sensitief meetinstrument om motorische beperkingen mee aan te tonen (Prathanee, 1998; Ziegler 2002). Het doel van de diadochokinesetaak in het DIAS is het differentiëren tussen apraxie van de spraak en andere neurogene stoornissen. Hiertoe wordt de mogelijkheid tot het herhalen van dezelfde fonemen in syllabes vergeleken met de mogelijkheid tot het afwisselen van fonemen in syllabes. De patiënt wordt gevraagd zes sequentiële en zes alternerende items vijfmaal foutloos te herhalen. Er wordt gemeten hoe snel de patiënt dit kan. Om te bepalen of de afwisseling van consonanten moeilijker is dan de herhaling van consonanten wordt de totale snelheid van het vijfmaal foutloos herhalen van het alternerende item gedeeld door de totale snelheid van het vijfmaal foutloos herhalen van het sequentiële item. De uitkomsten kunnen vervolgens vergeleken worden met de normscores van de controlegroep om te bepalen in welke mate de uitkomst afwijkend is.

Het testonderdeel wordt afgebroken indien de patiënt bij een lettergreepstructuur zowel de sequentiële als de alternerende variant niet eenmaal correct kan herhalen. Ook wordt de subtest afgebroken als zowel de sequentiële als de alternerende variant van een lettergreepstructuur na drie pogingen niet correct vijf keer herhaald kunnen worden.

Door de items op te laten lopen in articulatorische complexiteit speelt de diadochokinesetaak tevens een rol bij de ernstbepaling. De diadochokinesetaak bevat bestaande woorden, waarbij afwisseling van meerdere articulatorische kenmerken gevraagd wordt, zoals afwisseling van articulatieplaats en –wijze.

Wertz et al., (1984); Deger en Ziegler (2002) en Ogar et al., (2006) stellen dat patiënten met apraxie van de spraak meer moeite zullen hebben met het afwisselen van verschillende fonemen (alternerende diadochokinese), zoals pa-ta-ka, dan met het herhalen van dezelfde fonemen (sequentiële diadochokinese), zoals pa-pa-pa. De diadochokinesetaak is volgens de onderzoekers een goed diagnostisch middel om apraxie van de spraak te differentiëren van andere stoornissen. Bij patiënten met atactische dysartrie of conductie-afasie wordt in de gevonden literatuur, de discrepantie tussen sequentiële en alternerende diadochokinese niet genoemd. De snelheidsscores op de diadochokinesetaak kunnen bij atactische dysartrie en bij conductie-afasie wel afwijkend zijn ten opzichte van een controlegroep zonder taal- of spraakproblemen. Daarnaast kunnen er afwijkingen aanwezig zijn in de klankproductie of het ritme (Ziegler en Wessel, 1996; Corijn en Miller, 2006).

Articulatie van woorden

Het testonderdeel 'Articulatie van woorden' is in het DIAS opgenomen om meerdere differentiaaldiagnostische kenmerken van apraxie van de spraak in kaart te brengen en om bij te dragen aan de ernstbepaling van de stoornis. De patiënt wordt gevraagd om zestig op schrift en auditief aangeboden woorden na te zeggen zonder dat hierbij het mondbeeld gegeven wordt. Deze woorden hebben een opbouw in lengte wat het aantal syllabes betreft en kennen een tweedeling in complexe en minder complexe woorden op grond van de syllabecomplexiteit. Syllabes van de structuur CCV (consonant-consonant-vocaal), CCCV of VCCC worden hierbij beschouwd als complex. CVC- en CVCC-structuren komen qua lengte overeen met respectievelijk de CCV- en CCCV/VCCC-structuren, maar worden beschouwd als niet, ofwel minder complex voor patiënten met een apraxie van de spraak (Aichert en Ziegler, 2004). De differentiaaldiagnostische kenmerken die gemeten worden zijn initiatieproblemen, segmentatie van syllabes en clusters en het effect van syllabecomplexiteit. De bovengenoemde kenmerken worden gemeten aan de hand van een lijst woorden die de patiënt, ondersteund met het schriftelijke woordbeeld, na moet zeggen. Omdat er aanwijzingen zijn dat een effect van syllabecomplexiteit differentiaaldiagnostisch is voor apraxie van de spraak ten opzichte van afasie, is ervoor gekozen een tweedeling aan te brengen in de woordenlijst op grond van de syllabecomplexiteit (Romani en Galuzzi, 2005; Staiger en Ziegler, 2008).

De moeite om met spreken te beginnen, ook wel initiatieproblemen genoemd, is kenmerkend voor apraxie van de spraak. Het kenmerk wordt in de literatuur niet beschreven bij de stoornissen atactische dysartrie en conductie-afasie (La Pointe, 1990; Haynes, 1992). Bij apraxie van de spraak komen initiatieproblemen voor in de vorm van valse starts, klank- en syllabeherhalingen en zichtbaar zoekend mondgedrag (LaPointe, 1990).

De segmentatie van syllabes is een van de differentiaaldiagnostische kenmerken van apraxie van de spraak waardoor de vloeiendheid van het spreken aangedaan kan zijn (Wertz et al., 1984; Varley en Whiteside, 2001; McNeil, 2002). Syllabesegmentatie kan gezien worden als het voorkomen van ongewone pauzes tussen syllabes waardoor het lijkt alsof de patiënt elke syllabe evenveel beklemtoont. Dit noemen we een gescandeerde spraak (Wertz et al., 1984). In het DIAS wordt de bovengenoemde definitie van lettergreepsegmentatie gehanteerd. Fouten in de beklemtoning, zonder dat er sprake is van segmentatie van lettergrepen, worden niet fout gescoord. Naast patiënten met apraxie van de spraak kunnen patiënten met atactische dysartrie ook syllabesegmentatie vertonen (Darley et al., 1975; Ackerman en Hertrich, 1997; Kent et al., 2000). Bij conductie-afasie zijn er geen bronnen in de literatuur gevonden die spreken van dit kenmerk.

Het segmenteren van clusters kan bij patiënten met apraxie van de spraak optreden in de vorm van een pauze of een ingevoegde schwa-klank tussen de consonanten van een cluster (McNeil, 2002; Corijn, 2005). Dit kenmerk is in de literatuur niet teruggevonden als kenmerk van atactische dysartrie of conductie-afasie.

De invloed van syllabecomplexiteit heeft volgens verschillende onderzoekers een differentiaaldiagnostische waarde voor de stoornis apraxie van de spraak (Romani en Galuzzi, 2005; Staiger en Ziegler, 2008). Resultaten van het onderzoek van Romani en Galuzzi (2005) tonen een complexiteitseffect aan bij patiënten met apraxie van de spraak in vergelijking tot afasiepatiënten met fonologische problemen. Vanuit de literatuur wordt niet beschreven dat syllabecomplexiteit invloed heeft op de productie van woorden door patiënten met atactische dysartrie.

