

Effect muziekbehandeling taal- en spraakstoornissen; een systematische review

Joost Hurkmans¹, Madeleen de Bruijn¹, Annemarijke Boonstra¹,
Roel Jonkers², Roelien Bastiaanse², Hans Arendzen³,
Heleen Reinders – Messelink¹

¹Revalidatie Friesland; ²Rijksuniversiteit Groningen;

³Universitair Medisch Centrum Leiden

Samenvatting

Het doel van deze literatuurstudie is om het effect van muziek in de behandeling van neurologische taal- en spraakstoornissen te onderzoeken. Daarnaast is onderzocht welke werkingsmechanismen mogelijk ten grondslag liggen aan het herstel. Op basis van de vraagstellingen zijn zoektermen geformuleerd. Met deze zoektermen is in databestanden gezocht naar artikelen. Vervolgens zijn inclusiecriteria opgesteld en zijn artikelen die hieraan voldeden beschreven op patiëntkarakteristieken en interventie en de methodologische kwaliteit beoordeeld.

Uit de databestanden kwamen 1250 artikelen naar voren waarvan vijftien artikelen zijn beschreven en beoordeeld. De MIT is het best bestudeerde programma. Melodie en ritme zijn de muziektherapeutische interventies die het meest zijn toegepast. In drie studies is ook onderzoek gedaan naar werkingsmechanismen van gevonden verbetering; deze studies richten zich op waarneembare hersenactiviteit in beide hemisferen. Meetbare verbetering wordt gerapporteerd in alle beoordeelde studies waarbij muziek wordt ingezet in de behandeling van neurologische taal- en spraakstoornissen. De methodologische kwaliteit van de studies is echter laag waardoor geen conclusies kunnen worden getrokken met betrekking tot het effect van muziek in de behandeling van neurologische taal- en spraakstoornissen. Gegevens over werkingsmechanismen zijn tegenstrijdig.

Summary

This systematic review investigates effects of the application of musical elements in the therapy of neurological motor speech disorders. A systematic search in literature

using electronic databases identified 15 studies meeting inclusion criteria. These 15 studies are compared intervention, therapy effects and quality of methodology. MIT is the most studied therapy program, melody and rhythm are next to it mostly used as musical intervention techniques. All studies report recovery after treatment though methodology was evaluated as inadequate. Up till now no conclusions can be revealed concerning the efficacy of treatment using music interventions. PET scan studies propose perspective in mechanisms of recovery. Results of three studies are contradictory and recovery processes remain unclear.

Inleiding

In deze literatuurstudie wordt onderzocht wat het effect van muziek is in de behandeling van neurologische taal- en spraakstoornissen. Dit is interessant omdat muzikale structuren opvallend veel overeenkomsten vertonen met taalstructuren. Deze zijn dan ook veelvuldig beschreven in de literatuur. Het bestuderen van relaties tussen deze twee entiteiten gebeurde al in de negentiende eeuw. Gamer (1892) bestudeerde bijvoorbeeld dierengeluiden en stemgeluid van mensen en transformeerde deze geluidssignalen naar instrumenten, zoals de piccolo en andere fluiten. In de eenentwintigste eeuw worden geavanceerde technieken, zoals event-related potential (ERP), Positron Emission Tomography (PET) en functional Magnetic Resonance Imaging (fMRI), gebruikt om perceptuele elementen van muziek en taal te onderzoeken, om inzicht te verkrijgen in de functionele en neurale architectuur van beide domeinen (Patel, 2003).

Bij patiëntengroepen met taal- en spraakstoornissen wordt muziek ingezet in de behandeling van communicatiestoornissen. Communicatiestoornissen bij neurologische letsels werden in de negentiende eeuw al onderzocht. Broca (1861) beschreef taalstoornissen bij patiënten die getroffen waren door een beroerte. Later ontdekte men dat er patiënten waren die nauwelijks spraken in de spontane taal, maar wel taaluitingen produceerden tijdens het zingen van bekende – vóór de hersenbeschadiging geleerde - liederen (zie bijvoorbeeld Crocker, 1958). Bij patiënten met een niet-vloeiende taalproductie worden melodie en ritme gebruikt om het niet spreken te doorbreken (deblokken) of om de articulatie van het spreken (vloeiendheid) te verbeteren. De meest bekende vorm van therapie die gebruik maakt van melodie en ritme is de Melodic Intonation Therapie (MIT, Albert, Sparks en Helm, 1973). Vanuit de muziektherapie zijn verschillende variaties ontwikkeld vaak gebaseerd op deze MIT-principes (bijvoorbeeld MMIT, Baker, 2000 en SIPARI, Jungblut, 2004). In Nederland is in 1987 de MIT bewerkt (vd Lugt-Wiechen en Verschoor, 1987). Een andere behandelmethode waarin muziek een belangrijke rol speelt is Speech-Music Therapy for Aphasia (SMTA, de Bruijn, Zielman en Hurkmans, 2005).

De therapievormen die muziek inzetten om de taal en spraakvaardigheden te remediëren, zijn ontwikkeld vanuit de klinische praktijk. Ook de SMTA- therapievorm is ontwikkeld vanuit de klinische behandelpraktijk. Er is jarenlange positieve ervaring

opgedaan maar ook van deze therapievorm is geen bewijs voor effectiviteit. Ten behoeve van een studie naar het effect van SMTA is dit literatuuronderzoek uitgevoerd.

Voor deze literatuurstudie is als hoofdvraag geformuleerd: Wat is het effect van muziek in de behandeling van patiënten met neurologische taal- en spraakstoornissen. En als subvraag: Welke werkingsmechanismen verklaren een positief effect van het gebruik van muziek bij patiënten met neurologische taal- en spraakstoornissen?

