



MEDICINSKA FAKULTETEN

Lunds universitet

Avdelningen för logopedi, foniatri och audiologi

Institutionen för kliniska vetenskaper, Lund

Utvärdering av talet vid fem års ålder efter primär gomplastik med muskelrekonstruktion enligt Sommerlad

Evelina Falk och Sara Wilhelmsson

Logopedutbildningen, 2016

Vetenskapligt arbete, 30 högskolepoäng

Handledare: Kristina Klintö och Magnus Becker

Sammanfattning

Syfte: Att undersöka talet hos femåringar födda med någon typ av gomspalt, behandlade med primär gomplastik med muskelrekonstruktion enligt Sommerlad, samt att undersöka samstämmigheten i resultat baserade på talbedömningar utförda av logopedstudenter och erfarna logopeders.

Metod: Ljudinspelningar av 81 femåringar födda med läpp-käk-gomspalt (LKG) analyserades av tre oberoende logopeders. Variabler relaterade till konsonantproduktion, velofarynxfunktion samt förståelighet undersöktes. Barnen delades in efter spalttyp och gruppjämförelser genomfördes. Resultaten jämfördes också med normdata från jämnåriga utan spalt. Samstämmigheten mellan logopeders och logopedstudenters resultat beräknades.

Resultat: Barnen med LKG hade sämre tal än barn utan LKG vad gäller samtliga variabler. Signifikanta skillnader gällande andelen korrekta orala konsonanter (AKOK), talavvikelse framför och bakom velofarynx sågs mellan grupper med olika spalttyper, med sämre resultat i grupperna med mer omfattande spalttyper. Logopedstudenterna var strängare i bedömningar gällande AKOK och talavvikelse framför velofarynx än logopederna, men hade svårare att uppmärksamma talavvikelse bakom velofarynx. Intrabedömarreliabiliteten hos logopedstudenterna och logopederna var likvärdig.

Slutsatser: Barnen med LKG hade ett sämre tal än barn utan LKG, men ett relativt gott tal i relation till barn med LKG från tidigare studier. Barn med större spalter hade ofta större talproblematik än de med mindre spalter. Logopedstudenterna var generellt strängare i sina bedömningar än logopederna.

Sökord: Cleft palate, primary palatal surgery, speech, assessment

Abstract

Aims: To investigate speech in five-year-olds born with cleft lip and palate (CLP), treated with primary palatal surgery with muscle reconstruction according to Sommerlad, and to compare speech assessments performed by speech-language pathology students and speech-language pathologists (SLPs).

Methods: Audio recordings of 81 five-year-olds with some type of CLP were analysed by three independent SLPs. Outcomes of consonant production, velopharyngeal function and intelligibility were examined, compared with normative data, and assessed in relation to cleft type. Agreement of results based on assessments by students and SLPs was calculated.

Results: Children with CLP had poorer speech than peers without CLP. There were significant differences related to cleft type regarding proportion oral consonants correct (PCC), speech errors in front of (SEF) and behind velopharynx (SEB), with poorer results in children with more extensive clefts. The students were more rigorous regarding PCC and SEF than the SLPs, but milder regarding SEB. The intra agreement of students and SLPs were equivalent.

Conclusions: The children with CLP had poorer speech than peers without CLP, but a relatively good speech compared to previous studies. Speech was poorer in many children with more extensive clefts. The students were generally more rigorous in their assessments than the SLPs.

Key Words: Cleft palate, primary palatal surgery, speech, assessment

INNEHÅLLSFÖRTECKNING

	Sid
INLEDNING.....	1
BAKGRUND.....	1
Läpp-käk-gomspalt (LKG).....	1
Incidens och uppkomst.....	1
Olika typer av LKG.....	1
Det svenska vårdprogrammet för barn födda med LKG.....	2
LKG-relaterade talavvikelser.....	2
Talutveckling hos barn födda med LKG.....	3
Primär gomplastik.....	4
Operationsmetodens inverkan på talutvecklingen.....	5
Perceptuell bedömning vid LKG.....	6
Transkription och skalskattning.....	6
Reliabilitet.....	6
Syfte och frågeställningar.....	7
METOD.....	8
Deltagare.....	8
Operationsmetod.....	8
Dokumentation.....	9
Redigering.....	10
Perceptuell bedömning.....	10
Analys av transkriptioner.....	11
Statistisk analys.....	11
Reliabilitet.....	11
RESULTAT.....	13
Resultaten för hela gruppen barn födda med någon typ av gomspalt.....	13
Jämförelse av grupper med olika spalttyper.....	13
Jämförelse av resultat baserade på bedömningar av studenter och erfarna logopeders... ..	15
Studenternas intrabedömarreliabilitet.....	17
DISKUSSION.....	19
Resultat för barnen med någon typ av gomspalt jämfört med normdata och tidigare studier.....	19
Talet hos barn med olika typer av gomspalt.....	20

Tidpunkt och metod för operation.....	22
Logopedstudenternas bedömningar jämfört med bedömningar av erfarna logopeders....	22
Metoddiskussion.....	24
Fortsatt forskning.....	24
Slutsatser och kliniska implikationer.....	25
TACK.....	25
REFERENSER.....	26
APPENDIX 1: Tillägg till riktlinjerna i SVANTE-manualen.....	31
APPENDIX 2: SVANTE-normering	32

Inledning

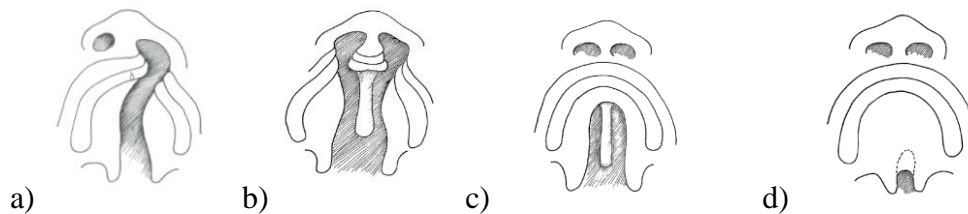
I denna studie undersöktes talet hos femåriga barn födda med någon typ av gomspalt, behandlade med primär gomplastik vid Skånes Universitetssjukhus (SUS). En gomspalt kan påverka talutvecklingen negativt (Klintö, Salameh, & Lohmander, 2016). Metod och tidpunkt för den primära gomslutningen anses ha betydelse för talets utveckling, men det är ännu inte klarlagt vilken operationsmetod som ger bäst resultat (Lohmander, 2011). Vid Sveriges sex olika centra för läpp-käk-gomspalt (LKG), och även internationellt, används olika metoder för primär gomslutning (Klintö, Svensson, Elander, & Lohmander, 2014b; Shaw et al., 2000). För att behandlingsmetoderna ska kunna utvecklas och förbättras, behöver de utvärderas kontinuerligt. Idag används enstegs slutning med muskelrekonstruktion enligt Sommerlad för primär gomslutning vid SUS. Denna metod har inte tidigare utvärderats i Sverige, och det är även första gången som talet hos femåringar födda med gomspalt behandlade vid SUS utvärderas. Dessutom undersöktes huruvida logopedstudenternas bedömningar av barnens tal skilde sig ifrån de erfarna LKG-logopedernas bedömningar. Detta gjordes för att se om bedömningar blir olika beroende på om bedömmaren är erfaren eller om bedömmaren är tränad, men oerfaren.