Op basis van de literatuur kunnen verschillende verwachtingen op worden gesteld met betrekking tot de differentiaaldiagnostische kenmerken van apraxie van de spraak ten opzichte van overige neurogene stoornissen. Er wordt verwacht dat de uitkomst van de diadochokinesetaak (Deger en Ziegler, 2002; Ogar et al., 2006) en de aanwezigheid van initiatieproblemen (LaPointe, 1990) differentiërend zijn voor apraxie van de spraak ten opzichte van fonologische stoornissen bij afasie, in het bijzonder bij conductie-afasie en atactische dysartrie.

Er wordt verwacht dat de aanwezigheid van buccofaciale apraxie (Wertz et al., 1984) differentiërend is voor atactische dysartrie ten opzichte van apraxie van de spraak. Het genoemde kenmerk is naar verwachting niet of in mindere mate aanwezig bij patiënten met atactische dysartrie. De literatuur is niet eenduidig over het voorkomen van buccofaciale apraxie bij patiënten met conductie-afasie (Benson et al., 1973; Dharmaperwirapriya 1996; Seddoh, Robin, Sim, Hageman, Moon en Folkins, 1996).

Methode

Proefpersonen

De geïncludeerde Nederlandstalige patiënten in het onderhavige onderzoek zijn afkomstig uit verschillende revalidatiecentra en verpleeghuizen uit Noord-Nederland. De *post onset* tijd bedraagt voor iedere patiënt tenminste zes weken.

Om het onderzoek naar de betrouwbaarheid van het DIAS uit te kunnen voeren zijn de data van twee onderzoeksgroepen gebruikt, te weten een patiëntengroep en een controlegroep.

Voor het onderzoek naar het (differentiaal)diagnostische vermogen van het DIAS zijn drie groepen patiënten samengesteld. De eerste onderzoeksgroep bestaat uit elf patiënten met (mogelijke) apraxie van de spraak. De onderzoeksgroep bestaat uit zes mannen en vijf vrouwen variërend in de leeftijd van 36 tot 79 jaar. De gemiddelde leeftijd is 62 jaar. De patiënten met apraxie van de spraak zijn in eerste instantie gediagnosticeerd op basis van het klinische oordeel van een logopedist die niet bij het onderzoek betrokken was.

De tweede onderzoeksgroep bestaat uit vier patiënten met atactische dysartrie. De onderzoeksgroep bevat drie mannen en één vrouw, variërend in de leeftijd van 30 tot 64 jaar. De gemiddelde leeftijd is 49 jaar. De patiënten zijn gediagnosticeerd met het Frenchay Dysartrie Onderzoek (Lambert en Rutten, 1996).

Tabel 2. Beschrijving patiëntengroepen apraxie van de spraak/atactische dysartrie/conductie-afasie.

Patiënt	Geslacht	Leeftijd	Etiologie	MPO	Apraxie van de spraak	Afasie	Dysartrie
AS1	M	66 jaar	ICVA links	25	x	x	–
AS2	M	72 jaar	ICVA links	8	x	x	–
AS3	V	79 jaar	CVA links	19	x	x	–
AS4	M	60 jaar	HCVA rechts	5	x	x	–
AS5	V	51 jaar	ICVA links	6	x	x	–
AS6	V	74 jaar	CVA links	10	x	x	–
AS7	V	36 jaar	ICVA links	11	x	x	–
AS8	M	59 jaar	ICVA links	1,5	x	x	–
AS9	M	67 jaar	ICVA links	1,5	x	–	x
AS10	V	57 jaar	ICVA links	1,5	x	x	–
AS11	M	61 jaar	ICVA links, na 4 mnd recidief	3	x	x	–
AD1	M	43 jaar	ICVA Hersenstam	2	–	–	Atactische dysartrie
AD2	V	64 jaar	CVA Cerebellum	8	–	–	Atactische dysartrie
AD3	M	30 jaar	Multiple infarcten hersenstam/cerebellum	4	–	–	Atactische dysartrie
AD4	M	58 jaar	Cerebellaire atrofie door alcohol-abusus/ICVA links	12	–	–	Atactische dysartrie
CA1	V	78 jaar	ICVA	6	–	x	–
CA2	M	72 jaar	ICVA links	4	–	x	–
CA3	V	59 jaar	HCVA links	2	–	x	–

AS = patiënten met apraxie van de spraak; AD: patiënten met atactische dysartrie; CA: patiënten met conductie-afasie

MPO: Months Post Onset; I: Ischaemisch; H: Haemorrhagisch; CVA: Cerebro Vasculair Accident

◻ patiënt is geïncludeerd in het onderzoek naar de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid

▪ patiënt is geïncludeerd in het onderzoek naar de test-hertestbetrouwbaarheid

De derde onderzoeksgroep bestaat uit drie patiënten met conductie-afasie. De onderzoeksgroep bestaat uit twee vrouwen en één man, variërend in de leeftijd van 59 tot 78 jaar. De gemiddelde leeftijd is 69 jaar. De patiënten zijn gediagnosticeerd op basis van het onderdeel ‘Naspreken’ van de Akense Afasie Test (Graetz, de Blezer en Willmes, 1992).

De patiënten met atactische dysartrie of conductie-afasie zijn geïnclassificeerd aan de hand van bestaande tests. Hierbij valt niet uit te sluiten dat er toch ook sprake was van een lichte apraxie van de spraak. Dit is echter niet met een test aan te tonen. Hetzelfde geldt vanzelfsprekend ook voor de patiënten met een vermoeden van apraxie van de

spraak, omdat het onderhavige onderzoek juist is gericht op de ontwikkeling van een nog ontbrekende test voor deze classificatie. In eerste instantie zou een classificatie op basis van een klinisch oordeel hierbij minder betrouwbaar lijken. Mumby et al. (2007) hebben echter aangetoond dat, hoewel een duidelijke definitie van apraxie van de spraak ontbreekt, logopedisten zeer eenduidig zijn in het classificeren van apraxie van de spraak op basis van de kenmerken die patiënten vertonen.

In Tabel 2 wordt een overzicht gegeven van relevante gegevens van de onderzoeksgroepen en is met een □ of een ■ aangegeven welke patiënten geïncludeerd zijn in respectievelijk het onderzoek naar de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid en de test-hertestbetrouwbaarheid. De patiënten van de onderzoeksgroep voor het betrouwbaarheidsonderzoek zijn at random geselecteerd. Voor het onderzoek naar de test-hertestbetrouwbaarheid is daarbij een *post onset* tijd van minimaal acht weken gehanteerd.

