

Voorwoord

Voorwoord Themanummer ‘Gevorderde Lezers met Dyslexie’

Vrijdag 11 januari 2019 vond het afsluitend symposium plaats over de tweede fase van een groot onderzoek dat in 1998 van start ging: het Langlopend Onderzoek Dyslexie, internationaal bekend onder de naam *Dutch Dyslexia Programme* (DDP). De eerste fase van het DDP kon worden uitgevoerd dankzij een miljoenen-subsidie (in guldens) van NWO aan een consortium van de universiteiten van Amsterdam (UvA), Groningen (RUG) en Nijmegen (RU). In het DDP werden 180 kinderen mét en 120 kinderen zónder familiair risico op dyslexie intensief gevolgd vanaf de leeftijd van 2 maanden tot 9 jaar. Twee keer per jaar ondergingen de kinderen een uitgebreid onderzoek, bestaande uit neurofysiologische metingen, assessments van spraak- en taalontwikkeling, afname van een cognitieve testbatterij, en ouder-vragenlijsten. Vanaf de leeftijd van 4 jaar tot in groep 5 van het basisonderwijs werden daar metingen aan toegevoegd van beginnende geletterdheid, en beginnend en begrijpend lezen. Daarnaast liepen er parallel-onderzoeken -deels bij andere populaties kinderen- naar genetische oorzaken en ter evaluatie van verschillende interventies. Deze eerste fase werd in december 2011 afgesloten door een wetenschappelijke conferentie met presentaties van internationale onderzoekers over de hoofdthema's van het DDP: vroege risicofactoren van dyslexie in de familiair-genetische belasting, in de auditieve verwerking, in de ontwikkeling van taal, spraak en leesgerelateerde cognitieve vaardigheden, en in omgevingsfactoren. Hieruit kwam van verschillende invalshoeken duidelijk naar voren dat dé – one-and-only -oorzaak van dyslexie niet bestaat. Dyslexie is het gevolg van een complex van risicofactoren op genetisch, neurologisch, cognitief en gedragsniveau, een duidelijke ondersteuning voor het kort daarvoor gepubliceerde multiple-deficit model van Pennington (*Cognition*, 101, 2006, p.385-413). In 2013 verscheen een special issue van het tijdschrift *Dyslexia* met vier publicaties die een uitgebreid overzicht geven van het onderzoek naar genetica, vroege voorlopers van dyslexie en interventies (zie de literatuurlijst hieronder).

In de jaren 2012 tot 2018 werd het DDP gecontinueerd met financiering van de betrokken universiteiten en nieuwe NWO-subsidies, waarvan de belangrijkste bestond uit een door Geesteswetenschappen gefinancierd programma getiteld ‘Neurolinguistic profiles of devel-

opmental dyslexia in a longitudinal perspective', waarop in 2016 en 2019 twee medewerkers zijn gepromoveerd (zie de literatuurlijst hieronder). In deze tweede fase werden de kinderen verder gevolgd tot aan het einde van het basisonderwijs en begin voortgezet onderwijs, zodat de manifestatie van dyslexie in een meer gevorderd stadium kon worden bepaald. Dit onderzoeksprogramma was gericht op de latere manifestaties van familiair risico, en dan vooral op verschillen tussen familiair risicokinderen die wél of géén dyslexie ontwikkelen. In fase één was gevonden dat de kinderen met een familiair risico zonder dyslexie (FR-nondys) als groep op een aantal leesgerelateerde vaardigheden slechter presteerden dan de controlegroep, en beter dan de familiair risico-groep mét dyslexie (FR-dys). Op een aantal andere vaardigheden presteerde de FR-nondys groep gelijk aan de controlegroep. De vraag was nu hoe dit zich verder ontwikkelt bij meer gevorderde lezers na enkele jaren leesonderwijs. Is het zo dat bij de FR-nondys kinderen de zwakke leesgerelateerde vaardigheden in enkele jaren normaliseren, zodat het verschil met de controlegroep afneemt of verdwijnt? Of is het zo dat de FR-nondys groep aan dyslexie weet te ontsnappen door te compenseren met sterke ontwikkeling in andere vaardigheden? Eénduidige antwoorden werden niet gevonden, maar zoals hieronder zal blijken deden beide profielen zich voor. Een heel specifiek onderdeel van dit tweede-fase DDP-programma, waarin normalisatie en compensatie een rol speelden, betrof een onderzoek naar auditieve en fonologische waarneming en lateralisatie daarvan in de ontwikkelingsperiode van de tweede helft van het basisonderwijs, de periode waarin leesvaardigheden versnellen en automatiseren. Uit dat onderzoek kwamen zowel verschillen naar voren tussen de kinderen mét en zónder familiair risico ongeacht dyslexie, als verschillen tussen kinderen mét en zónder dyslexie ongeacht familiair risico. Een beschrijving van dit onderzoek ontbreekt in dit themanummer, maar een volledige weergave van deze studies is te vinden in het proefschrift en de wetenschappelijke artikelen van Britt Hakvoort (zie literatuurlijst).