Methodie

Voor het systematisch zoeken in de literatuur is de volgende lijst met zoektermen opgesteld: <music>, <language>, <speech>, <neurological disorders>, <effect>. Deze zoektermen zijn tot stand gekomen op basis van de hoofdvraagstelling en de subvraagstelling. Van deze zoektermen zijn combinaties gemaakt. In de volgende databestanden is gezocht: PubMed, CINAHL, PsycINFO en EMBASE. Omdat verschillende combinaties van zoektermen zijn gebruikt, is reference manager gebruikt om dubbelingen te filteren. Vervolgens zijn *inclusiecriteria* opgesteld om te beoordelen of een artikel kan bijdragen aan de beantwoording van de vraagstelling. De *inclusiecriteria* waren: 1) effectmetingen door voor- en nameting, 2) muzikale elementen als therapievorm bij taal- en spraakstoornissen op basis van neurologische stoornissen, 3) volwassenen, 4) alle taalmodaliteiten, 5) taalrestricties: alleen Engels-, Frans-, Duits- en Nederlandstalige artikelen werden meegenomen. Onder muziek werd verstaan: één of meer van de muzikale elementen – ritme, melodie, accent -, gehanteerd in vocale en/of instrumentale vorm. Onder taal- en spraakstoornissen werden zowel stoornissen van de productie als van het begrip opgenomen, in alle taalmodaliteiten (spreken, schrijven, lezen en auditief taalbegrip). Tevens werden de volgende *exclusiecriteria* gekozen: amusia, stoornissen in de taalontwikkeling, stotteren, psychiatrische ziektebeelden, dementiële ziektebeelden, gehoorsstoornissen (inclusief woorddoofheid), dementie, stemstoornissen, gezonde proefpersonen (inclusief beroepsmusici), epilepsie, en autisme.

De geselecteerde artikelen zijn door twee referenten (de eerste en tweede auteur) onafhankelijk van elkaar beoordeeld op basis van de samenvatting. Een aantal artikelen zijn vervolgens uitgebreider gelezen, omdat op basis van de samenvatting niet duidelijk werd of ze aan de *inclusiecriteria* voldeden. Beide selecties zijn met elkaar vergeleken. Bij twijfel tussen de twee referenten is een derde beoordelaar geraadpleegd (laatste auteur). Vervolgens is een lijst samengesteld om de artikelen te kunnen beschrijven en heeft een korte pilotstudie plaatsgevonden om deze lijst definitief vast te stellen. Deze pilot bestond uit het lezen en beoordelen van 2 geselecteerde artikelen om te onderzoeken welke variabelen mogelijk meegenomen moesten worden in de beoordeling. Hierna is de lijst definitief vastgesteld. Het invullen van deze lijst geeft een beschrijving van de artikelen op basis van de volgende variabelen: 1) patiëntkarakteristieken: leeftijd, geslacht, opleiding, dominantie, etiologie, logopedische diagnose, tijd post onset, ernst taal-spraakstoornis en muzikale achtergrond, 2) interventie:

doelstelling, ICF¹, programma/methode, vorm, schema, linguïstische niveaus, muzikale parameters en overige logopedische en muziektherapeutische interventie(s). Deze variabelen zijn gekozen omdat ze van invloed kunnen zijn op het resultaat van de behandeling. De variabelen moesten in meer dan 50% van de artikelen vermeld staan anders werden ze uitgesloten van de rapportage.

Vervolgens is de methodologische kwaliteit van de artikelen beoordeeld op de volgende variabelen: studiedesign, blinding, steekproef, vergelijkbaarheid, 'treatment fidelity', uitkomstmaat, significantie, precisie en 'intention-to-treat'. Deze variabelen zijn afkomstig van de richtlijnen van de American Speech and Hearing Association (ASHA) *Quality indicators in the ASHA levels-of-evidence scheme* (ASHA, 2001). Tabel 1 geeft een overzicht van de criteria die gebruikt worden in deze richtlijn, voorzien van een omschrijving en puntentoekenning. De variabelen van de methodologische kwaliteit zijn gekozen om een uitspraak te kunnen doen over de bewijskracht van een artikel. Alle gegevens uit de inventarisatie en beoordeling van de methodologische kwaliteit, zijn gebaseerd op informatie van de auteurs van de artikelen. Wanneer geen informatie vermeld staat, wordt dit aangegeven (niet vermeld, nv). Dezelfde twee referenten hebben de scores onafhankelijk van elkaar bepaald.

Resultaten

Uit de combinatie van zoektermen kwamen 1250 artikelen uit de databestanden naar voren. Uiteindelijk voldeden 18 artikelen aan de inclusiecriteria. Daarbij was overeenstemming bereikt tussen beide referenten. Tijdens het beoordelen van de artikelen bleek dat 3 artikelen alsnog niet voldeden aan de inclusiecriteria waardoor er uiteindelijk 15 artikelen in de beoordeling zijn opgenomen. De resultaten van 583 patiënten worden hieronder weergegeven waarvan 82% van de patiënten zijn bestudeerd in de studie van Popovici (1995).

Patiëntkarakteristieken

Drie variabelen voldeden niet aan het criterium van 50% vermelding: opleiding, dominantie en muzikale achtergrond. Deze variabelen zijn dan ook niet in het overzicht opgenomen.

Tabel 2 geeft een overzicht van de 15 studies en de bijbehorende patiëntkarakteristieken. Diverse leeftijden vanaf 18 jaar zijn vertegenwoordigd in de geïncludeerde studies

¹ ICF staat voor International Classification of Functioning, Disability and Health en is afkomstig van de wereldgezondheidsorganisatie (WHO), zie hiervoor www.rivm.nl. De ICF beschrijft hoe mensen omgaan met hun gezondheidstoestand. Iemands gezondheid is met behulp van de ICF te karakteriseren in lichaamsfuncties en anatomische eigenschappen, activiteiten en participatie.