De groep gezonde controlepersonen bestaat uit tien rechtshandige Nederlandstalige personen zonder neurologische aandoeningen, spraak- of taalproblemen. De controlegroep is globaal gematcht in opleiding, leeftijd en geslacht met de onderzoeksgroepen. De controlegroep bestaat uit vijf vrouwen en vijf mannen, variërend in de leeftijd van 50 tot 67 jaar. De gemiddelde leeftijd is 57 jaar.

Materiaal

Om de onderhavige onderzoek uit te voeren is in de eerste plaats het DIAS gebruikt. Het DIAS is bij alle patiënten uit de onderzoeksgroep afgenomen en bestaat uit de volgende onderdelen:

- Test voor buccofaciale apraxie
- Articulatie van consonanten en vocalen
- Diadochokinese
- Articulatie van woorden

De testonderdelen zijn hierboven in de onderbouwing reeds beschreven. Om het differentiaaldiagnostische vermogen van het DIAS te onderzoeken zijn de prestaties op het testonderdeel ‘Diadochokinese’ van het DIAS vergeleken met de prestaties op testen waarvan wordt aangenomen dat deze in grote mate dezelfde criteria onderzoeken als het DIAS. Bij de groep patiënten met apraxie van de spraak is naast het DIAS, de Amsterdam Nijmegen Test voor Alledaagse Taalvaardigheden (Blomert, Koster en Kean, 1995), vanaf nu ANTAT genoemd, en het onderdeel ‘Spontane taal’ van de Akense Afasie Test (Greatz, De Bleser en Willmes, 1992), vanaf nu AAT genoemd, afgenomen. De ‘verstaanbaarheidsscore’ van de ANTAT en de maten ‘articulatie en prosodie’ en ‘fonematische structuur’ van het onderdeel ‘Spontane taal’ van de AAT worden in dit onderzoek gehanteerd als criteriummaten omdat deze alle gericht zijn op uitspraak en verstaanbaarheid. Op dit moment is er geen diagnostisch instrument voorhanden voor de diagnostiek van apraxie van de spraak. Ondanks dat bovengenoemde

criteriummaten niet specifiek apraxie van de spraak meten, zijn de scores op de maten grove, maar toch enigszins verwante, geschikte maten om als criterium te dienen bij dit onderzoek.

Procedure

Het DIAS is bij de gezonde controlepersonen en bij de geïncludeerde patiënten uit de drie onderzoeksgroepen afgenomen. Het afnemen van het diagnostische instrument is door twee logopedisten gedaan. Iedere afname is opgenomen op video. Vanwege het onderzoek naar de betrouwbaarheid van het DIAS zijn de geïncludeerde patiënten op twee momenten getest met een tussenpoos van twee à drie weken. Dit is gedaan om de test-hertestbetrouwbaarheid van het instrument in kaart te kunnen brengen. Bij alle patiënten die geïncludeerd zijn in de groep patiënten met apraxie van de spraak, is op het moment van de eerste of tweede afname van het DIAS de ANTAT en het onderdeel 'Spontane taal' van de AAT afgenomen. Dit is alleen bij de patiënten van de groep met apraxie van de spraak gedaan om te onderzoeken of de diadochokinesetaak een geldige maat is voor de stoornis apraxie van de spraak. Van iedere afname van de laatstgenoemde onderzoeken is een digitale geluidsopname gemaakt.

Scoring

Voor het onderzoek naar de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid zijn de responsen van de patiëntengroep gescoord door twee logopedisten die betrokken zijn bij de ontwikkeling van het DIAS. Zij hebben acht maanden stage-ervaring op het gebied van logopedisch onderzoek en behandeling van patiënten met spraak- en/of taalproblemen ten gevolge van niet-aangeboren hersenletsel. Deze stage-ervaring is opgedaan in een ziekenhuis en/of revalidatiecentrum. Ook hebben ze werkervaring, variërend van 3 tot 7 maanden, in een ziekenhuis en/of revalidatiecentrum. Hier zijn ze elk in aanraking gekomen met verschillende patiënten met apraxie van de spraak.

Voorafgaand aan de scoring zijn eventuele onduidelijkheden met betrekking tot de handleiding van het DIAS en de procedure van het onderzoek besproken. De beoordelaars hebben onafhankelijk van elkaar de patiëntdata gescoord. Overleg over de scoring was hierbij niet toegestaan. Ze kregen voor het bekijken van de opnames en het scoren van de responsen zo veel tijd als gewenst.

Voor het onderzoek naar de test-hertestbetrouwbaarheid zijn de video-opnames van de tweede afname van het DIAS gescoord door één logopedist. Hierbij was het niet toegestaan om de scoreformulieren van de eerste testafname van de betreffende patiënt te bekijken. Dit om eventuele beïnvloeding bij de scoring te voorkomen.

Voor het onderzoek naar het (differentiaal)diagnostische vermogen van het DIAS zijn de responsen van de patiëntengroep gescoord aan de hand van de scoringsprocedure die beschreven staat in de handleiding van het diagnostische instrument (Den Exter, Meilof en Feiken, 2008). Naast de testresultaten van het DIAS zijn ook de maten 'articulatie en prosodie' en 'fonematische structuur' van het onderdeel 'Spontane taal'

van de AAT en de ‘verstaanbaarheidsscore’ van de ANTAT gescoord. Deze scoring is door één logopedist uitgevoerd.

Analyse en resultaten

Voor het onderzoek naar de betrouwbaarheid van het DIAS is aan de hand van de Spearman’s correlatiecoëfficiënt onderzocht in hoeverre de beoordelaars overeenkomen in hun scoring van de veertien proefpersonen. Hiertoe zijn per variabele de totaalscores van alle proefpersonen per beoordelaar met elkaar vergeleken.

Voor de bepaling van de test-hertestbetrouwbaarheid zijn de resultaten van de elf proefpersonen op testmoment 1 en 2 met elkaar vergeleken. Hierbij is uitgegaan van de totaalscores per subtest of variabele, aangezien een exacte overeenkomst per item niet vereist en zelfs niet te verwachten is, gezien het inconsistente karakter van apraxie van de spraak en de andere stoornissen. Voor de bepaling van de test-hertestbetrouwbaarheid is allereerst de Spearman’s correlatiecoëfficiënt berekend tussen de scores bij afname 1 en 2. Vervolgens is geanalyseerd in hoeverre de resultaten op moment 1 en 2 significant van elkaar verschillen. Hierbij is een significantieniveau van $p \leq 0,05$ gehanteerd. Er is gebruik gemaakt van de Wilcoxon-toets.