Het voor scholing, werk en dagelijks leven misschien wel belangrijkste lange-termijn effect van dyslexie is dat op begrijpend lezen. Voor het onderzoek van dit lange-termijn effect op zich, en in het kader van de vraagstelling met betrekking tot normalisatie en compensatie, vormden de overeenkomsten en verschillen in leesontwikkeling tussen de FR-dys, FR-nondys en controlegroepen een centraal onderdeel van het onderzoeksprogramma in de tweede fase van het DDP. De eerste twee artikelen in dit themanummer gaan dieper op dit onderwerp in. Het eerste artikel, van Ellie van Setten e.a., bespreekt onderzoek naar de wijze waarop (een familiair risico op) dyslexie zich manifesteert bij kinderen in groep 8 van het basisonderwijs, zodat een integraal beeld van deze leerstoornis op de langere termijn werd verkregen. Onderzocht werden de primaire woordleesstoornis, onderliggende deficiënties in fonologisch en orthografisch bewustzijn, automatiseren en visuele aandacht, en eventuele secundaire problemen die niet direct onder de definitie van dyslexie vallen maar hier mogelijk wel mee geassocieerd zijn. Door de drie groepen kinderen van het DDP (FR-dys; FR-nondys en controle) verder te volgen maakte dit design het mogelijk om te bepalen of de onderzochte factoren geassocieerd zijn met het familiair risico op dyslexie of vooral met de leesstoornis zelf. De resultaten laten zien dat de dyslectische groep in het algemeen lager scoort dan de twee niet-dyslectische groepen. Vooral bij de technische leestesten op woord-

en zinsniveau en de testen die de onderliggende cognitieve vaardigheden meten, zijn de verschillen groot, maar ook op begrijpend lezen, woordenschat, rekenen en de CITO-eindtoets scoort de groep met dyslexie minder goed. De scores van de FR-nondys groep zijn over het algemeen iets lager dan de scores van de controlegroep, maar de meeste van deze verschillen zijn niet significant. Er werd geen verschil tussen de groepen gevonden in het algehele welbevinden op school; wel zijn kinderen met dyslexie zich zeer bewust van hun lees- en spellingsproblemen en van het feit dat ze extra hulp nodig hebben. Daarnaast lezen kinderen met dyslexie minder vaak thuis en hebben relatief veel van deze kinderen een leerjaar gedoubleerd. De algehele conclusie luidde dat de grootste verschillen in testuitslagen tussen groepen specifiek geassocieerd zijn met dyslexie, en niet zozeer met het familiair risico op dyslexie.