Tabel 1. Kwaliteitsindicatoren, vertaling van de ASHA richtlijn, *Quality indicators in the ASHA levels-of-evidence scheme* (ASHA, 2001).

Indicator	Omschrijving	Score
studie design	opzet van de studie	gecontroleerde trial (effectonderzoek) = 1 retrospectieve case controle = 1 single subject design = 1 case series = 0 case studie = 0 geen vergelijking (beschrijving) = 0
blinding	blinding geldt alleen voor onderzoekers: onderzoeker weet niet welke therapie gegeven wordt	onderzoeker blind = 1 onderzoeker niet blind = 0
steekproef	methode van kiezen en toekennen van deelnemers	onwillekeurig (at random) = 1 willekeurig = 0
vergelijkbaarheid	homogeniteit bij aanvang van de studie	Homogene groep (between subject design) of goed beschreven (within subject design) = 1 niet vergelijkbaar of niet goed beschreven = 0
treatment fidelity	de behandeling wordt gegeven zoals geprotocolleerd	er is controle toegepast of protocol is gevolgd = 1 er is geen controle toegepast of protocol is niet gevolgd = 0
uitkomstmaat	maten die gehanteerd worden om verbetering te kwantificeren	in ieder geval 1 test is betrouwbaar en valide = 1 geen test of gegevens van betrouwbaarheid en validiteit zijn onbekend = 0
significantie	waarschijnlijkheid dat resultaten bij toeval gevonden zijn	p-waarden gerapporteerd of berekenbaar = 1 geen p-waarden gerapporteerd of berekenbaar = 0
precisie	de grootte of omvang van ieder verschil dat gevonden wordt tussen de experimentele behandeling en de controle conditie	effectgrootte en/of betrouwbaarheidsinterval gerapporteerd of berekenbaar = 1 effectgrootte en/of betrouwbaarheidsinterval niet gerapporteerd of berekenbaar = 0
intention-to-treat (alleen mogelijk bij gecontroleerde studies)	deelnemers zijn geanalyseerd overeenkomstig de groep waar zij aanvankelijk toegewezen werden, ongeacht de mogelijke uitval, gedeeltelijk volgen van protocol of overstappen naar andere therapie.	analyse volgens intention-to-treat = 1 geen analyse volgens intention-to-treat = 0

en hierbij was sprake van een adequate leeftijdsverdeling. Bij vier artikelen wordt geen informatie gegeven over het geslacht. Bij groepsstudies of series casusbeschrijvingen zijn altijd beide sexen vertegenwoordigd. Opvallend in het artikel van Popovici (1995) is het hoge percentage mannen: 77%. In hoeverre dat van invloed is op het resultaat van

Tabel 2. Patiëntenkarakteristieken.

Studie	Aantal	Leeftijd (jaren)	geslacht	Neurologische diagnose	Logopedische diagnose	Tijd post onset	Ernst spraak-taalstoornis
Baker, 2000	2	32 en 30	1 v en 1 m	contusio cerebri (contusiehaarden bijderzijds)	niet-vloeiende afasie en spraakpraxie	9 en 3 mnd	ernstig
Belin et al, 1996	7	40-58	nv	CVA links unilateraal	2 Broca en 5 globaal	4-41 mnd	ernstig
Buttet & Aubert, 1980	7	25-74	2 v en 5 m	CVA links unilateraal	niet-vloeiende afasie en dysartrie	1 week – 11 mnd	nv
Cohen, 1992	8	nv	5 v en 3 m	contusio cerebri en CVA bijderzijds	Broca afasie, spraakpraxie en dysartrie	nv	nv
Cohen & Masse, 1993	32	26-76+	nv	Parkinson, MS, CVA en CP	dysartrie	nv	matig en ernstig
Goldfarb & Bader, 1979	1	50	m	multiële CVA's links frontaal	globale afasie	10 jaar	ernstig
Jungblut & Aldridge, 2004	15	49-76	8 m en 7 v	CVA links	Broca en globale afasie	4-26 jaar	ernstig
Jungblut et al, 2006	1	57	m	CVA links	globale afasie	37 mnd	ernstig
Kim & Tomaino, 2008	7	57-84	2 m en 5 v	enkelvoudige en meervoudige CVA's links	niet-vloeiende afasie, spraakpraxie en dysartrie	9 mnd – 21 jaar	licht, matig en ernstig
Naeser & Helm-Estabrooks, 1985	8	24-62	nv	CVA en contusio cerebri	Broca afasie en globale afasie	0-51 mnd	ernstig
Popovici, 1995	480	17-82	77% m en 23% v	CVA (aneurysma, embolie en infarct), tumor, contusio cerebri	Broca-, Wernicke- en amnestische afasie	nv	licht, matig, ernstig
Schlaug, et al, 2008	2	47 en 58	2 m	CVA links	Broca afasie	12 en 13 mnd	ernstig
Sparks et al, 1974	8	nv	nv	CVA links	niet-vloeiende afasie	> 6 mnd	ernstig
Tamplin, 2008	4	19-51	3 v en 1 m	CVA contusio cerebri	dysartrie	2,5-9,5 mnd	licht-ernstig
Wilson et al, 2006	1	52	m	CVA links	Broca afasie	46 mnd	ernstig

M = man, v = vrouw, nv = niet vermeld, CVA = cerebro vasculair accident, MS = multiële sclerose, CP = cerebral palsy

die studie, wordt niet besproken. In alle studies is CVA de medische diagnose van de behandelde patiënten met uitzondering van Baker (2000); zij beschrijft twee patiënten met een contusio cerebri. Wanneer de locatie van de laesie vermeld staat, is dat in negen gevallen linkszijdig. De logopedische diagnose is in dertien gevallen een niet-vloeiende afasie (afasie van Broca of globale afasie) twee keer samengaand met spraakapraxie. In twee studies (Cohen en Masse, 1993 en Tamplin, 2008) worden alleen patiënten met een dysartrie bestudeerd. De meeste patiënten blijken te zijn behandeld in de chronische fase, hiertoe wordt > 1 jaar post onset gerekend en zij hebben ernstige taal- en spraakstoornissen (de definitie hiervan is in de artikelen niet nader gedefinieerd).