In Tabel 3 is een overzicht weergegeven van de resultaten van het interbeoordelaarsbetrouwbaarheidsonderzoek. Een betrouwbaarheidscoëfficiënt van boven de 0,80 wordt voor testinstrumenten over het algemeen gezien als voldoende (Van Eldik, 1998). Er blijkt een significante, hoge correlatie te bestaan tussen de scores van de

Tabel 3. Resultaten interbeoordelaarsbetrouwbaarheid.

Testonderdeel	Variabele	Correlaties tussen beoordelaars
Buccofaciale apraxie	Foutscore	0,94**
Articulatie van consonanten (C)	Foutscore inconsistentie	0,94**
	Foutscore totaal	0,81**
Articulatie van vocalen (V)	Foutscore inconsistentie	0,72**
	Foutscore totaal	0,85**
Diadochokinese	Ernstscore	0,99**
	Inconsistentie lettergrepen	0,73**
Articulatie van woorden (W)	Foutscore	0,91**
	Initiatieproblemen	0,89**
	Lettergreepsegmentatie	0,85**
	Clustersegmentatie	0,83**
	Lettergreepcomplexiteit	0,73**
	Clusterreductie	0,61*
	Herhalingen	0,81**
Articulatie van C, V en W	Distorsies -totaal	0,53*
	Substituties – totaal	0,92**

* Correlatie is significant ($p < 0,05$)

** Correlatie is significant ($p < 0,01$)

beoordelaars bij de ‘Test voor buccofaciale apraxie’, ‘Articulatie van consonanten’, de totale foutscore van het testonderdeel ‘Articulatie van vocalen’, de ernstscore bij de ‘Diadochokinese’, de initiatieproblemen, de lettergreep- en clustersegmentaties en de herhalingen bij het testonderdeel ‘Articulatie van woorden’ en het totaal aantal substituties ($p < 0,01$). Er blijkt een significante correlatie te bestaan die onder de grens van 0,80 blijft bij de foutscore van de inconsistentie bij ‘Articulatie van vocalen’ en bij ‘Diadochokinese’, de lettergreepcomplexiteit en de clusterreducties bij het testonderdeel ‘Articulatie van woorden’ en het totaal aantal distorsies ($p < 0,05$). Bij deze laatstgenoemde scoringsvariabelen is getracht de foutenbronnen te identificeren en zijn er aanpassingen voorgesteld ter verhoging van de betrouwbaarheid ten behoeve van de ontwikkeling van de definitieve testversie.

Om de test-hertestbetrouwbaarheid te bepalen zijn de data van elf proefpersonen op testmoment 1 (DIAS1) en 2 (DIAS2) met elkaar vergeleken. Tabel 4 geeft een overzicht van de Spearman’s correlatiecoëfficiënten tussen de scores op moment 1 en 2 en de vergelijkingen tussen DIAS1 en DIAS2 met de Wilcoxon-toets.

De gemiddelde test-hertestcorrelatie is 0,872, standaarddeviatie 0,085. In Tabel 4 is te zien dat, met uitzondering van proefpersoon AD 4, er bij alle proefpersonen een significante, hoge correlatie blijkt te bestaan tussen de scores op testmoment 1 en 2. Alle correlaties zijn hoger dan de eerder beschreven grens van 0,80 en zijn significant op een niveau van $p < 0,01$. De correlatie tussen DIAS1 en DIAS2 bij proefpersoon AD 4 is significant ($p < 0,01$), maar blijft onder de grens van 0,80. Dit is een patiënt met atactische dysartrie.

Bij analyse van de testcores met de Wilcoxon-toets blijkt er bij negen van de elf proefpersonen geen significant verschil te bestaan tussen de scores op DIAS1 en

Tabel 4. Resultaten test-hertestbetrouwbaarheid.

Proefpersoon	Correlatie DIAS1- DIAS2 (r-waarde)	Vergelijking DIAS1- DIAS2 (z-score)	Vergelijking DIAS1- DIAS2 (p-waarde)
AS 1	0,96*	-2,34	0,02**
AS 2	0,89*	-0,79	0,94
AS 3	0,94*	-0,81	0,42
AS 4	0,84*	-0,85	0,40
AS 5	0,84*	-0,23	0,82
AS 6	0,91*	-0,46	0,65
AS 11	0,89*	-2,41	0,02**
CA 1	0,89*	-1,22	0,22
AD 1	0,90*	-1,02	0,31
AD 2	0,89*	-0,06	0,95
AD 4	0,64*	-0,86	0,39

Correlatie is berekend over alle scores beschreven in Tabel 3

* Correlatie is significant ($p < 0,01$)

** Significant verschil DIAS1- DIAS2 ($p < 0,05$)

DIAS2. Bij proefpersoon AS 1 en AS 11 is er wel een significant verschil tussen de twee testmomenten ($p < 0,05$), zoals te zien is in Tabel 4. Beide proefpersonen hebben tijdens de tweede afname significant lagere foutscores. Deze twee patiënten hebben beide een combinatie van afasie en apraxie van de spraak. De verstreken tijd tussen moment 1 en 2 is bij de proefpersonen niet korter dan bij de andere patiënten. Proefpersoon AS 1 bevindt zich in de chronische fase en kreeg eenmaal per week logopedische therapie. Proefpersoon AS 11 heeft 4 maanden voor de testdatum een recidief gehad en kreeg in de periode tussen testmoment 1 en 2 intensieve logopedische therapie.

Om te onderzoeken of het testonderdeel ‘Diadochokinese’ in staat is om de diagnose en de ernst van de stoornis in kaart te brengen, is onderzocht of er sprake is van een hoge correlatiecoëfficiënt tussen de score op de diadochokinesetaak en de ‘verstaanbaarheidsscore’ van de ANTAT. Daarnaast zijn de categorieën ‘articulatie en prosodie’ en ‘fonematische structuur’ van het onderdeel ‘Spontane taal’ van de AAT als tweede en derde criteriumonderzoek gehanteerd. De verwachting is dat het differentiaaldiagnostische kenmerk dat met het testonderdeel ‘Diadochokinese’ gemeten wordt (in hoge mate) correleert met de bovenstaande criteriummaten. Indien de score op de diadochokinesetaak een geldige maat is voor de stoornis apraxie van de spraak, dan dient er een redelijke samenhang te bestaan tussen de score op deze taak en de score op de criteriummaten. De correlatiecoëfficiënt tussen de score op de diadochokinesetaak en de drie criteriummaten is berekend met de Spearman’s rangcorrelatie. De resultaten staan in Tabel 5 weergegeven.

Tabel 5. Correlatiecoëfficiënten tussen de score op de diadochokinesetaak en de criteriummaten van de patiënten met apraxie van de spraak ($n = 11$).