Het tweede artikel, van Peter de Jong e.a., analyseert het longitudinale beloop van de leesgerelateerde risicofactoren vanaf de leeftijd van 4 jaar, begin van groep 1 basisonderwijs, bij de gehele onderzoekspopulatie van kinderen met en zonder familiair risico. In een eerste analyse werden de vroege risicofactoren geanalyseerd. Daaruit kwam naar voren dat de FR-dys kinderen een achterstand vertonen op een scala aan leesgerelateerde cognitieve factoren. Interessant was dat ze ook een wat hoger familiair risico hadden dan de FR-nondys kinderen: hun ouders lazen nog wat slechter. De FR-nondys kinderen hadden milde problemen met lezen en spellen en een kleine achterstand op de voorlopers van het lezen. Het tweede deel van de analyses betrof de invloed van familiair risico op de ontwikkeling van geletterdheid, en technisch en begrijpend lezen. Er werden longitudinale regressie-analyses verricht op de testresultaten vanaf 4-jarige leeftijd tot ongeveer 12 jaar, halverwege groep 8. In longitudinaal perspectief had een familiair risico een negatieve invloed op de ontwikkeling van technisch en begrijpend lezen. De verwachting was dat de effecten van FR op begrijpend lezen volledig via de ontwikkeling van technisch lezen zouden lopen, maar dat bleek niet het geval. Onverwacht bleek familiair risico ook een direct effect op begrijpend lezen in groep 8 te hebben, waarbij het van belang is op te merken dat familiair risico geen effect had op de ontwikkeling van de woordenschat, naast technisch lezen de andere pijler van begrijpend lezen. Verder worden de consequenties besproken van deze bevindingen voor zowel de vroegdiagnostiek en -behandeling als voor de interventies gedurende het gehele basisschooltraject.

Het derde artikel in dit themanummer van Wim Tops e.a. is niet voortgekomen uit het DDP, maar sluit wel goed aan op het thema gevorderde lezers met dyslexie. Het betreft een grootschalig, longitudinaal onderzoek aan de Universiteit Gent naar studeren met dyslexie in het hoger onderwijs met als doel een breed beeld te krijgen van de eerste drie academiejaren van studenten met dyslexie in het hoger onderwijs in Vlaanderen. Als groep presteerden de studenten met dyslexie vooral op het gebied van lezen en spellen minder goed dan de studenten zonder dyslexie; waarbij spelling meer was aangedaan dan lezen. Daarnaast bleek bij studenten met dyslexie een lagere verwerkingssnelheid dan bij studenten zonder dyslexie onder andere bij het oproepen van verbale informatie uit hun langetermijngeheugen. Wat (vloeiende) intelligentie betreft werd er geen verschil gevonden tussen beide groepen.

Na drie jaar behaalden 70% van de controlestudenten tegenover 57% van de studenten met dyslexie een bachelordiploma, een niet-significant verschil. Wel werden significant hogere dropoutcijfers gevonden bij studenten met dyslexie in vergelijking met studenten zonder dyslexie. Studenten met dyslexie hadden een verhoogde kans om tijdens het academiejaar hun studierichting af te breken en/of van richting te veranderen. Momenteel wordt onderzocht welke factoren hiervoor verantwoordelijk zijn. Een belangrijke bevinding van deze studie blijft dat studenten met dyslexie ontgensprekelijk voor extra uitdagingen staan maar dat verder studeren ook voor hen zeker een haalbare kaart is. Geconcludeerd wordt dat studenten met dyslexie gebaat zijn bij een goede studiekeuzebegeleiding en voorbereiding van de transitie van het secundair naar het hoger onderwijs.

Het vierde en vijfde artikel gaan over onderzoek naar neurologische aspecten van dyslexie en van familiair risico op dyslexie. Beide artikelen zijn gedeeltelijk gebaseerd op data uit het DDP. Jolijn Vanderauwera e.a. geven een literatuuroverzicht en rapporteren eigen onderzoek, voor een deel in het kader van DDP, over afwijkingen in het neurale leesnetwerk bij kinderen met dyslexie voorafgaand aan en gedurende de leesontwikkeling. Recent hersenonderzoek richt zich in toenemende mate niet alleen op de grijze stof, de netwerken van neuronen, maar ook op de witte stofbanen, de grote verbindingen tussen die netwerken. Van specifieke witte stofbanen tussen de frontale, pariëtale en temporale gebieden is aangetoond dat deze structureel minder goed zijn aangelegd bij volwassenen met dyslexie in vergelijking met vloeiende lezers. De onderzoeksvraag die in dit artikel wordt geadresseerd is of deze verschillen het gevolg zijn van de belemmerde leesontwikkeling, of er juist aan de basis van liggen. Besproken wordt een aantal longitudinale studies die startten voor aanvang van de leesontwikkeling en de leesontwikkeling volgden aan de hand van gedragsmetingen en metingen van neurale kenmerken van het leesnetwerk. Het blijkt dat bepaalde, subtiele afwijkingen in de arcuate fasciculus (een belangrijke pariëtaal - frontale witte stofbaan) bij kinderen die later dyslexie ontwikkelen al op kleuterleeftijd voorkomen, vóór enige vorm van leesinstructie. Tevens blijkt plasticiteit van de witte stofbanen: de verbindingen tussen gebieden die deel uitmaken van het neurologische leesnetwerk, worden structureel sterker door specifieke leestraining. Deze studies bieden inzicht in de onderliggende neurologische structuren die betrokken zijn bij het ontstaan en in stand houden van dyslexie, en geven aanknopingspunten voor interventies op de neurale leesprocessen van beginnende en gevorderde lezers.