Interventies

Eén variabele voldeed niet aan het criterium van 50% vermelding: overige logopedische en muziektherapeutische interventies en deze variabele is dan ook niet opgenomen in het onderzoek.

In Tabel 3 wordt een overzicht gegeven van de aard van de therapeutische interventies in de 15 betrokken studies. Negen van de vijftien studies bestaan uit het bestuderen van de effectiviteit van de MIT (Albert et al, 1973). De MIT vormt daarmee het best bestudeerde behandelprogramma. De individuele therapievorm is het meest bestudeerd in onze literatuurstudie. Dit kan zowel muziektherapie als logopedie zijn. Combinatiebehandelingen van muziektherapie en logopedie zijn niet beschreven. Het schema van het individuele behandelingsproces is zeer wisselend. De handleiding van de MIT schrijft een intensieve frequentie voor van twee keer per dag, een half uur, vijf dagen behandeling per week, maar deze richtlijn is niet altijd gehanteerd in de onderzoeken naar de effectiviteit van de MIT. Alle doelstellingen zijn geformuleerd op het niveau van lichaamsfuncties. Hierbij zijn zinnen het meest bestudeerd in de studies en melodie en ritme de meest ingezette parameters. Ook hier speelt het feit dat het gebruik van de MIT veel onderzocht is een belangrijke rol: melodie en ritme zijn de voornaamste kenmerken van de MIT.

Methodologische kwaliteit

De methodologische kwaliteit van de studies is zeer wisselend en varieert van een score 0 (Baker, 2000) tot een score 5 (Cohen en Masse, 1993) waarbij geldt dat een maximale score van 9 haalbaar was. De meeste studies – negen in totaal – betreffen een serie van gevalbeschrijvingen. Een opzet als in een Randomised Controlled Trial (RCT) kwam niet voor. Bij geen enkel onderzoek werd melding gemaakt van blinding, het gebruik van het intention-to-treat principe en er ontbreken gegevens over precisie. Een enkele keer was op te maken dat niet voldaan werd aan een kwaliteitskenmerk maar in de meeste gevallen bleef het onbekend. Bij meer dan de helft van de onderzoeken zijn de meetmethoden vooraf niet getoetst op betrouwbaarheid en validiteit. In alle gevallen wordt er gebruikt gemaakt van meerdere uitkomstmaten. Bij vijf studies worden algemene taalttesten als uitkomstmaat gebruikt zoals de Boston Diagnostic Aphasia Examination (BDAE, Goodglass en Caplan, 1972) en de Akense

Tabel 3. Beschrijving interventie.

Studie	doelstelling	ICF	Programma	vorm	schema	Linguïstisch niveau	Muzikale parameters
Baker, 2000	overeenkomsten en verschillen tussen MIT en MMIT	1	MMIT	ind (MT)	3-4x pw, 1 uur, 5-23 mnd	woorden en zinnen	bekende liederen, melodie en ritme
Belin et al, 1996	mechanismen van de MIT	1	MIT	ind (LO)	1-108 mnd, frequentie en duur sessie nv	zinnen	melodie en ritme
Buttet & Aubert, 1980	effectiviteit MIT	1	MIT	ind (LO)	4-10 pw, 20 min, 2-8 mnd	zinnen	melodie en ritme
Cohen, 1992	effect van zingen op spraak	1	zanggroep	groep	3x pw, 30 min, 3 wk	tekst	bekende liederen, melodie en ritme
Cohen & Masse, 1993	effect ritme en zingen op tempo en spraakverstaanbaarheid	1	zanggroep en ritmegroep	groep	2x pw, 30 min, 9 weken	klanken, wrd, zinnen en tekst	bekende liederen, melodie en ritme
Goldfarb & Bader, 1979	effectiviteit MIT	1	MIT	ind (LO)	2x pw, 1 uur, 12 weken + huiswerk	zinnen	melodie en ritme
Jungblut & Aldridge, 2004	effectiviteit SIPARI	1	SIPARI	ind (MT) en groep	1x pw, 1 uur groep, 10 wk en 2x pw, 1 uur ind+groep + huiswerk	nv	bekende liederen, melodie en ritme
Jungblut et al, 2006	effectiviteit SIPARI	1	SIPARI	ind (MT) en groep	48 wk, 1x pw, 45 min ind en 52 wk, 2x p ind+groep	nv	bekende liederen, melodie en ritme

(Continued)

Tabel 3. Continued.