Analyse Spearman’s rangcorrelatie	R-waarde	Significantie
DDK – ANTAT	– 0,70	$p < 0,05$
DDK – AAT ‘articulatie en prosodie’	– 0,62	$p < 0,05$
DDK – AAT ‘fonematische structuur’	– 0,62	$p < 0,05$

DDK = score op de diadochokinesetaak, ANTAT = score op de ‘verstaanbaarheidsscore’ van de Amsterdam Nijmegen Test Alledaags Taalgebruik, AAT = score op de maten ‘articulatie en prosodie’ en ‘fonematische structuur’ van de Akense Afasie Test

Op basis van de waardering van correlaties volgens Guilford (1965) komt uit de resultaten naar voren dat er sprake is van een hoge significante negatieve correlatie tussen het testonderdeel ‘Diadochokinese’ en de ‘verstaanbaarheidsscore’ van de ANTAT en van een voldoende negatieve correlatie tussen de score op de diadochokinesetaak en de maten ‘articulatie en prosodie’ en ‘fonematische structuur’. Op basis van bovenstaande resultaten kan gesteld worden dat de score op het testonderdeel ‘Diadochokinese’ significant correleert met de scores op de drie criteriummaten,

waarbij een hogere ernstscore op de diadochokinesetaak overeenkomst met een lagere score op de criteriummaten.

Om te onderzoeken of het DIAS kan differentiëren tussen apraxie van de spraak en overige neurogene stoornissen is onderzocht of patiënten met apraxie van de spraak, patiënten met atactische dysartrie en patiënten met conductie-afasie significante verschillen vertonen op de differentiaaldiagnostische kenmerken gemeten met de testonderdelen van het DIAS.

Bij het uitvoeren van de analyses is onderzocht of de scores op de kenmerken ‘Aanwezigheid van buccofaciale apraxie’, ‘Meer fouten bij de afwisseling van consonanten dan bij de herhaling van consonanten’ (diadochokinesetaak), ‘Initiatieproblemen’ en ‘Totale inconsistentie-score’ significante verschillen opleveren tussen de drie onderzoeksgroepen. De ‘Totale inconsistentie-score’ is berekend door het aantal inconsistente producties van consonanten en vocalen bij de subtest ‘Articulatie van consonanten en vocalen’ en het aantal inconsistente producties van syllabes bij het testonderdeel ‘Diadochokinese’ bij elkaar op te tellen. Bij het laatstgenoemde testonderdeel is dit gedaan door de sequentiële items eenmaal door de patiënt na te laten zeggen. Van deze allereerste herhaling is bepaald of de productie consistent is of dat er sprake is van een inconsistent foutenpatroon.

Er is voor het analyseren van de bovengenoemde vier variabelen gekozen omdat het gezien de beperkte grootte van de onderzoeksgroep niet mogelijk zou zijn om alle variabelen in een analyse mee te nemen. Bij de keuze van de variabelen is rekening gehouden met kenmerken die in de verschillende testonderdelen naar voren komen en die een goede interbeoordelaarsbetrouwbaarheid hadden. In Tabel 6 staan de scores per onderzoeksgroep op de vier kenmerken weergegeven.

Tabel 6. Scores onderzoeksgroepen op de vier kenmerken.

Kenmerken	AD		CA		AS	
	Gem.	Range	Gem.	Range	Gem.	Range
Kenmerken buccofaciale apraxie	0,5	0-2	1,7	0-3	4,3	1-9
Diadochokinese *	0,5	0-2	2,6	2-3	2,7	0-4
Initiatieproblemen	1,3	0-4	1,7	1-2	13,1	1-24
Totale inconsistentie-score	2,8	0-4	0,3	0-1	4,8	0-7

AD: patiënten met atactische dysartrie; CA: patiënten met conductie-afasie; AS= patiënten met apraxie van de spraak

* Voor het berekenen van de ernstscore op de diadochokinesetaak is een omreken tabel gebruikt. De gemiddelde score en de range zijn berekend op basis van deze omreken tabel.

Met de non-parametrische Kruskal-Wallis toets is berekend of de verschillende onderzoeksgroepen significante verschillende vertonen op bovengenoemde kenmerken. De toets toont voor al deze kenmerken significante verschillen aan tussen de onderzoeksgroepen (aanwezigheid van buccofaciale apraxie; $\chi^2 = 9,227$, $p < 0,05$,

Diadochokinese; $\chi^2 = 6,678$, $p < 0,05$, Initiatieproblemen; $\chi^2 = 8,015$, $p < 0,05$, totale inconsistentie-score; $\chi^2 = 7,048$, $p < 0,05$).

In Tabel 7 staan de resultaten weergegeven van de post hoc analyse die uitgevoerd is met de non-parametrische Mann-Whitney toets om te onderzoeken welke onderzoeksgroepen significant van elkaar verschillen op de bovenstaande kenmerken.

Tabel 7. Vergelijking van de groepsverschillen op de verschillende onderdelen (onderzocht met de Mann-Whitney toets).

Vergelijking onderzoeksgroepen		Z-waarde	Significantie
Aanwezigheid buccofaciale apraxie	AS - AD	-2,65	$p < 0,01$
Diadochokinese	AS - AD	-2,35	$p < 0,05$
Initiatieproblemen	AS - AD	-2,42	$p < 0,05$
Totale inconsistentie-score	AS - AD	-0,99	$p = 0,32 \diamond$
Aanwezigheid buccofaciale apraxie	AS - CA	-1,98	$p < 0,05$
Diadochokinese	AS - CA	-0,78	$p = 0,44 \diamond$
Initiatieproblemen	AS - CA	-1,89	$p = 0,06 \diamond$
Totale inconsistentie-score	AS - CA	-2,44	$p < 0,05$

AS = patiënten met apraxie van de spraak; AD: patiënten met atactische dysartrie; CA: patiënten met conductie-afasie

\diamond = resultaat is niet significant

De resultaten van de analyses tonen aan dat de groep patiënten met atactische dysartrie significant verschilt van de groep patiënten met apraxie van de spraak op alle differentiaaldiagnostische kenmerken die in Tabel 7 weergegeven staan, behalve op het kenmerk 'Totale inconsistentie-score' (aangegeven met een \diamond). Alle bovengenoemde kenmerken die significant verschillen tussen de onderzoeksgroepen zijn in grotere mate aanwezig bij de groep patiënten met apraxie van de spraak ten opzichte van de groep patiënten met atactische dysartrie.

De groep patiënten met conductie-afasie verschilt alleen significant van de groep patiënten met apraxie van de spraak op de kenmerken 'Aanwezigheid van buccofaciale apraxie' en 'Totale inconsistentie-score'. Hierbij zijn de kenmerken in grotere mate aanwezig bij de groep patiënten met apraxie van de spraak ten opzichte van de groep patiënten met conductie-afasie. Tevens is er een tendens zichtbaar dat de aanwezigheid van initiatieproblemen significant verschilt tussen de beide onderzoeksgroepen, waarbij het kenmerk in grotere mate aanwezig is bij de groep patiënten met apraxie van de spraak. Het verschil is echter net niet significant ($z = -1,891$, $p = 0,059$).