Het vijfde artikel van Ben Maassen gaat over een neurofysiologische component van het leesproces: 'Print tuning'. Het artikel is gebaseerd op drie promotie-onderzoeken aan de Rijksuniversiteit Groningen, waaronder dat van Ellie van Setten in het kader van het DDP. Doel van dit artikel is een specifieke neurofysiologische indicator van leesvaardigheid te introduceren en te toetsen op bruikbaarheid voor diagnostiek en vervolg-evaluaties. Deze indicator betreft de electrofysiologische N1-component: een negatieve piek in het ERP-signaal die optreedt in het occipito-temporale gebied van de linker hersenhelft na visuele aanbieding van woorden. Bij volwassen, ervaren lezers piekt deze component 170 tot 220 ms ná aanbieding van een woord en heeft een grotere amplitude dan bij visuele aanbieding

van plaatjes, gezichten of een reeks niet-letter symbolen. Omdat deze component de automatische visuele verwerking van woorden lijkt te reflecteren, staat deze component bekend onder de naam 'print tuning'. Onderzocht wordt of print tuning een goede diagnostische markeerder is voor de diagnose dyslexie bij volwassenen; of print tuning daarnaast kan dienen als voorspeller van leesproblemen bij beginnende lezers; en hoe de ontwikkeling van print tuning verloopt gedurende de gevorderde leesontwikkeling aan het einde van het basisonderwijs. Op dit moment lopen er wereldwijd projecten ter evaluatie van GraphoGame, een 'serious game' voor vroege leestraining, dat ook zijn toepassing vindt in dynamische assessment. In combinatie met een dergelijke game en met het beschikbaar komen van consumenten-elektronica voor het meten van EEG en ERP, zou print-tuning een rol kunnen gaan spelen in de vroegsignalering van leesproblemen gedurende de eerste maanden van het leesonderwijs.

In de kern is dyslexie '... een hardnekkig probleem in het aanleren van accuraat en vlot lezen en/of spellen op woordniveau ...' (Brochure SDN, 2016). Uit het onderzoek van vooral de afgelopen twee decennia is echter gebleken dat dyslexie niet alleen op alle niveaus: genetisch, neurologisch, cognitief en gedragsmatig multi-factorieel wordt bepaald, maar dat zich ook op al die niveaus bijkomende problemen kunnen voordoen. Daarnaast zijn er secundaire factoren in de taal- en schoolontwikkeling, en de psychosociale ontwikkeling, die negatief beïnvloed kunnen worden door dyslexie. De artikelen in dit themanummer vormen de weerslag van het DDP en parallel-onderzoeken naar de effecten van dyslexie en deze bijkomende factoren bij gevorderde lezers op de middellange en langere termijn.

We hopen dat dit themanummer een verdiepend inzicht geeft in deze complexe materie en wensen u veel leesplezier.

Groningen, Amsterdam juni/oktober 2021

Ben Maassen, Aryan van der Leij, Natasha Maurits

Literatuur

Special Issue DDP in Dyslexia 2013

van der Leij, A., & Maassen, B. (2013). Dutch dyslexia programme. *Dyslexia*, 19(4), 189-190.

van der Leij, A., van Bergen, E., van Zuijlen, T., de Jong, P., Maurits, N., & Maassen, B. (2013).

Precursors of developmental dyslexia: An overview of the longitudinal Dutch dyslexia programme study. *Dyslexia*, 19(4), 191-213.