Bakgrund

Läpp-käk-gomspalt (LKG)

Incidens och uppkomst. LKG är en av de vanligaste medfödda missbildningarna, med en incidens på 1,8 per 1000 födda barn i Sverige (Hagberg, Larson, & Milerad, 1998). Både ärftliga faktorer (Suslak & Desposito, 1988) och miljömässiga faktorer så som rökning (Honein et al., 2007; Källén, 1997), medicinering (Hanson, Myriantopoulos, Harvey, & Smith, 1976), olika typer av droger (Hanson et al., 1976) och vitaminbrist (Wilcox et al., 2007) anses påverka ansiktets tillväxt i fosterstadiet. Missbildningen uppkommer under graviditetsvecka fem till tolv, då det är under denna tid som sammanväxning av gommen sker. Om sammanväxning inte sker som förväntat under dessa veckor, föds barnet med någon typ av spalt (Moore & Persaud, 2008).

Olika typer av LKG. Spalttyperna kan delas in i olika grupper beroende på var spalten är belägen. Spalt i enbart läppen och käken utgör ungefär 25 % av alla spalter och är vanligare hos pojkar än hos flickor (Hagberg et al., 1998). Den här typen av spalt leder sällan till talsvårigheter. Spalter som går genom både läppen, käken och gommen (genomgående spalter) utgör ca 35 till 40 % av fallen med LKG och är mer än dubbelt så vanlig hos pojkar som hos flickor (Hagberg et al., 1998). De genomgående spalterna förekommer både unilateralt och bilateralt (Figur 1a och 1b). Av dessa spalter utgörs 70 % av unilateral LKG och resterande av bilateral LKG (Hagberg et al., 1998). Spalter som involverar enbart den hårda och/eller mjuka gommen är vanligare hos flickor och utgör ca 40 % av fallen (Hagberg et al., 1998). Spalter i gommen förekommer i olika grader, allt från kluven uvula, partiell spalt i mjuka gommen, spalt i hela mjuka gommen, spalt i hela mjuka gommen och en bit in i hårda gommen samt spalt i hela mjuka och hårda gommen (Lohmander et al., 2015) (Figur 1c och 1d). Submukös gomspalt innebär spalt i muskelvävnad med övertäckande intakt slemhinna. Den behandlas bara om spalten ger upphov till talbesvär (Lohmander et al., 2015) och barn med denna spalttyp inkluderades därför inte i föreliggande studie. I ungefär 20 % av fallen med LKG förekommer spalten som en del i ett syndrom (Lohmander, Friede, & Lilja, 2012). Syndrom i samband med LKG kan inverka negativt på behandlingsresultaten. Till exempel förekommer ofta språkliga svårigheter i samband med syndrom (Persson, Elander, Lohmander-Agerskov, & Söderpalm, 2002). I föreliggande studie har därför barn med syndrom och tillkommande missbildningar exkluderats och deras resultat kommer att undersökas i en parallell studie.



Figur 1. a) Unilateral läpp-käk-gomspalt (LKG) sedd underifrån. b) Bilateral LKG. c) Isolerad gomspalt. d) Partiell gomspalt. Illustration av Liisi Raud Westberg.

Det svenska vårdprogrammet för barn födda med LKG. LKG påverkar flera strukturer och funktioner i olika grad, till exempel ätandet, joller- och talutvecklingen, örts funktion och hörseln, tändernas och käkens tillväxt och ansiktets utseende. Barnen med LKG behandlas vid något av Sveriges sex olika LKG-centra (Umeå, Uppsala, Stockholm, Göteborg, Linköping eller Malmö), av ett team bestående av flera olika professioner, till exempel plastkirurg, specialisttandläkare, logoped, ÖNH-läkare (audiolog/foniater), kurator och omvårdspersonal. Psykolog, genetiker och barnläkare kan också ingå i teamet. Efter den tidiga primära behandlingen följs barnen upp av teamet vid fem, sju, tio, 13-, 16- och 19- års ålder.

Vilka primära operationer som utförs beror bland annat på vilken spalttyp som föreligger. Vid större genomgående spalter krävs operation både i läpp-näsa, käke och gom. Vid isolerad gomspalt krävs i allmänhet endast en eller två operationer, beroende på valet av operationsmetod. Läpp-näsplastiken utförs vid tre till sex månaders ålder. För att optimera de strukturella förhållandena inför läpp-näsplastiken kan preoperativ ortodontisk behandling utföras (Barillas, Dec, Warren, Cutting, & Grayson, 2009). Den primära gomplastiken utförs vid två av sex behandlingscentra i Sverige (Malmö, Linköping) i en seans mellan nio och 15 månaders ålder. Vid övriga fyra behandlingscentra (Göteborg, Stockholm, Uppsala, Umeå) sluts mjuka gommen samtidigt med läppen vid fyra till sex månaders ålder, och den hårda gommen vid två års ålder. Vid åtta till tio års ålder sluts käkspalten genom att ben transplanteras från sken- eller höftbenet. Inför operationen brukar barnen genomgå ortodontisk behandling. Därutöver kan sekundära operationer bli aktuella, som till exempel talförbättrande operation och sekundära operationer i syfte att korrigera bittet och utseendet.

Vid SUS följer logopeden barnet från det att barnet är nyfött. Vid 18 månaders ålder följer logopeden upp jollerutvecklingen. Därefter träffar logopeden barnet vid tre års ålder och sedan i samband med de rutinmässiga LKG-konferenserna. Logopeden spelar in och analyserar barnets tal och handleder föräldrarna. Vid behov remitteras barnet till logoped på hemorten för behandling. Vid misstanke om bristande velofarynxfunktion (d v s oförmåga att sluta tätt mellan mun- och näshålan) som påverkar talet negativt, kan barnet remitteras till videoradiografisk undersökning. Därefter tas beslut om huruvida sekundär talförbättrande operation är aktuell.

LKG-relaterade talavvikelser

För att reglera den luftström från lungorna som krävs för produktion av orala språkljud, behöver man kunna stänga passagen mellan mun och näshåla. Detta görs med hjälp av mjuka gommen (velum) och svalgväggarna (farynx). Vid nasala språkljud är passagen öppen. Öppning och stängning av velofarynx sker genom automatiserat muskelarbete. Vid oopererad gomspalt, disproportion mellan gommens längd och svalgets djup och otillräcklig/okoordinerad muskelfunktion uppstår velofarynxinsufficiens, d v s velofarynxfunktionen är bristfällig

(Lohmander et al., 2015). Ibland kan även en fistel eller en restspalt ge upphov till velofarynxinsufficiens (Lohmander et al., 2015).

Velofarynxinsufficiens kan orsaka hypernasalitet, tryckreducerad artikulation samt hörbart nasalt luftläckage, vilket kan ge ett svårförståeligt tal (Lohmander et al., 2015). Dessa talavvikelser kallas ofta passiva, d v s individen gör inte något aktivt för att kompensera bristen på intraoralt tryck (Harding & Grunwell, 1998). Hypernasalitet är den vanligaste klangavvikelsen vid gomspalt, och den är framförallt tydlig vid vokaler. Hörbart nasalt luftläckage är en typ av biljud från näsan i form av nasala genomslag och/eller velofaryngeala friktionsljud, som vanligen förekommer vid tryckstarka konsonanter. Biljud kan också uppstå vid luftläckage genom en fistel eller restspalt. Det finns ingen evidens som stöder träning av passiva talavvikelser (Sweeney, 2011), men vid kraftiga besvär kan talförbättrande sekundär kirurgi övervägas (Sommerlad, 2006). Vid hyponasalitet produceras nasala konsonanter med för lite nasal resonans, eftersom passagen till och/eller i näshålan är trång (Lohmander et al., 2015).