Discussie

In dit artikel is een onderzoek besproken naar de psychometrische eigenschappen van het DIAS. Het DIAS is ontwikkeld op basis van in de literatuur beschreven kenmerken van apraxie van de spraak.

De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid van het DIAS is onderzocht door twee ingevoerde beoordelaars de data van veertien patiënten te laten scoren. De mate van overeenstemming tussen de beoordelaars geeft een indicatie of de scoringsregels duidelijk zijn. Uit de resultaten blijkt de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid bij het scoren van de test voor buccofaciale apraxie en de diadochokinesetaak in dit onderzoek goed te zijn. Uit het onderzoek naar het (differentiaal)diagnostische vermogen van het DIAS blijkt dat deze testonderdelen tevens differentiaaldiagnostische waarde hebben. De subtesten buccofaciale apraxie en diadochokinese lijken dus, op grond van de huidige resultaten, in staat om betrouwbaar bij te dragen aan de differentiaaldiagnose en de ernstbepaling. Ook de totale inconsistentiescore blijkt differentiërend tussen apraxie van de spraak en conductie-afasie. In het betrouwbaarheidsonderzoek zijn de inconsistentiescores per testonderdeel geanalyseerd. Bij het scoren van de inconsistentie bij de articulatie van vocalen blijkt de correlatie tussen de beoordelaars matig te zijn. Om de totale inconsistentiescore een betrouwbaar differentiërend kenmerk te laten zijn, zal deze correlatie hoger moeten zijn. Hiertoe zijn enkele aanpassingen ter verbetering voorgesteld ten behoeve van de ontwikkeling van de definitieve testversie.

De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid van het aantal initiatieproblemen blijkt in dit onderzoek goed te zijn. Uit het onderzoek naar het (differentiaal)diagnostische vermogen van het DIAS komt naar voren dat het aantal initiatieproblemen tevens differentiërend is tussen apraxie van de spraak en atactische dysartrie. Verder is er een tendens zichtbaar dat het aantal initiatieproblemen verschilt tussen apraxie van de spraak en conductie-afasie. Op basis van het onderhavige onderzoek kan dus geconcludeerd worden dat het scoren van initiatieproblemen zowel differentiërend als betrouwbaar is.

Naast de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid is de test-hertestbetrouwbaarheid in kaart gebracht. Een van de doelstellingen van het DIAS is het kunnen geven van een ernstbepaling, waardoor de test veranderingen over tijd inzichtelijk kan maken na een periode van therapie. Om aan deze doelstelling te kunnen voldoen dienen de testresultaten redelijk stabiel te zijn als er geen therapie wordt aangeboden. Dit is onderzocht door data van twee testmomenten van patiënten die binnen een tijdsbestek van twee á drie weken tweemaal getest zijn met elkaar te vergelijken. Bij negen van de elf proefpersonen zijn er geen significante verschillen tussen moment 1 en 2. Hoewel het volgen van therapie in de tussenfase bij één van deze twee personen mogelijk een rol heeft gespeeld is het onduidelijk welke factoren precies verantwoordelijk zijn voor het significante verschil bij de overige twee proefpersonen. Samen met de gevonden hoge, significante correlaties tussen de testmomenten lijken deze resultaten echter een eerste bewijs dat de scores op het DIAS niet slechts een momentopname zijn. Er kan worden geconcludeerd dat in dit onderzoek tijdstipgebonden foutenbronnen of onsystematische meetfouten geen grote rol hebben gespeeld.

Naast het onderzoek naar de betrouwbaarheid van het DIAS is er een onderzoek uitgevoerd naar het (differentiaal)diagnostische vermogen van het DIAS en de

mogelijkheid tot ernstbepaling. Het onderzoek heeft zich specifiek gericht op het testonderdeel ‘Diadochokinese’ omdat op basis van de literatuur verwacht wordt dat dit testonderdeel een belangrijke bijdrage levert aan het stellen van de (differentiaal) diagnose en het vaststellen van de ernst van de stoornis apraxie van de spraak (Deger en Ziegler, 2002; Ogar et al., 2006). De resultaten van het onderzoek bevestigen dat de diadochokinesetaak belangrijk is in het DIAS voor de diagnostiek van apraxie van de spraak. Daarnaast tonen de resultaten aan dat een hoge score op de diadochokinesetaak overeenkomt met een lagere score op de criteriummaten. De hoogte van de score op de diadochokinesetaak geeft de mate aan waarin het kenmerk ‘afwisseling van consonanten is moeilijker dan de herhaling van consonanten’ aanwezig is. Hiermee lijkt de diadochokinesetaak ook de mate van ernst van de stoornis weer te kunnen geven.

Tevens heeft het onderzoek zich gericht op de vraag of het DIAS in staat is om te differentiëren tussen apraxie van de spraak en de neurogene stoornissen atactische dysartrie en conductie-afasie. Er is onderzocht op welke testonderdelen van het DIAS de bovengenoemde patiëntengroepen significante verschillen vertonen. De resultaten van de analyses tonen aan dat een hoge score op de kenmerken ‘Aanwezigheid van Buccofaciale apraxie’, ‘Diadochokinese’ en ‘Initiatieproblemen’ kenmerkend is voor de stoornis apraxie van de spraak ten opzichte van patiënten met atactische dysartrie. Een hoge score op de kenmerken ‘Aanwezigheid van buccofaciale apraxie’ en de ‘Totale inconsistentie-score’ is kenmerkend voor de stoornis apraxie van de spraak ten opzichte van conductie-afasie. Daarnaast is er een tendens zichtbaar dat de aanwezigheid van initiatieproblemen significant verschilt tussen patiënten met conductie-afasie en apraxie van de spraak. De bovengenoemde kenmerken zijn in significant grotere mate aanwezig bij de groep patiënten met apraxie van de spraak ten opzichte van de andere groepen.

Op basis van de resultaten kan gesteld worden dat ondanks de kleine onderzoeksgroepen die gehanteerd zijn, er significante verschillen op de gemeten kenmerken naar voren komen tussen de verschillende onderzoeksgroepen. Het lijkt erop dat met de bovengenoemde maten de differentiaaldiagnose tussen de verschillende stoornissen gesteld kan worden.