Carrion-Castillo, A., Franke, B., & Fisher, S. E. (2013). Molecular genetics of dyslexia: An overview. *Dyslexia*, 19(4), 214-240.

van der Leij, A. (2013). Dyslexia and early intervention: What did we learn from the Dutch dyslexia programme? *Dyslexia*, 19(4), 241-255.

Regtvoort, A., Zijlstra, H., & van der Leij, A. (2013). The effectiveness of a 2-year supplementary tutor-assisted computerized intervention on the reading development of beginning readers at risk for reading difficulties: A randomized controlled trial. *Dyslexia*, 19(4), 256-280.

Recente kernpublicaties uit het DDP

van Viersen, S., de Bree, E.H., Zee, M., Maassen, B., van der Leij, A., & de Jong, P.F. (2018). Pathways Into Literacy: The Role of Early Oral Language Abilities and Family Risk for Dyslexia. *Psychological Science*, 29(3), 418-428.

van Viersen, S., de Bree, E. H., Verdam, M., Krikhaar, E., Maassen, B., van der Leij, A., & de Jong, P.F. (2017). Delayed early vocabulary development in children at family risk of dyslexia. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 60(4), 937-949.

Dissertaties NWO-programma 'Neurolinguistic profiles of developmental dyslexia in a longitudinal perspective'

Hakvoort, B. (2016). *Speaking of reading. The role of basic auditory and speech processing in the manifestation of dyslexia in children at familial risk*. Doctoral Dissertation, University of Amsterdam, 19 May 2016. *Promotores: Prof. dr. D.A.V. van der Leij; prof. dr. B.A.M. Maassen; Dr. T.L. van Zuijen*.

van Setten, Ellie R. H. (2019). *Neurolinguistic profiles of advanced readers with developmental dyslexia*. Doctoral Dissertation, Groningen University, 10 January 2019. *Promotores: Prof. dr. B.A.M. Maassen; prof.dr.ir. N.M. Maurits*

Publicaties NWO-programma 'Neurolinguistic profiles of developmental dyslexia in a longitudinal perspective'

Hakvoort, B., van der Leij, A., Maurits, N., Maassen, B., & van Zuijen, T. L. (2015). Basic auditory processing is related to familial risk, not to reading fluency: An ERP study. *Cortex*, 63(0), 90-103.

Hakvoort, B., van der Leij, A., van Setten, E., Maurits, N., Maassen, B., & van Zuijen, T. (2016). Dichotic listening as an index of lateralization of speech perception in familial risk children with and without dyslexia. *Brain and Cognition*, 109, 75-83.

Hakvoort, B., de Bree, E., van, d. L., Maassen, B., van Setten, E., Maurits, N., et al. (2016). The role of categorical speech perception and phonological processing in familial risk children with and without dyslexia. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 59(6), 1448-1460.

van Setten, Ellie R. H., Hakvoort, B. E., van der Leij, A., Maurits, N. M., & Maassen, B. A. M. (2018). Predictors for grade 6 reading in children at familial risk of dyslexia. *Annals of Dyslexia*, 68(3), 181-202.

van Setten, E.R.H., Tops, W., Hakvoort, B. E., van der Leij, A., Maurits, N. M., & Maassen, B. A. M. (2017). L1 and L2 reading skills in Dutch adolescents with a familial risk of dyslexia. *PeerJ*, 5, e3895.

- van Setten, E. R. H., Maurits, N. M., & Maassen, B. A. M. (2019). N1 lateralization and dyslexia: An event-related potential study in children with a familial risk of dyslexia. *Dyslexia (Chichester, England)*, 25(1), 84-102.
- van Setten, E. R. H., Martinez-Ferreiro, S., Maurits, N. M., & Maassen, B. A. M. (2016). Print-tuning lateralization and handedness: An event-related potential study in dyslexic higher education students. *Dyslexia*, 22(1), 64-82.
- Vanderauwera, J., van Setten, E. R. H., Maurits, N. M., & Maassen, B. A. M. (2019). The interplay of socio-economic status represented by paternal educational level, white matter structure and reading. *PloS One*, 14(5), e0215560.