Studie	doelstelling	ICF	Programma	vorm	schema	Linguïstisch niveau	Muzikale parameters
Kim & Tomaino, 2008	ontwikkelen en het meten van effect van een behandelprotocol voor MT	1	muziekprotocol	ind (MT)	2-3x pw, 30 min, 4 weken	klanken en zinnen	bekende liederen ritme en dynamiek
Naeser & Helm-Estabrooks, 1985	relatie tussen leasie-locatie en goede en slechte resultaten van MIT	1	MIT	ind (LO)	nv	zinnen	melodie en ritme
Popovici, 1995	effectiviteit MIT	1	MIT en semantische training	ind (LO)	nv	nv	melodie en ritme
Schlaug, et al, 2008	effectiviteit MIT	1	MIT en SRT	ind (LO)	5x pw, 1,5 uur, 75 sessies totaal + huiswerk	zinnen	melodie en ritme
Sparks et al, 1974	effectiviteit MIT	1	MIT	ind (LO) en groep	nv	zinnen	melodie en ritme
Tamplin, 2008	effectiviteit van zingen op praakverstaanbaarheid	1	zangoefeningen en zingen	ind (MT)	3x pw, 30 min, duur 8 weken	klanken en tekst	melodie, tempo, bekende liederen, ritme
Wilson et al, 2006	effectiviteit MIT	1	MIT	ind (MT)	2x pw, 1 uur, duur 4 weken + huiswerk	zinnen	melodie en ritme

MIT=melodic Intonation Therapy, MMT=Modified Melodic Intonation Therapy, SIPARI=Singen Intonation Prosodie Atmung Rhythmusübungen Improvisationen, ICF, I=lichaamsfuncties, SKT=Speech Repetition Therapy, Ind=individueel, groep=groepsbehandeling, MT=muziektherapie, LO=logopedie, nv=niets vermeld

Afasie Test (AAT, Hubert, en Poeck, 1983). Deze taaltests bevatten testonderdelen uit alle taalmodaliteiten. Hierbij is geen onderscheid vermeld tussen gerelateerde en ongerelateerde taken. Eveneens is er geen verschil vermeld tussen primaire- en secundaire maten. Bij meer dan de helft van de studies is geen gebruik gemaakt van statistische toetsing waardoor de waarschijnlijkheid dat de gevonden resultaten bij toeval gevonden zijn, onbekend is. Een overzicht van de methodologische kenmerken van de 15 studies is weergegeven in Tabel 4.

Effectiviteit van de interventie

Alle studies rapporteren positieve resultaten. Uit de artikelen is echter niet precies op te maken om hoeveel patiënten het gaat omdat de weergave van deze positieve uitkomsten wisselend worden weergegeven. De uitkomstmaten zijn alle op het niveau van lichaamsfuncties. Bij serie gevalsbeschrijvingen wordt beschreven dat sommige patiënten vooruit gaan en een aantal niet of in mindere mate. Bij een aantal uitkomstmaten is (significante) verbetering meetbaar en bij anderen uitkomstmaten niet. Zo verbeterde de spraakverstaanbaarheid bij patiënten in het onderzoek van Cohen en Masse (1993), maar het spreektempo niet.

De beschreven effectiviteit van de 15 studies is schematisch weergegeven in Tabel 5.

Werkingsmechanismen

Bij drie onderzoeken (Belin et al, 1996, Naeser en Helm-Estabrooks, 1985 en Schlaug et al, 2008) zijn aspecten van werkingsmechanismen door middel van PET, CT en fMRI in de studie-opzet meegenomen om het gevonden effecten te verklaren. Deze richten zich voornamelijk op waarneembare hersenactiviteiten bij verschillende taaltaken in één van de beide hemisferen en rond de locatie van de hersenbeschadiging. Overige artikelen geven wel interpretaties aan de gevonden effecten, maar zijn meer speculatief van aard, omdat aspecten van werkingsmechanismen niet in de opzet van de studie meegenomen zijn en derhalve niet objectief waarneembaar zijn.

In de studies waar aspecten van werkingsmechanisme wel zijn meegenomen in de studie-opzet, is de MIT gebruikt als interventieprogramma. De ontwikkelaars van de MIT hebben destijds aannames geformuleerd over de werking van de MIT: de gezonde rechterhersen helft bij patiënten met een niet- vloeiende afasie zou taalactiviteiten overnemen van de beschadigde linker hersen helft. Deze hypothese is meer dan 30 jaar oud en inmiddels weten we dat de plasticiteit van de hersenen groot is en dat reorganisatieprocessen een dynamisch karakter hebben waarbij bij het herstel van taal functies beide hemisferen betrokken worden (o.a. Saur et al, 2006). Ook in onze literatuurstudie zijn artikelen gevonden die informatie verschaffen over de verandering van activiteit in de beide hemisferen, met name na MIT behandelingen. Twee van de drie studies (Naeser en Helm-Estabrooks, 1985 en Schlaug et al, 2008) ondersteunen de hypothesen van de ontwikkelaars van de MIT. Schlaug et al (2008) beschrijven twee patiënten waarvan één patiënt behandeld is met MIT en de andere patiënt een combinatie heeft gevolgd van MIT en een controlebehandeling (SRT; Speech Repetition Therapie). De patiënt van de

Tabel 4. Methodologische kwaliteit.

Studie	Studie design	blinding	steekproef	vergelijkbaarheid	treatment fidelity	Uitkomstmaat	significantie	precisie	intention to treat
Baker, 2000	serie gevalsb.	nv	nee	nee	nv	nee	nee	nv	nv
Belin et al, 1996	serie gevalsb.	nv	nee	ja	nv	ja	ja	nee	nee
Buttet & Aubert, 1980	serie gevalsb.	nv	nee	nee	nv	nee	nee	nv	nv
Cohen, 1992	serie gevalsb.	nv	nee	nee	nv	nee	nee	nv	nv
Cohen & Masse, 1993	groepsstudie	nee	ja	ja	nv	nee	ja	nv	nv
Goldfarb & Bader, 1979	gevvalsbeschrijving	nv	nee	nee	nv	nee	nee	nee	nee
Jungblut & Aldridge, 2004	groepsstudie	nv	nv	ja	nv	ja	ja	nv	nv
Jungblut et al, 2006	gevvalsbeschrijving	nv	nee	ja	nv	ja	nee	nv	nv
Kim & Tomaino, 2008	serie gevalsb.	nv	nee	nee	nv	nee	nee	nee	nee
Naeser & Helm-Estabrooks, 1985	serie gevalsb.	nv	nee	nee	nv	ja	nv	nee	nee
Popovici, 1995	groepsstudie	nv	nv	ja	nv	nee	ja	nv	nv
Schlaug, et al, 2008	serie gevalsb.	nv	ja	ja	nv	ja	nee	nv	nv
Sparks et al, 1974	serie gevalsb.	nv	nee	ja	nv	ja	ja	nv	nv
Tamplin, 2008	serie gevalsb.	nv	nv	nee	nv	ja	ja	nv	nv
Wilson et al, 2006	gevvalsbeschrijving	nv	nee	ja	nv	nee	ja	nv	nv