Individen kan kompensera för bristande velofarynxfunktion genom att producera språkljuden bakom det ställe där luftläckaget till näshålan sker (Henningsson & Isberg, 1990). Dessa kompensatoriska talavvikelser kallas även aktiva talavvikelser, eftersom barnet aktivt ändrar artikulationsställe eller artikulationssätt (Harding & Grunwell, 1998). De aktiva talavvikelserna kan kategoriseras efter var i munnen produktionen sker, d v s framför eller bakom velofarynx (Lohmander et al., 2015). Den vanligaste aktiva talavvikelsen är tillbakadragen oral artikulation. Orsaken till detta kan vara en restspalt eller fistel. Produktionen av till exempel dentala konsonanter (Figur 2a) sker då bakom restspalten, oftast palatalt eller velart (Figur 2b). Vid bristande velofarynxfunktion kan produktionen av konsonanter förläggas bakom velofarynx till stämbandsnivå. Artikulationen blir då glottal (Figur 2c). Vid talavvikelser bakom velofarynx blir ofta talaren svårförstådd. Dessbättre är denna process tämligen ovanlig (Lohmander et al., 2015).

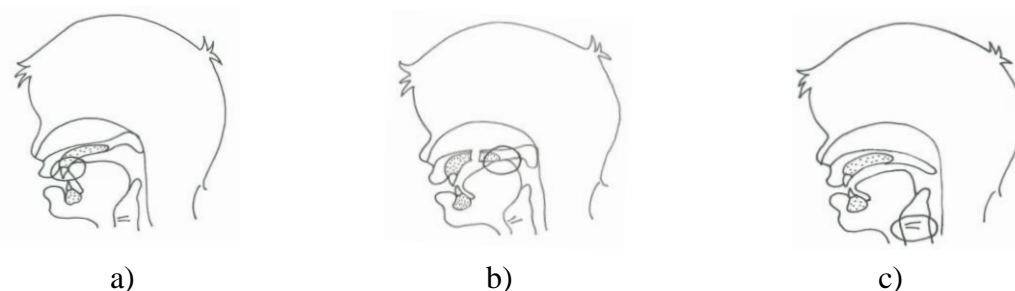


Figure 2. (a) Korrekt placering av dental/alveolar artikulation. (b) Tillbakaflyttning till velar artikulation. (c) Tillbakaflyttning till stämbandsnivå. Illustration av Liisi Raud Westberg.

Talutveckling hos barn födda med LKG

Hur talet utvecklas hos barn med LKG är mycket individuellt. Vissa får ett bra tal kort efter den primära gomplastiken, medan andra behöver en tid av talträning och några får bestående problem med talet (Chapman, 2009). Samband mellan joller och meningsfullt tal har setts (t ex Chapman, 2004; Lohmander & Persson, 2008; Klintö et al., 2014a). Barn med en sen jollerutveckling utan spalt har dessutom visats löpa större risk för en försenad expressiv språkutveckling (Oller, Eilers, Neal, & Schwartz, 1999). Barn födda med gomspalt som har oopererad gom vid ca ett års ålder, producerar orala klusiler och främre dentala och biliabiala konsonanter i mindre grad än barn utan spalt, och förekomsten av nasala konsonanter och vokaliserat joller är istället högre

(Chapman, 2009). Barn som har genomgått tidig slutning av mjuka gommen har vid ett års ålder ofta velara konsonantljud i jollret (Lohmander, Olsson & Flynn, 2011).

Vid tre års ålder förefaller skillnaderna i språkljud ha jämnat ut sig mellan barn som har genomgått tidig gomslutning i ett och två steg (Klintö et al., 2014b). Ungefär hälften av barnen har då ett avvikande tal (t ex Lohmander & Persson, 2008). I två studier hade svenskspråkiga femåringar födda med unilateral LKG framförallt högre förekomst av tillbakadragen oral artikulation och odistinkt produktion av /s/ än jämnåriga utan LKG (Lohmander & Persson, 2008; Klintö et al., 2016). Barnen med LKG hade även högre förekomst av fonologiska förenklingsprocesser som inte var direkt relaterade till spalten (Klintö et al., 2016). I studien av Lohmander och Persson (2008) hade dessutom 20 till 30 % av barnen fortfarande hypernasalitet och hörbart nasalt luftläckage i någon grad vid fem års ålder.

Graden av talavvikelser verkar till viss del vara relaterad till spalttyp, med ökad förekomst av avvikelse vid mer omfattande spalter (Lohmander-Agerskov, Söderpalm, Friede, Persson, & Lilja, 1994; Lohmander, 2011). Till exempel förefaller glottal artikulation och tryckreducerad artikulation förekomma i mindre utsträckning hos barn med spalt i enbart mjuka gommen än hos barn med spalt i både mjuka och hårda gommen (Nyberg, Raud-Westberg, Neovius, Larson, & Henningsson, 2010).

Primär gomplastik

Gommen opereras för att möjliggöra tillstängning mellan mun- och näshåla (Barillas et al., 2009), vilket är en förutsättning för typisk talutveckling. Det finns olika metoder och tekniker för primär gomplastik. Idag finns ingen enighet varken internationellt eller nationellt för vilken metod som är att föredra, eftersom det inte finns tillräcklig evidens för vilken operationstidpunkt eller vilken operationsmetod som är bäst (Shaw et al., 2000; Friede, 2009). Valet av operationsmetod baseras idag huvudsakligen på den enskilde kirurgens åsikt kring vilken operationsteknik som är bäst och vilken metod kirurgen blivit instruerad i.

Målsättningen med den primära gomplastiken är att skapa en lång mjuk gom, för att möjliggöra fullgod slutning mellan mjuka gommen och svalgets bak- och sidoväggar. Man försöker att undvika uppkomst av fistlar, eftersom de kan ha en negativ inverkan på talutvecklingen (Funayama et al., 2014). Om operation av fistel krävs ökar dessutom risken för ärrbildning, som kan inverka negativt på mellanansiktets tillväxt (Sommerlad, 2006). Senare operation av hårda gommen anses gynna mellanansiktets tillväxt, (Friede, 2009; Friede, Lilja, & Lohmander, 2012; Alam, Iida, Sato, & Kajii, 2013), medan talutvecklingen gynnas av så tidig slutning av gommen som möjligt (Rohrich, Love, Byrd, & Johns, 2000). Det hade varit önskvärt att vänta med operation tills mellanansiktet är färdigväxt, då alla kirurgiska ingrepp mer eller mindre kan störa tillväxten om de utförs innan ansiktet är färdigväxt (Ortiz-Monasterior, Rebeil, Valderrama, & Cruz, 1959; Mars & Houston, 1990). Det har dock inte bevisats att en senare operation alltid ger en bättre tillväxt av mellanansiktet än tidig operation (Ross, 1987). Istället verkar valet av operationsmetod vara viktigare för mellanansiktets tillväxt än tidpunkten för operationen (Friede, 2009). Operationsmetoderna för LKG kan grovt delas in i enstegs- och tvåstegsslutning.