Een goede basis voor de verdere ontwikkeling van het DIAS is het feit dat drie van de vier in het DIAS onderzochte kenmerken die als differentiërend naar voren komen, tevens een hoge, significante interbeoordelaarsbetrouwbaarheid blijken te hebben. Dat de bovenstaande variabelen differentiërend zijn gebleken lijkt een eerste indicatie dat de stoornis apraxie van de spraak zich zowel op het niveau van de motorische planning als de programmering bevindt. Eerder in het artikel is het taalproductiemodel van McNeil (2002) besproken. McNeil (2002) en Van der Merwe (1997) zien valse starts van een woord als teken van een planningsprobleem, terwijl auditief en visueel zoekgedrag een teken zijn van een stoornis in de programmering. Initiatieproblemen in de vorm van zoekgedrag en valse starts, die bij apraxie van de spraak in significant hogere mate voorkomen dan bij atactische dysartrie en conductie-afasie, zouden, uitgaande van McNeil en Van der Merwe, dan een teken zijn van zowel een gestoorde

planning als programmering. Voor de ontwikkeling van het DIAS is de definitie van apraxie van de spraak van McNeil et al., (2002) gehanteerd. Deze definitie gaf de ruimte om zowel diagnostische kenmerken gelegen op het niveau van de motorische planning als op het niveau van de programmering in het DIAS te testen.

Van der Merwe (1997) stelt dat een stoornis in de programmerings- en uitvoeringsfase kan leiden tot een atactische dysartrie. De programmeringsfase van het productiecontroleproces is spierspecifiek. De resultaten van het onderhavige onderzoek tonen aan dat de stoornis apraxie van de spraak zich van de stoornis atactische dysartrie onderscheidt door de kenmerken 'Aanwezigheid van buccofaciale apraxie', 'Diadochokinese' en 'Initiatieproblemen'. De bovengenoemde kenmerken zijn in grotere mate aanwezig bij apraxie van de spraak dan bij atactische dysartrie. De aanwezigheid van een buccofaciale apraxie duidt op een verstoorde bewuste uitvoering van mondmotorische opdrachten. Patiënten met apraxie van de spraak vertonen bij de uitvoering van de opdrachten vaak zoekend monddrag. Het zoekend monddrag lijkt op basis van het model van Van den Merwe (1997) een gevolg te zijn van een stoornis in de motorische programmering. Bij de diadochokinesetaak is bij de alternerende diadochokinese een snelle afwisseling en coördinatie van de spraakklanken vereist. Initiatieproblemen lijken op basis van het model van Van der Merwe (1997) een gevolg te kunnen zijn van een stoornis in zowel de planning als de programmering van de spraak. De stoornis atactische dysartrie lijkt op basis van de resultaten veroorzaakt te worden door een probleem in de programmerings- en uitvoeringsfase, met name vanwege het in significant mindere mate voorkomen van de bovengenoemde kenmerken ten opzichte van patiënten met apraxie van de spraak. Dit wordt in de literatuur bevestigd door Spencer en Roger (2005) en Van der Merwe (1997).

In de literatuur wordt beschreven dat conductie-afasie een stoornis is in de fonologische codering van het spraakproductieproces (Ellis en Young, 1996; Kohn, 1984). McNeil (2002) stelt dat een verkeerde sequentiëring leidt tot typische fonologische parafasieën bij patiënten met conductie-afasie. Deze typische fouten zijn volgens McNeil niet te wijten aan een stoornis op het motorische niveau van de spraakproductie, maar juist op het niveau waar het fonologische frame wordt ingevuld met klanken. Na de fonologische codering vinden de planningsfase en de motorische fase plaats. Het significant minder voorkomen van inconsistente fouten en het net niet significant voorkomen van minder initiatieproblemen bij patiënten met conductie-afasie ten opzichte van apraxie van de spraak, toont aan dat er bij de patiënten met conductie-afasie in dit onderzoek geen sprake lijkt te zijn van een stoornis in de planning of programmering van de spraak ten opzichte van de patiënten met apraxie van de spraak. De resultaten op het onderhavige onderzoek lijken te bevestigen dat er geen sprake is van een (bijkomende) fonetische stoornis bij conductie-afasie.

Concluderend kan gesteld worden dat de resultaten van het betrouwbaarheidsonderzoek samen met de resultaten van het onderzoek naar het (differentiaal)diagnostische

vermogen van het DIAS interessante aanknopingspunten bieden voor de verdere ontwikkeling van het DIAS. De resultaten van het test-hertestbetrouwbaarheidsonderzoek geven een eerste indicatie dat het DIAS in staat is om veranderingen in de tijd te meten en dus therapie-effecten inzichtelijk zou kunnen maken. Daarnaast hebben de testonderdelen die op basis van het onderzoek naar het (differentiaal)diagnostische vermogen van het DIAS bleken bij te dragen aan de differentiaaldiagnose en ernstbepaling, een goede interbeoordelaarsbetrouwbaarheid. Vervolgonderzoek met grotere onderzoeksgroepen zal moeten uitwijzen in hoeverre de resultaten over de betrouwbaarheid en validiteit van het DIAS van het onderhavige onderzoek generaliseerbaar zijn.

Referenties

- Ackermann, H., Hertrich, I. (1997). Voice Onset Time in Ataxic Dysarthria. *Brain and Language*, 56, 321-333.
- Aichert, I., Ziegler, W. (2004). Syllable frequency and syllable structure in apraxia of speech. *Brain and Language*, 88, 148-159.
- Ballard, K., Granier, J., Robin, D. (2000). Understanding the nature of apraxia of speech: Theory, analysis and treatment. *Aphasiology*, 14, 10, 969-995.
- Benson, D., Sheremata, W., Bouchard, R., Segarra, S., Prince, D., Geschwind, N. (1973). Conduction aphasia: A clinicopathological study. *Archives of Neurology*, 28, 339-346.
- Blomert, I., Koster, C., Kean, M-L. (1995). *Amsterdam-Nijmegen Test voor Alledaagse Taalvaardigheden (ANTAT)*. Lisse: Swets & Zeitlinger.
- Canter, G., Trost, J., Burns, M. (1985). Contrasting speech patterns in apraxia of speech and phonemic paraphasia. *Brain and Language*, 24, 204-222.
- Code, C. (2005). Syllables in the brain: Evidence from brain damage. In: Hartsuiker, R., Bastiaanse, R., Postma, A., Wijnen, F. (eds.) *Phonological encoding and monitoring in normal and pathological speech*. Hove, UK: Psychology Press.
- Corijn, M. (2005). Verbale apraxie: een fonologische-fonetisch enigma? *Logopedie en Foniatrie*, 4, 112-120.
- Darley, F., Aronson, A., Brown, J. (1975). *Motor Speech Disorders*. Philadelphia: Saunders.
- Deger, K., Ziegler, W. (2002). Speech motor programming in apraxia of speech. *Journal of phonetics*, 30, 321-335.
- Dharmaperwira-Prins, R. (1996). *Dysarthrie en Verbale Apraxie. Beschrijving, onderzoek en behandeling*. Swets & Zeitlinger Publishers.
- Duffy, J. (1995). *Motor Speech Disorders. Substrates, differential diagnosis, and management*. London: Mosby.
- Eldik, M. van, (1998). *Meten van taalbegrip en taalproductie : constructie, normering en validering van de Reynell Test voor taalbegrip en de Schlichting Test voor taalproductie*. Stichting Kinderstudies, Groningen.
- Ellis, A., Young, A. (1996). *Human Cognitive Neuropsychology, A Textbook with Readings*. Psychology Press Ltd, Publishers, Hove UK.
- Exter, T., den, Meilof, L., Feiken, J. (2008). *Handleiding Diagnostisch Instrument voor Apraxie van de spraak*. Master Speech and Language Pathology, Rijksuniversiteit Groningen.