Gevals b. = gevvalsbeschrijving, Nv = niet vermeld

Tabel 5. Resultaten.

studie	uitkomstmaat	ICF	Aantal	Gemeten verbetering	Methodologische kwaliteit	Verklaring
Baker, 2000	aantal woorden	1	2	bij beide patiënten een verbeterde woordenschat	0	nv
Belin et al, 1996	BDAE, MRI en PET	1	7	verbetering op alle onderdelen van de BDAE (zowel begrip als productie)	4	activiteit in rechter hersenhelft bij taalaactivities zonder melodie en ritme aspecten (naspreken en woordbegrip). Reactivatie in Broca gebied (links) bij taalaactivities met MIT kenmerken.
Buttet & Aubert, 1980	articulatie, naspreken en auditief begrip	1	7	4/7 goede verbetering, 2/7 lichte verbetering, 1/7 geen verbetering	1	nv
Cohen, 1992	6 stem- en spraakaspecten	1	8	3/6 aspecten verbetering	2	nv
Cohen & Masse, 1993	spraakverstaanbaarheid en spreektempo	1	32	zanggroep: verbetering op spraak- verstaanbaarheid, niet op tempo, ritmegroep: geen verbetering verbetering in alle condities	5	nv
Goldfarb & Bader, 1979	naspreken zinnen (3 condities: normaal, met intonatie en met intonatie en ritme	1	1	verbetering in alle condities	1	nv
Jungblut & Aldridge, 2004	AAT	1	15	verbetering op articulatie en prosodie van het onderdeel spontane taal en in de onderdelen NA en BE	4	nv
Jungblut et al, 2006	AAT	1	1	verbetering op alle onderdelen van de spontane taal, TT, NA en BE	3	nv

(Continued)

Tabel 5. Continued.

studie	uitkomstmaat	ICF	Aantal	Gemeten verbetering	Methodologische kwaliteit	Verklaring
Kim & Tomaino, 2008	articulatie, vloeïendheid, prosodie en ademsteun	1	7	op alle parameters is in wisselende mate verbetering meetbaar op alle zeven onderdelen van het protocol	1	nv
Naeser & Helm-Estabrooks, 1985	BDAE en CT scan	1	8	4/8 verbetering op BDAE	2	MIT werkt goed bij patiënten die langzaam en slecht gearticuleerd spreken en relatief goed auditief begrip in combinatie met laesie in Broca gebied, geen laesie in Wernicke gebied en in rechter hemisfeer.
Popovici, 1995	taalbegrip, herhalen en benoemen	1	480	Wernicke>Broca en amnestisch en MIT>semantisch	4	nv
Schlaug, et al, 2008	CIU, aantal syllaben, benoemen en fMRI	1	2	verbetering bij CIU, aantal syllaben en benoemen	4	elementen van MIT, melodische intonatie en ritme, zorgen voor therapie-effecten en verklaren activiteiten in de rechter hemisfeer
Sparks et al, 1974	BDAE, naspreektest en dual spreken	1	8	6 van de 8 patiënten verbetering	4	nv
Tamplin, 2008	SIT, PDT en subjectieve beoordeling van spraak	1	4	kwaliteitsaspecten van spraak en spraakverstaanbaarheid verbeterde, het tempo niet	3	nv
Wilson et al, 2006	aantal syllaben	1	1	verbetering van aantal syllaben	2	nv

BDAE = Boston Diagnostic Aphasia Examination, MRI = Magnetic Resonance Images, PET = Positron Emission Tomography, AAT = Akense Afasie Test, CT = Computer Tomografie, CIU = Correct Information Units, fMRI = Functional Magnetic Resonance Imaging, SIT = Sentence Intelligibility Test, PDT = Picture Description Task, ICF, 1 = lichaamsfuncties, NA = naspreken, BE = benoemen, TT = Token Test, nv = niet vermeld

MIT behandeling liet significant meer fMRI activiteiten zien in de rechter hemisfeer. Naeser en Helm-Estabrooks (1985) bestudeerden twee groepen patiënten die MIT hadden ontvangen: de ene groep verbeterde wel op de BDAE en de andere groep niet. Met CT gegevens zijn overeenkomsten bestudeerd tussen beide groepen. Daaruit bleek dat de groep die goed reageerde op de MIT, laesieplaatsen had in de linker hemisfeer in het Broca gebied. De groep die niet goed reageerde op de MIT had laesies in beide hemisferen en/of in het Wernicke gebied. Eén studie (Belin et al, 1996) bevestigt de hypothese van de ontwikkelaars van de MIT echter niet. Belin et al (1996) bestuurden een groep van 7 niet-vloeiende afasiepatiënten die succesvol de MIT hadden afgerond. Met behulp van PET technieken hebben ze de hersenactiviteiten bestudeerd in rust, bij het luisteren naar woorden, herhalen van woorden en herhalen van woorden volgens MIT principes. Bij deze laatste taalkaak vonden zij significant meer activiteit in het Broca gebied in de linker hemisfeer dan bij de andere taken. Ze zijn dan ook van mening dat er reorganisatieprocessen plaatsvinden in de aangedane hemisfeer bij MIT en geen proces gericht op compensatiemechanismen in de andere hemisfeer.