Enstegsslutning av gommen kan ske med olika operationstekniker i både mjuka och hårda gommen. Operationen utförs oftast då barnet är mellan sex och 18 månader (Rohrich et al., 2000). De vanligaste metoderna för att sluta den hårda delen av gommen vid enstegsslutning är van Langenbeck och Wardill-Kilner (Lohmander, 2011). Van Langenbecks operationsmetod har praktiserats sedan 1860-talet och används idag ofta med vissa modifikationer. Vid breda spalter i hårda gommen läggs ofta frigörande laterala incisioner, för att minska spänningen och risken för uppkomst av postoperativa fistlar. Detta kan ge ärrbildning som inverkar negativt på

mellanansiktets tillväxt, varför man vid operation av smala spalter gärna avstår från laterala incisioner (Sommerlad, 2008). Vid enstegsslutning av gommen används främst två metoder för att sluta spalten i den mjuka gommen. Vid intravelar veloplastik dissekeras musklerna i mjuka gommen radikalt, vilket möjliggör en rekonstruktion av levator slingan i den bakre delen av mjuka gommen, i syfte att förbättra gommens förmåga att lyfta uppåt-bakåt (Kriens, 1969). Denna typ av muskelrekonstruktion har blivit ytterligare modifierad av Sommerlad (Sommerlad, 2008). Muskelrekonstruktion enligt Sommerlad är en kirurgiskt komplicerad operation med lång inlärningsperiod (Sommerlad, 2006). Fördelen är att ingreppet i hårda gommen är minimalt, vilket minskar påverkan på mellanansiktets tillväxt (Sommerlad, 2006). Enligt Sommerlads utvärdering (2006) behövde endast ca 5 % genomgå en talförbättrande sekundär operation, och ca 15 % av barnen var i behov av fistelslutning (Sommerlad, 2003). Muskelrekonstruktion enligt Sommerlad är den operationsmetod som idag används vid SUS, Malmö, i kombination med en modifierad van Langenbeck-teknik i de fall där spalten involverar hårda gommen. Enligt utvärdering vid SUS var förekomsten av fistlar endast 5 %, och 0,7 % av barnen fick senare genomgå fisteloperation (Becker & Hansson, 2013).

Vid tvåstegsslutning används samma operationsmetoder som vid enstegsslutning för slutning av mjuka och hårda gommen (Friede, 2009). Vanligen opereras den mjuka gommen först och den hårda gommen senare (Schweckendiek, 1978). Enligt Rohrich et al. (2000) skapas de bästa förutsättningarna för ansiktets tillväxt och talets utveckling då första operationen sker vid tre till sex månaders ålder och den andra operationen vid 15 till 18 månaders ålder. Tidpunkterna för operation varierar stort mellan olika centra. Den första operationen, av mjuka gommen, utförs vanligen mellan tre till nio månaders ålder, och slutningen av hårda gommen utförs allt från 12 månaders ålder och upp till vuxen ålder (Friede, 2009).

Operationsmetodens inverkan på talutvecklingen

I en litteraturgenomgång av artiklar publicerade mellan åren 1984 och 2010 (Lohmander, 2011) var de mest frekvent använda operationsmetoderna Wardill-Kilner, van Langenbeck och en tvåstegsmetod med slutning av hårda gommen efter 12 månaders ålder. Resultaten indikerade att en mindre allvarlig spalt gav bättre tal efter operationen. Det var inte möjligt att dra några säkra slutsatser avseende operationsmetodernas inverkan på talet, eftersom olika operationsmetoder utvärderades i olika studier och operationerna utfördes vid olika åldrar.

I en studie av Persson et al. (2002) undersöktes talet hos femåringar med isolerad gomspalt där mjuka gommen i genomsnitt slöts vid ca åtta månaders ålder och den hårda gommen i genomsnitt vid fyra år och två månaders ålder. Resultaten visade att barn med spalt i enbart mjuka gommen, utan syndrom eller annan tillkommande problematik, fick bra tal. Barnen med spalt i både hårda och mjuka gommen utan tilläggsproblematik fick fler artikulatoriska svårigheter och krävde talbehandling i större utsträckning än barnen med spalt i enbart mjuka gommen. De barn som hade spalt i gommen och med tillkommande problematik löpte större risk för talsvårigheter. Studien antyder att tidig slutning av gommen bidrar positivt till talutvecklingen, eftersom de barn som fick en hel gom vid ca åtta månader hade färre artikulatoriska svårigheter än de barn som fick en hel gom vid ca fyra års ålder.

I en studie av Nyberg et al. (2010) jämfördes talet hos femåringar med isolerad gomspalt, som opererats med enstegsslutning med minimal incisionsteknik, med eller utan muskelrekonstruktion vid 12-15 månaders ålder. Resultaten visade ingen signifikant skillnad vad gäller talet mellan grupperna, men i gruppen som hade genomgått muskelrekonstruktion var det färre barn som senare, efter fem års ålder, genomgick sekundär talförbättrande kirurgi. Således förefaller fler parametrar än tidpunkt för operation påverka talet. I detta fall bedömdes båda operationsmetoderna vara likvärdiga för talutvecklingen, men behovet av ytterligare operationer

var större vid primär gomplastik utan muskelrekonstruktion. Nyberg, Peterson och Lohmander (2014) studerade även talet hos femåringar födda med unilateral LKG, efter primär gomplastik med minimal incisionsteknik i ett steg vid ca 13 månaders ålder, och fann att 22 % av barnen hade ”måttligt till kraftigt” nedsatt velofarynxfunktion, 18 % hade frekvent förekomst av oral tillbakadragen artikulation och 12 % frekvent förekomst av glottal artikulation.

I en studie av talet hos svenskspråkiga treåringar födda med unilateral LKG sågs ingen signifikant skillnad mellan barn som genomgått slutning av gommen i ett steg vid ca 13 månaders ålder vid SUS och barn som genomgått tvåstegsslutning med slutning av mjuka gommen före sex månaders ålder och hårda gommen vid 12 månaders ålder (Klintö et al., 2014b). Däremot hade barn som behandlats med tvåstegsslutning med tidig slutning av mjuka gommen och som fortfarande hade en restspalt i hårda gommen vid tre års ålder sämre tal än de barn som genomgått enstegsslutning vid ca 13 månaders ålder (Klintö et al., 2014b). En uppföljning av barnen indikerade att skillnaderna kvarstod vid fem års ålder (Klintö et al., 2016). Dock var grupperna små, och det finns behov att verifiera resultaten i större grupper. Vidare visade de preliminära resultaten från Scandcleftprojektet att barn som behandlats med slutning av mjuka gommen vid tre till fyra månaders ålder och slutning av hårda gommen vid tre års ålder hade signifikant högre förekomst av tillbakadragna orala konsonanter vid 5 års ålder, än barn som hade genomgått slutning av mjuka gommen vid tre till fyra månaders ålder och slutning av hårda gommen vid 12 månaders ålder (Willadsen, 2013). Sammantaget tyder resultaten på att det är negativt för talets utveckling att vänta med att sluta hårda gommen tills barnet är tre år.

Även andra variabler än spalttyp, operationsmetod och tidpunkt för operation kan tänkas inverka på talresultatet. I en stor brittisk studie fann man ett samband mellan antalet operationer kirurgerna hade utfört och talresultatet (Williams, Sandy, Thomas, Sell, & Sterne, 1999). Således kan kirurgens erfarenhet, skicklighet och vilken träning kirurgen fått från mentorer ha betydelse (Friede, 2009). Hur väl familjen följer upp rekommendationer (Chapman, 2004) samt annan tilläggsproblematik (Morris & Ozanne, 2003) är andra faktorer som kan tänkas ha betydelse.

Perceptuell bedömning vid LKG

Transkription och skalskattning. Den mest användbara metoden vid klinisk bedömning av tal relaterat till LKG, är perceptuell bedömning som inkluderar fonetisk transkription (Sell, 2005; Peterson-Falzone, Trost-Cardamone, Karnell, & Hardin-Jones, 2006). I Sverige används ”halvsnäiv” fonetisk transkription enligt det internationella fonetiska alfabetet (IPA, 2005; IPA, 2008), och denna ligger sedan till grund för analysen av konsonantproduktionen. Med ”halvsnäiv” transkription menas att diakritiska tilläggstecken används för särdrag i talet som är vanliga vid LKG (Lohmander et al., 2015). Transkription kan vara en tidskrävande process, men den prioriteras eftersom man genom den kan finna talbeteenden och mönster som har klinisk betydelse (Howard, 1993). Genom skalskattning kan man komma fram till hur stor talavvikelse som föreligger. Vanligen bedöms passiva talavvikelser vid LKG, till exempel hypernasalitet, hyponasalitet, hörbart nasalt luftläckage och tryckreducerad artikulation med skalskattning (Lohmander et al., 2015). En annan variabel som ofta bedöms genom skalskattning är förståelighet (Lohmander et al., 2015).