- Exter, T. den (2009). *Het Diagnostisch Instrument voor Apraxie van de spraak. Testontwikkeling en betrouwbaarheidsonderzoek*. Scriptie master Speech and Language Pathology, Rijksuniversiteit Groningen.
- Feiken, J., Hofstede, D., Jonkers, R. (2008). De diagnostiek van verbale apraxie. *Logopedie en Foniatrie*, 7/8, 228-234.
- Goodglass, H., Kaplan, E., Barresi, B. (2001). *The assessment of aphasia and related disorders*. Austin, TX: Pro-ed.
- Greatz, P., Bleser, R. de, Willmes, K. (1992). *Akense Afasie Test (AAT)*. Lisse: Swets & Zeitlinger.
- Guilford, J. (1965). Fundamental statistics in psychology and education. In: Boer, J-B. den (Eds.) *Methodologie en statistiek voor communicatie-onderzoek*. (Houten: Bohn Stafleu Van Loghum).
- Haynes, W., Pindzola, R., Emerick, L. (1992). *Diagnosis and evaluation in speech pathology*. Englewood-Cliffs: Prentice- Hall.
- Hofstede, G. (2006). *Verbale apraxie, ontwikkeling van een testinstrument*. Scriptie master Speech and Language Pathology, Rijksuniversiteit Groningen.
- Kent, R., Kent, J., Duffy, J., Thomas, J., Weismer, G., Stuntebeck, S. (2000). Ataxic dysarthria. *Journal of Speech, Language and Hearing research*, 43, 1275-1289.
- Kohn, S. (1984). The nature of the phonological disorder in conduction aphasia. *Brain and language*, 23, 97-115.
- Lambert, J. (1990). *Logopediereeks: Apraxie, bucco-faciale en verbale apraxie*.
- Lambert, J., Rutten, C. (1996). *Frenchay Dysartrie Onderzoek*. Lisse: Swets & Zeitlinger.
- La Pointe, L., Johns, D. (1975). Some phonemic characteristics in apraxia of speech. *Journal of Communication disorders*, 8, 259-269.
- LaPointe, L. (1990). Neurogenic disorders of speech. In: Shames, G., Wiig, E. (eds.) *Human communication disorders*. Columbus, Merrill Publ. Comp.
- Liebold, M., Ziegler, W., Brendel, B. (2002). *Hierarchische Wortlisten. Ein Nasprechtest für die Sprechapraxiediagnostik*. Borgmann, Dortmund.
- McNeil, M., Robin, D., Schmidt, R. (2002). Apraxia of speech: Definition, differentiation and treatment. In: McNeil, M. (ed.) *Clinical Management of sensorimotor speech disorders*. New York/ Stuttgart: Thieme, 311-344.
- McNeil, M. (2002). *Clinical Management of Sensorimotor Speech Disorders*. Thieme Medical Publishers, New York.
- Meilof, L. (2009). *Het Diagnostisch Instrument voor Apraxie van de spraak. Een onderzoek naar het (differentiaal)diagnostische vermogen van het testinstrument*. Scriptie Master Speech and Language Pathology, Rijksuniversiteit Groningen.
- Merwe, A., van der, (1997). A theoretical framework for the characterization of pathological speech sensorimotor control. In: McNeil, M. (ed.) *Clinical management of sensorimotor speech disorders*. New York/ Stuttgart: Thieme, 1-25.
- Monoï, H., Fukusako, Y., Itoh, M., Sasanuma, S. (1983). Speech Sound Errors in Patients with Conduction and Broca's Aphasia. *Brain and Language*, 20, 175-194.
- Mumby, K., Bowen, A., Hesketh, A. (2007). Apraxia of speech: how reliable are speech and language therapist' diagnoses? *Clinical Rehabilitation*, 21, 760-767.
- Nespoulous, J., Joannette, Y., Ska, B., Caplan, D., Lecours, A. (1987). Production deficits in Broca's and conduction aphasia: Repetition vs. reading. In: Keller, E., Gopnik, M. (Eds.) *Motor and sensory processes in language*. (Lawrence Erlbaum Associates).

- Ogar, J., Willock, S., Baldo, J., Wilkins, D., Ludy, C., N. Dronkers (2006). Clinical and anatomical correlates of apraxia of speech. *Brain and Language*, 97, 343-350.
- Ouden, D.B. den (2002). *Phonology in Aphasia. Syllables and segments in level-specific deficits*. Print Partners Ipskamp, Enschede.
- Prathanee, B. (1998). Oral diadochokinetic rate in adults. *Journal of the Medical Association of Thailand*, 81, 784-8.
- Romani, C., Galluzzi, C. (2005). Effects of syllabic complexity in predicting accuracy of repetition and direction of errors in patients with articulatory and phonological difficulties. *Cognitive neuropsychology*, 22, 7, 817-850.
- Schalling, E., Hartelius, L. (2004). Acoustic analysis of speech tasks performed by three individuals with spinocerebellar ataxia. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 56, 367-380.
- Sijbinga, R., Feiken, J., Hofstede, G. (2007). *Handleiding test voor verbale apraxie*. Master Speech and Language Pathology, Rijksuniversiteit Groningen.
- Spencer, K., Rogers, M. (2005). Speech motor programming in hypokinetic and ataxic dysarthria. *Brain and Language*, 94, 347-366.
- Staiger, A., Ziegler, W. (2008). Syllable frequency and syllable structure in the spontaneous speech production of patients with apraxia of speech. *Aphasiology*, 22, 1201-1215.
- Varley, R., Whiteside, S. (2001). What is the underlying impairment in acquired apraxia of speech? *Aphasiology*, 15, 39-84.
- Wertz, R., LaPointe, L., Rosenbek, J. (1984). *Apraxia of speech in adults. The disorder and its management*. Grune & Stratton.
- Ziegler, W. (2002). Task-related factors in oral motor control: speech and oral diadochokinesis in dysarthria and apraxia of speech. *Brain and language*, 80, 556-575.