Belangrijk is te vermelden dat voor deze drie studies vooruitgang is gemeten met een voor- en nameting met taaltests en dat de hersenactiviteiten zijn gemeten met alleen een nameting.

Discussie

Deze studie toont aan dat er veel informatie te vinden is in de literatuur over therapievormen waarbij muzikale elementen worden gebruikt bij patiënten met neurologische taal- en spraakstoornissen. Tevens wordt duidelijk dat er veel lacunes bestaan in zowel de patiëntbeschrijving als de beschrijving van de interventies. Bovendien is de methodologische kwaliteit van de studies laag.

Uit de beschrijving van de patiëntenkarakteristieken in de geïncludeerde studies bleek dat het *opleidingsniveau* bij een derde van de artikelen niet vermeld was. Opleidingsniveau kan een belangrijk aspect zijn met betrekking tot leerbaarheid. Bij het bestuderen van effectiviteit van therapie is informatie over opleidingsniveau van patiënten ons inziens belangrijk. Ook *dominantie* werd bij meer dan de helft van de studies niet vermeld. Met name bij studies naar taal- en spraakstoornissen waarin muziek centraal staat geeft dominantie waardevolle informatie omdat verklaringen van effecten vaak gezocht worden in activiteiten van (een van beide) hemisferen. Meest opvallende lacune van de patiëntbeschrijvingen was de *muzikale achtergrond* (niet nader gedefinieerd in objectiveerbare criteria). Het contrast is groot wanneer de beschrijving van de kenmerken van de taal- en spraakstoornissen uitgebreid is en enige informatie over muzikale achtergrond ontbreekt. Zeker wanneer een interventie bestudeerd wordt waarbij muziek zo'n belangrijke factor is. Tevens valt op dat de muziektherapeutische interventies voornamelijk bestaan uit melodie en ritme. Overige aspecten zoals dynamiek, maatsoort en tempo worden niet benut.

De interventies zijn over het algemeen goed beschreven. De MIT is een internationaal bekend programma. Afwijkingen van de oorspronkelijk beschreven

behandelmethodiek werden adequaat weergegeven. Slechts een enkele keer werd vermeld of patiënten naast het bestudeerde programma (zoals de MIT) ook nog andere logopedische of muziektherapeutische interventies kregen. Nu waren bijna alle patiënten in de chronische fase van het herstelproces maar in de klinische praktijk ontvangen afasiepatiënten diverse vormen van therapie. Belangrijk is dan ook om te weten of gevonden effecten toe te wijzen zijn aan het bestudeerde programma of dat het mogelijk het resultaat is van neven-interventies.

De doelstellingen van de effectstudies waren alle gericht op het niveau van lichaamsfuncties. Bij geen enkele studie zijn uitkomstmaten gebruikt op het niveau van activiteiten en participatie. Hierdoor is onbekend of de gemeten verbetering op functieniveau ook generaliseert naar de toepassing in de dagelijkse communicatie en sociale implicaties heeft.

De bewijskracht van de meerderheid van de beoordeelde studies is laag. Zowel uit praktisch oogpunt maar ook vanwege methodologische gronden (zoals het creëren van een homogene groep) is het nauwelijks haalbaar om een Randomised Controlled Trial (RCT) van voldoende omvang te realiseren. Juist om deze reden zijn er goede alternatieven voor een adequate studie-opzet: single subject designs en case series (Howard, 2003). Hiervan is dan ook veel gebruik gemaakt in de beoordeelde artikelen. Deze designs bieden de mogelijkheid om patiëntenkarakteristieken en de interventie uitgebreid te beschrijven. Het effect van de therapie (ook al is de omvang klein) kan vrij nauwkeurig aangetoond worden. Om een uitspraak te kunnen doen over de effectiviteit van de therapie is dan niet alleen belangrijk de opzet goed te beschrijven maar ook om statistiek toe te passen zodat er significantiewaarden berekend kunnen worden en het kansniveau bekend is. Hier laten de uitkomsten van veel artikelen te wensen over: alle artikelen rapporteren vooruitgang maar bij meer dan de helft van de artikelen is geen statistische analyse toegepast en is het dus onbekend of de verbeteringen op toeval berusten. Dat maakt het moeilijk te bewijzen of de gemeten vooruitgang het resultaat is van de gegeven therapie.

Conclusie

De vraagstelling van dit overzichtsartikel richt zich op de werkzaamheid van muzikale elementen in de therapie bij neurologische patiënten met stoornissen in de taal- en spraakverwerking. Uit ons literatuuronderzoek kwamen 15 artikelen naar voren die voldeden aan de inclusiecriteria.

Samenvattend kunnen we stellen dat meetbare verbeteringen worden gerapporteerd in studies waarbij muziek wordt gebruikt bij de behandeling van patiënten met neurologische taal- en spraakstoornissen. De methodologische kwaliteit van deze studies is echter laag. Hierdoor kunnen geen conclusies worden verbonden met betrekking tot het effect van het gebruik van muziek in de behandeling van deze doelgroep.

De verklaring van de beschreven verbetering blijft onduidelijk: in twee van de drie studies waarbij beeldvormende technieken worden gebruikt om uitspraken te kunnen doen over werkingsmechanismen, wordt verwezen naar de rol van de rechter hemisfeer. De berichtgeving hierover is tegenstrijdig en exacte werking blijft onbekend.

Het wordt hoog tijd dat een methodologisch adequate effectstudie wordt uitgevoerd waarin het effect van muziek wordt onderzocht in de behandeling van neurologische taal- en spraakstoornissen. In Nederland zijn momenteel twee studies over dit onderwerp. In Rijndam Revalidatiecentrum wordt het effect van de MIT bestudeerd in de acute en in de chronische fase en wordt met beeldvormende technieken de onderliggende neurale reorganisatieprocessen van het herstel onderzocht. Bij Revalidatie Friesland zijn de auteurs voornemens om de effectiviteit van SMTA te onderzoeken.