Reliabilitet. Tidigare genomfördes perceptuell bedömning genom live-bedömningar (Lohmander & Olsson, 2004; Sell, 2005). Patienten är då känd för bedömaren, vilket kan inverka på resultaten. Dessutom kan inte resultaten kontrolleras i efterhand och de blir därför mindre tillförlitliga. Kriterierna för vetenskapliga bedömningar har ändrats på senare år. Att bedömningarna baseras på inspelningar och att mått på reliabilitet i bedömningarna rapporteras, anses vara en förutsättning för god vetenskaplig metodologi (Britton et al., 2014; Brunnegård &

Lohmander, 2007; Lohmander & Olsson, 2004). Reliabiliteten i den perceptuella bedömningen är avgörande för hur användbara resultaten är, d v s vilka slutsatser som kan dras från dem.

Olika lyssnare kan ha olika inre referensramar (Kent, 1996). Vissa anser att logopedier eller erfarna lyssnare är alltför kritiska i sina bedömningar, jämfört med otränade, naiva lyssnare (Bagnall & David, 1988). Det finns emellertid indikationer på att mindre erfarna men tränade bedömare är strängare i sin bedömning än mer erfarna bedömare (Klintö & Lohmander, 2016). Erfarna lyssnare som ofta utför bedömningar kan utveckla interna standardreferenser, som behålls i långtidsminnet (Sweeney, 2011). Det skulle kunna förklara varför erfarna lyssnare ofta har högre samstämmighet i sina bedömningar än oerfarna lyssnare (Sweeney, 2011; Hayden & Klimacka, 2000).

Vid snäv fonetisk transkription är samstämmigheten lägre än vid bred fonetisk transkription (Shriberg & Lof, 1991). Samstämmigheten har även visats vara låg för konsonanter som inte förekommer i bedömarens språk (Santelmann, Sussman, & Chapman, 1999), och speciellt om det förekommer glottal artikulation (Gooch, Hardin-Jones, Chapman, Trost-Cardamone, & Sussman, 2001). Kännedom om målordet inverkar också på samstämmigheten vid transkription. När vi vet vad som produceras kan vi nämligen påverkas av våra förväntningar (Oller & Eilers, 1975). Vid jämförelser av flera bedömares transkriptioner har samstämmigheten varit lägre ju fler transkribenter som jämförts (Shriberg & Lof, 1991). Logopedier som arbetar tillsammans är ofta mer samstämmiga i sina bedömningar än logopedier som arbetar vid olika LKG-centra (Sell, 2005). Forskare har betonat vikten av transkriptionsträning och konsensusbedömningar för att öka reliabiliteten i bedömningarna (Gooch et al., 2001; Hayden & Klimacka, 2000). Samstämmigheten inom och mellan bedömare vid bedömning av passiva talavvikelser är ofta lägre än vid fonetisk transkription. Detta gäller särskilt för hypernasalitet (Lohmander & Persson 2008; Klintö et al., 2014b) och velofarynxfunktion (Malmborn, Becker, & Klintö, 2016). Träningsmaterial för att kalibrera och utveckla bedömare kan vara ett sätt att förbättra samstämmigheten, vilket har utvecklats i Storbritannien (Sell et al., 2009). Ljudkvaliteten kan också inverka på samstämmigheten mellan lyssnare (Sell et al., 2009).

Syfte och frågeställningar

Huvudsyftet var att utvärdera talet hos femåringar födda med någon typ av gomspalt, behandlade med primär gomplastik med muskelrekonstruktion enligt Sommerlad vid SUS. Inom projektet undersöktes även om logopedstudenters bedömningar av talet hos barn med gomspalt skiljde sig från erfarna logopedernas bedömningar. De specifika frågeställningarna var:

1. Hur är talet vid fem års ålder hos barn födda med någon typ av gomspalt, behandlade med primär gomplastik med muskelrekonstruktion enligt Sommerlad vid SUS, jämfört med jämnåriga födda utan gomspalt?
2. Skiljer sig talet hos barn födda med olika typer av gomspalt?
3. Skiljer sig logopedstudenters bedömningar av talet hos barn födda med gomspalt jämfört med bedömningar av erfarna logopedier?

Metod

Föreliggande studie var retrospektiv och data samlades in inom det svenska vårdprogrammet för LKG. Studien godkändes av Regionala Etikprövningsnämnden i Lund (Diarienummer: 2015/004).

Deltagare

Barn födda med någon typ av gomspalt mellan 2005 och 2009, som hade genomgått primär gomplastik vid SUS och vars tal hade spelats in vid fem års ålder inkluderades. Barn födda med syndrom och tillkommande missbildningar exkluderades. Dessutom exkluderades fyra barn som var utflyttade, två som uteblev från logopedbesöket, tre på grund av misslyckade inspelningar och ett barn som inte medverkade vid inspelningen. Detta resulterade i 81 barn, som delades in i grupper efter spalttyp: spalt i mjuka gommen (tre flickor och sex pojkar), spalt i mjuka och hårda gommen (11 flickor och tio pojkar), unilateral LKG (åtta flickor och 26 pojkar) och bilateral LKG (fyra flickor och 13 pojkar).

Elva (en flicka och tio pojkar) av de 81 barnen hade en atypisk spalt. Resultatanalysen genomfördes både med och utan barnen med atypisk spalt inkluderade i grupperna. På grund av att ingen tydlig inverkan på resultaten sågs då atypisk spalt inkluderades, uteslöts inte barnen med atypisk spalt vid presentationen av resultaten. I sju av de atypiska fallen hade barnen en bilateral läppspalt och en genomgående unilateral spalt i käken och gommen. Dessa inkluderades i gruppen med unilateral LKG. I gruppen unilateral LKG inkluderades även ett barn med unilateral LKG som hade incipient läpp-käkspalt (d v s spalten var inte genomgående), ett barn med kliven mjuk gom och unilateral läpp-käkspalt samt ett barn med spalt i mjuka gommen och en liten bit in i hårda gommen och som även hade läpp-käkspalt. I ett fall förekom en kliven mjuk och hård gom samt en läppspalt, och inkluderades i gruppen kliven mjuk och hård gom.

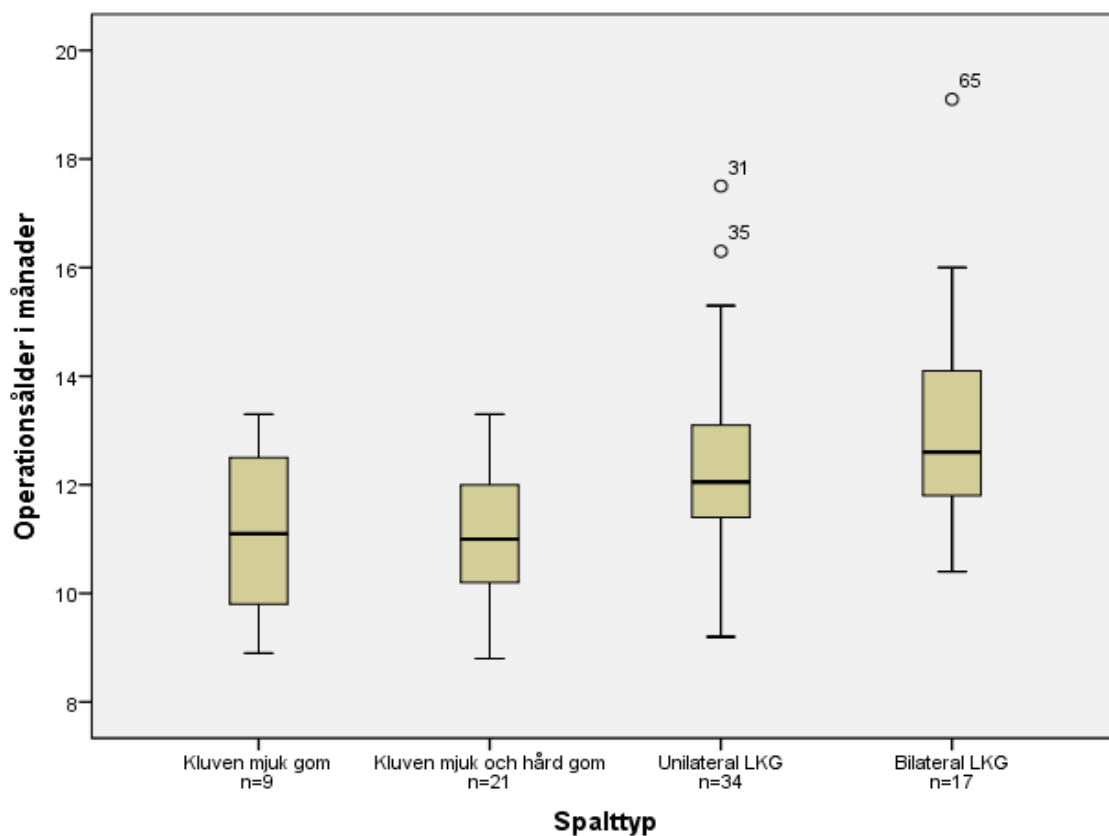
Åtta av de 81 barnen var flerspråkiga. Trettiofyra av barnen hade/skulle få plaströr i öronen p g a sekretorisk media otit. Tjugofem barn fick logopedbehandling vid fem års ålder. Av dessa fick 15 barn behandling avseende artikulation, tre avseende artikulation/fonologi, fyra avseende fonologi, ett avseende artikulation/språk, ett barn avseende språk och ett barn avseende stamning.

Operationsmetod

Samtliga barn opererades mellan 8,9 och 19,1 månaders ålder med muskelrekonstruktion enligt Sommerlad (2003), vid SUS i Malmö mellan åren 2005 och 2010. För barn med spalt i mjuka gommen var den genomsnittliga operationsåldern 11,1 månader (spridning 8,9 till 13,3), för barn med spalt i mjuka och hårda gommen 11 månader (spridning 8,8 till 13,3), för barn med unilateral LKG 12,5 månader (spridning 9,2 till 17,5) och för barn med bilateral LKG 13,1 månader (spridning 10,4 till 19,1) (Figur 3). Operationerna genomfördes i 76 fall av en och samma kirurg (huvudkirurgen) och i fyra fall av en annan kirurg under handledning av huvudkirurgen. I ytterligare ett fall utfördes operationen av en tredje kirurg utan inflytande av huvudkirurgen, vid 13,6 månaders ålder, och inte helt med muskelrekonstruktion enligt Sommerlad. Barnet re-opererades senare av huvudkirurgen, p g a bristande velofarynxfunktion.

Intra-velar veloplastik enligt Sommerlad (2003) utfördes under luppglasögon med en förstoring på 3,5. Ett snitt lades längs med spalten på båda sidor av gränsen till den orala och nasala slemhinnan. Därefter höjdes mucoperiosteala flikar för att synliggöra den bakre kanten av hårda gommen. För att främja slutningen av det orala lagret frigjordes den palatinala neuromuskulära buntan från dess fäste. Med en kirurgisk slutning av uvulan, kunde en noggrann muskelpreparation påbörjas. Levatormuskeln samt tensorsenan separerades från den bakre hårda gommen. För att minimera spänningar dissekerades tensorsenan medialt till hamulus.

Muskulaturen separerades därefter ytterligare, både från den orala och nasala slemhinnan. Slutningen påbörjades vid det nasala lagret, efter kompletterande friläggning av den hårda gommen. Därefter placerades levatormuskulerna på rätt plats och förenades i mitten, vilket utgjorde rekonstruktionen av levatorslingan. Palatoglossus och palatofaryngeus muskulära fibrer omfattades också av dissektionen. Till sist slöts det orala lagret. Sammanfattningsvis omfattade metoden minimal dissektion av hårda gommen, samt radikal tillbakaflyttning av den velara muskulaturen och delning av tensormuskeln. I de fall slutningen orsakade spänning kompletterades operationen med frigörande laterala incisioner. Enligt en tidigare utvärdering vid SUS krävdes frigörande laterala incisioner i 42% av fallen (Becker & Hansson, 2013). Fyra barn i föreliggande studie genomgick senare sekundär talförbättrande operation med velofarynxlambåplastik före fem års ålder och ytterligare fem barn efter fem års ålder. Ett barn genomgick fisteloperation före fem års ålder. Ytterligare fyra barn hade postoperativa fistlar, men de bedömdes inte vara i behov av fistelslutning.



Figur 3. Operationsålderns median och spridning för grupperna med olika typer av läpp-käk-gomspalt (LKG).

Dokumentation

Talet hos samtliga barn dokumenterades med ljudinspelningar vid en genomsnittlig ålder av fem år (spridning 54 till 63 månader), i en inspelningsstudio på SUS i Malmö, enligt det svenska vårdprogrammet för LKG. Den inspelningsutrustning som användes var i 13 fall programmet Soundswell (Saven Hitech) på PC, i 63 fall MiniDisc recorder (Sony MDS302) och i fem fall Handy Recorder (Zoom H4n). Samtliga barn spelades in med kondensatormikrofon (Psytec

Std61, Sennheiser MD421-U-5 eller Røde NT4). I 72 fall benämndes ord i Svenskt Artikulations- och Nasalitetstest (SVANTE) (Lohmander et al., 2015), i åtta fall Scandclefts ordtest (Lohmander et al., 2009) och i ett fall ett ordtest som används i projektet Timing of Primary Surgery for cleft Palate (TOPS) och som är likvärdigt med Scandclefts ordtest. Samtliga ordtest är utformade för att uppmärksamma avvikelser relaterade till bristande velofarynxfunktion. SVANTEs ordtest innehåller 86 ord, varav de första 59, som innehåller orala målkonsonanter, var underlag för analysen av konsonantproduktion i föreliggande studie. Av dessa innehåller de första nio orden slutna vokaler som är känsliga för avvikelser avseende hypernasalitet och konsonanter som kräver ett högt intraoralt tryck. Därutöver användes orden 60 till 64, som innehåller nasaler, för bedömning av hyponasalitet (Lohmander et al., 2015). Scandclefts ordtest innehåller 33 målkonsonanter (Lohmander et al., 2009) och TOPSs ordtest innehåller 32 målkonsonanter, med uppvärmningsorden inkluderade. Orden är uppbyggda enligt samma principer som orden i SVANTE (Lohmander et al., 2015).