Referenties

- Albert, M.L., Sparks, R.W. & Helm, N.A. (1973) Melodic Intonation Therapy for aphasia, *Archives of Neurology*, 29, 130-131
- ASHA. (2001) *Scope of practice in speech-language pathology* [Scope of Practice]. Available from www.asha.org/policy
- Baker, F.A. (2000) Modifying the Melodic Intonation Therapy Program for Adults with Severe Non-fluent Aphasia, *Music Therapy Perspectives*, 18(2), 110-114
- Belin, P., Eeckhout, van, Ph., Zilbovicius, M., Remy, Ph., François, C., Guillaume, S., Chain, F., Rancurel, G. & Samson, Y. (1996) Recovery from non fluent aphasia after melodic intonation therapy: a PET study, *Neurology*, 47(6), 1504-1511
- Bruijn, de, M., Zielman, T. & Hurkmans, J. (2005) *Speech-Music Therapy for Aphasia, SMTA, Revalidatie Friesland*
- Broca, P. (1861) Remarques sur le siège de la faculté du langage articulé suivis d'une observation d'aphémie, *Bulletin de la Société Anatomique*, 36, 330-357
- Buttet, J. & Aubert, C. (1980) Melodic Intonation Therapy, contribution of neuropsychological reflex activity to clinical medicine, *Rev Med Suisse Romande*, 100(2), 195-199
- Cherney, L., Patterson, J., Raymer, A., Frymark, T. & Schooling, T. (2008) Evidence-Based Systematic Review: Effects of Intensity of Treatment and Constrained-Induced Language Therapy for Individuals With Stroke-Induced Aphasia, *Journal of Speech and Hearing Research*, 52, 1282-1299
- Cohen, N.S. (1992) The effect of singing instruction on the speech production of neurologically impaired persons, *Journal of Music Therapy*, 30(2) 81-99
- Cohen, N.S. & Masse, R.E. (1993) The application of singing and rhythmic instruction as a therapeutic intervention for persons with neurogenic communication disorders, *Journal of Music Therapy*, 30(2) 81-99
- Crocker, D.B. (1958) Using music in a speech therapy program, *Music Therapy*, 7, 103-108
- Gamer, R.L. (1892) The human voice – Human bag pipe – Human piccolo, flute and fife – The voice as a whistle – Music and noise – Dr. Bell and his visible speech. In: *The speech of monkeys*, 185-188, New York, NY, Charles L. Webster and Company

- Goldfarb, R. & Bader, E. (1979) Espousing melodic intonation therapy in aphasia rehabilitation; a case study, *International Journal of Rehabilitation Research*, 2 (3), 333-342
- Goodglass, H. & Kaplan, E. (1972) *Boston Diagnostic Aphasia Examination*. Philadelphia: Lea and Febiger.
- Howard, D. (2003) Single cases, group studies and case series in aphasia therapy. In: Paphathanasiou, I. & De Bleser, R. (eds.) *The Sciences of Aphasia: From Therapy to Theory*. Amsterdam: Pergamon, 245-258.
- Huber, W., Poeck, K. et al (1983) *Aachener Aphasie Test (AAT)*. Protocollheft und handanweisung, Hogrefe Verlag, Göttingen u.a.
- Jungblut, M. & Aldridge, D. (2004) The musictherapy intervention SIPARI (registered trademark) with chronic aphasics-research findings, *Neurologie & Rehabilitation*, 10(2), 69-78
- Jungblut, M., Gerhard, H. & Aldridge, D. (2006) Recovery from chronic Global aphasia by a specific therapy treatment – report of a case, *Neurologie & Rehabilitation*, 12(6), 339-347
- Kim, M. & Tomaino, C.M. (2008) Protocol evaluation for effective Music therapy for persons with nonfluent aphasia, *Topics in Stroke Rehabilitation*, 15(6), 555-569
- Lugt, van der-Wiechen, van, K.G.M & Verschoor, J. (1987) *Een voor het Nederlands taalgebied uitgewerkt programma voor afasietherapie, gebaseerd op de Melodic Intonation Therapy*, Stichting Afasie Rotterdam
- Naeser, M.A. & Helm-Estabrooks, N. (1985) CT scan lesion localisation and response to melodic intonation therapy with non fluent aphasia cases, *Cortex*, 21(2), 203-223
- Patel, A. (2003) Language, music, syntax and the brain, *Nature Neuroscience*, 6(7), 674-681
- Popovici, M. (1995) Melodic Intonation Therapy in the verbal decoding of aphasics, *Romanian journal of neurology and psychiatry*, 33(1), 57-97
- Saur, D., Lange, R., Baumgaertner, A., Schraknepper, V., Willmes, K., Rijntjes, M. & Weiller, C. (2006) Dynamics of language reorganization after stroke, *Brain*, 129, 1371-1384
- Schlaug, G., Marchina, S. & Norton, A. (2008) From singing to speaking: why singing may lead to recovery of expressive language functioning in patients with Broca's aphasia, *Music Perception*, 25(4), 315-323
- Sparks, R., Helm, N. & Albert, M. (1974) Aphasia rehabilitation resulting from melodic intonation therapy, *Cortex*, 10(4), 303-316
- Tamplin, J. (2008) A pilot study into the effect of vocal exercises and singing on dysarthric speech, *Neurorehabilitation*, 23(3), 207-216
- Wilson, S.J., Parsons, K. & Reutens, D.C. (2006) Preserved Singing in Aphasia: a casestudy of the efficacy of Melodic Intonation Therapy, *Music Perception*, 24(1), 23-36