I 71 fall spelades barnen in under samspel med en logoped, och i tio fall under samspel med förälder. I de fall där barnen samspelade med förälder benämndes orden i ordtestet på eftersägning. Sextioåtta av barnen repeterade även meningar ur SVANTE (Lohmander et al., 2015), där varje mening innehåller en återkommande konsonant. Meningarna är utformade med tryckstarka ljud, med trycksvaga ljud och med nasala konsonanter tillsammans med klusiler. Dessutom spelades sammanhängande tal in för 54 barn. Det sammanhängande talet bestod i 24 fall av fritt spontantal, i 24 fall av tal runt temabild i SVANTE (Lohmander et al., 2015) och i sex fall av återberättande av Bussagan (Svensson & Tuominen-Eriksson, 2002). Sammantaget spelades 24 barn in med ordtest, meningar och temabild, 23 med ordtest, meningar och spontantal, sex med ordtest, meningar och återberättade av Bussagan, 24 med ordtest och meningar, ett med ordtest och spontantal, och tre med enbart ordtestet och lite sammanhängande tal.

Redigering

Inspelningar på MiniDisc överfördes av LKG logoped vid SUS till dator och samtliga inspelningar sparades i .wav-format i programmet Soundswell (Saven Hitech). Inspelningarna avidentifierades och redigerades av samma logoped i Audacity (Free Software, General Public License GPL) till två filer, en med målorden och en med meningsrepetition och/eller sammanhängande tal. I ordfilerna klipptes allt överflödigt tal bort så att endast de enskilda målorden kvarstod. Barnets produktion av målordet följdes av testledarens repetition av målordet. I de fall där barnet repeterade målordet efter testledaren, föregicks barnets produktion av testledarens produktion av målordet. Om ett barn producerade målordet flera gånger valdes det ord som hade mest korrekt uttal. Vid behov lades extra paus mellan orden in för att underlätta lyssningen för bedömarna. Tjugosju slumpvis valda inspelningar duplicerades för beräkning av intrabedömarreliabilitet.

Perceptuell bedömning

Tre oberoende LKG-logoped, en från SUS och två från två andra svenska LKG-centra, genomförde perceptuell bedömning på hela materialet med hörlurar (Headphones MDR-V700, Sennheiser HD 280 pro eller Sennheiser HD 205). Uppsatsförfattarna (logopedstudenterna) genomförde konsensusbedömning av hela materialet. Före bedömningen tränade uppsatsförfattarna under en halvdag på att bedöma barn med LKG som inte ingick i studien. Detta skedde under handledning av en erfaren LKG-logoped. Vid de tillfällen som oenighet uppstod i bedömningen av barnen i studien, diskuterade uppsatsförfattarna tills de var eniga. Vid särskilt svåra fall jämförde uppsatsförfattarna ljudfilerna mot referensinspelningar på PUMA

(PUMA, 2016). Målljuden i ordtestet för varje inspelning, transkriberades med ”halvsnäv” transkription (Lohmander et al., 2015). Variablerna hypernasalitet, hyponasalitet, hörbart nasalt luftläckage och tryckreducerad artikulation skattades på en fyrgradig skala med skalstegen “Normal” (skalsteg 1), “Lätt men konsekvent” (skalsteg 2), “Måttlig och konsekvent” (skalsteg 3) och “Kraftig och konsekvent” (skalsteg 4). Velofarynxfunktion, som är en sammanlagd bedömning av klang, hörbart nasalt luftläckage och tryckreducerad artikulation, skattades för hela talmaterialet för varje barn på en tregradig skala med skalstegen “Tillräcklig (kompetent)” (skalsteg 1), “Marginellt otillräcklig” (skalsteg 2), samt “Otillräcklig (inkompetent)” (skalsteg 3). Slutligen skattades förståeligheten på en tregradig skala med skalstegen “God” (skalsteg 1), “Lätt nedsatt” (skalsteg 2) och “Måttligt/kraftigt nedsatt” (skalsteg 3).

Analys av transkriptioner

Baserat på de fonetiska transkriptionerna för målkonsonanterna i de första 59 orden i SVANTEs ordtest, alternativt samtliga ord i Scandclefs och TOPSs ordtest, beräknades andelen korrekt artikulerade orala konsonanter (AKOK), andelen talavvikelser framför velofarynx och andelen talavvikelser bakom velofarynx (Lohmander et al., 2015) för varje bedömare. Fonologiskt relaterade fel, ospecificerbar artikulation samt fel rörande velofarynxfunktionen (till exempel hörbart nasalt luftläckage eller tryckreducerad artikulation) resulterade i avdrag avseende AKOK men registrerades inte som talavvikelser framför eller bakom velofarynx. Vid analysen av transkriptionerna fann uppsatsförfattarna riktlinjerna i SVANTE-manualen vara oklara för beräkning av vissa typer av talavvikelser. I förekommande fall diskuterades tillägg fram i samråd med erfarna logopedier (Appendix 1). Vid beräkningen av konsonantmåttet dividerades det totala antalet korrekt producerade målljud, totala antalet fel framför velofarynx och totala antalet fel bakom velofarynx med det totala antalet responser. Dessutom beräknades procent korrekta konsonanter anpassat efter ålder (engelska: per cent correct consonants adjusted for age; PCC-A) (Klintö, Salameh, Svensson, & Lohmander, 2011; Klintö et al., 2014a). I PCC-A accepterades olika typer av åldersadekvata förenklingar av /s/ och passiva talavvikelser markerade med diakritiska tecken (till exempel hörbart nasalt luftläckage, nasal realisation och tryckreducerad artikulation), och räknades som korrekt svar.

Statistisk analys

SPSS för Windows version 22 (IBM Software) användes i analysen. Då resultaten inte var normalfördelade och grupperna små, användes icke-parametriska test. Beskrivande resultat presenterades med median, medelvärden och spridningsvärden för de olika grupperna. Kruskal Wallis test och Mann Whitney U test användes för gruppjämförelser. För att en skillnad skulle anses som signifikant krävdes $p < 0,05$ (tvåsidig). Vid analysen av logopedstudenternas bedömningar beräknades samstämmighet inom och mellan bedömare för AKOK, talavvikelser framför velofarynx, talavvikelser bakom velofarynx samt PCC-A med ICC. Samstämmighet inom och mellan bedömare för de skalskattade variablerna beräknades med kvadratisk vägd Kappa.

Reliabilitet

Överensstämmelsen mellan de erfarna bedömarna undersöktes för alla variabler för samtliga 81 barn, och inom bedömare för 27 slumpvis valda barn, och presenteras nedan. Motsvarande data för logopedstudenterna presenteras i resultatavsnittet.

Samstämmigheten för AKOK, andelen talavvikelser framför velofarynx, andelen talavvikelser bakom velofarynx samt PCC-A beräknades med intraklasskorrelationskoefficient (ICC) med tvåvägs blandeffekt-modell. Det genomsnittliga ICC-värdet för samstämmighet

mellan logopederna för AKOK var 0,928 %, för andel talavvikelser framför velofarynx 0,934 % och för PCC-A 0,951 %, vilket var "utmärkt" (Cicchetti, 2001). Samstämmigheten för andel talavvikelser bakom velofarynx var något lägre men "god" (Cicchetti, 2001), med genomsnittligt ICC-värde på 0,871 %. Samstämmigheten inom bedömare för samma variabler var "utmärkt" med genomsnittliga ICC-värden som varierade mellan 0,906 och 0,995.

Samstämmigheten mellan och inom bedömare för hypernasalitet, hyponasalitet, hörbart nasalt luftläckage, tryckreducerad artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet beräknades med kvadratisk vägd Kappa. Mellan logopeder beräknades samstämmighet för två logopeder i taget. Samstämmigheten mellan logopederna för hypernasalitet var "måttlig till god" (0,504; 0,618; 0,648), för hyponasalitet "lätt till måttlig" (0,221; 0,396; 0,522), för hörbart nasalt luftläckage "god till utmärkt" (0,626; 0,647; 0,798), för tryckreducerad artikulation "måttlig till god" (0,544; 0,594; 0,724), för velofarynxfunktion "måttlig till god" (0,529; 0,595; 0,736) och för förståelighet "måttlig till god" (0,59; 0,608; 0,727) (Cicchetti, 2001). När samtliga bedömare jämfördes på samma gång och ett skalstegs skillnad godtogs var samstämmigheten för hypernasalitet och velofarynxfunktion 98,8%, för hyponasalitet 95,1%, för hörbart nasalt luftläckage 93,8%, för tryckreducerad artikulation 96,3% och för förståelighet 97,5%. Samstämmigheten inom bedömare för hypernasalitet var "måttlig till utmärkt" (0,465; 0,673; 0,762), för hyponasalitet "god till utmärkt" (0,646; 0,671; 0,756), för hörbart nasalt luftläckage "god till utmärkt" (0,635; 0,641; 0,844), för tryckreducerad artikulation "lätt till utmärkt" (0,359; 0,664; 0,777), för velofarynxfunktion "måttlig till god" (0,594; 0,595; 0,637) och för förståelighet "utmärkt" (0,806; 0,83; 0,835). När ett skalstegs skillnad godtogs var den 100 % för samtliga logopeder och variabler.

Resultat

Resultaten för hela gruppen barn födda med någon typ av gomspalt

I Tabell 1 presenteras resultaten för hela gruppen. Resultaten baserades på medelvärdet av de tre erfarna logopedernas bedömningar för respektive variabel. Medelvärdet för AKOK var 74 %, för PCC-A 91,5 %, för andelen talavvikelser framför velofarynx 7,1 % och för andelen talavvikelser bakom velofarynx 1,4 %. Variationen i de individuella barnens resultat var stor. Medelvärdet skattat på fyrgradig skala var 1,8 för hypernasalitet, 1,2 för hyponasalitet, 1,9 för hörbart nasalt luftläckage och 1,3 för tryckreducerad artikulation. Medelvärdet skattat på tregradig skala var 1,7 för velofarynxfunktion och 1,6 för förståelighet (Tabell 1).

Tabell 1. Medelvärde, standardavvikelse (SD), median, minimum- och maximumvärde (Min-Max) för samtliga variabler för hela gruppen barn födda med någon typ av gomspalt (n=81).

Mått	Medelvärde	SD	Median	Min-Max
AKOK %	74	18,2	75,6	22,7-98,9
PCC-A %	91,5	11,7	96,8	36,9-100
Talavvikelser framför velofarynx %	7,1	8,7	3,4	0-40,7
Talavvikelser bakom velofarynx %	1,4	3,8	0	0-20
Hypernasalitet 1-4	1,8	0,6	1,7	1-3,3
Hyponasalitet 1-4	1,2	0,4	1	1-2,3
Hörbart nasalt luftläckage 1-4	1,9	0,8	2	1-4
Tryckreducerad artikulation 1-4	1,3	0,5	1	1-3,3
Velofarynxfunktion 1-3	1,7	0,6	1,7	1-3
Förståelighet 1-3	1,6	0,6	1,3	1-3

AKOK=andel korrekta orala konsonanter, PCC-A=procent korrekta konsonanter anpassat efter ålder

Jämförelse av grupper med olika spalttyper

Resultaten för samtliga talvariabler för grupperna med olika spalttyper presenteras i Tabell 2. Gruppen med spalt i mjuka gommen hade högst median för AKOK (86,4 %) och gruppen bilateral LKG hade lägst (65,5%). Gruppen med spalt i mjuka gommen hade även den högsta medianen för PCC-A (98,3%). Gruppen med bilateral LKG hade högst median avseende andelen talavvikelser framför velofarynx (10,4) och andelen talavvikelser bakom velofarynx (0,6 %). Spridningen i individuella resultat var stor för konsonantvariablerna i samtliga grupper.

Tabell 2. Jämförelse mellan grupperna med spalt i mjuka gommen (MG), spalt i mjuka och hårda gommen (MHG), unilateral läpp-käk-gomspalt (ULKG) och bilateral läpp-käk-gomspalt (BLKG) avseende konsonantvariabler i procent samt variabler skattade på skala (1-4 eller 1-3). (Kruskal Wallis test)

Mått	MG, n=9 Median Min-Max	MHG, n=21 Median Min-Max	ULKG, n=34 Median Min- Max	BLKG, n=17 Median Min-Max	Chi- Square	p
AKOK %	86,4 34,6-98,9	82,1 35,2-98,3	79 43,5-97,7	65,5 22,7-91,4	9,587	0,022*
PCC-A %	98,3 85,7-100	96,8 54,8-99,4	96,3 36,9-100	95,3 76,9-100	2,952	0,399
Framför %	4,1 0,6-16,4	2 0-29	3 0-24,3	10,4 1,1-40,7	20,906	0,000*
Bakom %	0 0-7	0 0-20	0 0-13,6	0,6 0-18	16,06	0,001*
Hyper 1- 4	1 1-3,3	1,7 1-2,7	1,7 1-3,3	2 1,3-2,7	4,702	0,195
Hypo 1-4	1 1-2	1 1-2	1 1-2,3	1 1-2	1,2	0,753
NL 1-4	1,3 1-3	2 1-4	1,7 1-3,3	2 1-3,3	5,191	0,158
TA 1-4	1 1-2,7	1 1-3	1 1-3,3	1 1-2,7	1,79	0,617
VF 1-3	1,3 1-3	2 1-3	1,5 1-3	1,7 1-2,7	2,438	0,487
Förstå 1- 3	1,3 1-2,7	1 1-3	1,3 1-3	1,7 1-3	5,859	0,119

Min=minimumvärde, Max=maximumvärde, AKOK=andel korrekta orala konsonanter, PCC-A=procent korrekta konsonanter anpassat efter ålder, Framför=talavvikelser framför velofarynx, Bakom=talavvikelser bakom velofarynx, Hyper=hypernasalitet, Hypo=hyponasalitet, NL=hörbart nasalt luftläckage, TA=tryckreducerad artikulation, VF=velofarynxfunktion, Förstå=förståelighet.

* p < 0,05

Även för två av de skalskattade variablerna hade gruppen med bilateral LKG högst median (velofarynxfunktion 1,7 och förståelighet 1,7). Medianen för samtliga spalttyper avseende hyponasalitet och tryckreducerad artikulation var låg (1). Den högsta medianen för hörbart nasalt

luftläckage återfanns hos grupperna med spalt i mjuka och hårda gommen, samt bilateral LKG (2). Störst spridning för AKOK sågs i gruppen bilateral LKG, följt av spalt i mjuka gommen. Barn med bilateral LKG hade även den största spridningen vad gäller talavvikelser framför velofarynx. För talavvikelser bakom velofarynx hade gruppen med spalt i mjuka och hårda gommen störst spridning. Vid jämförelse med Kruskal Wallis test mellan samtliga grupper fanns en signifikant skillnad gällande AKOK, talavvikelser framför velofarynx, samt talavvikelser bakom velofarynx (Tabell 2).

Tabell 3. Jämförelse mellan grupperna med spalt i mjuka gommen (MG), spalt i mjuka och hårda gommen (MHG), unilateral läpp-, käk-, gomspalt (ULKG) och bilateral läpp-, käk-, gomspalt (BLKG) avseende andel korrekta orala konsonanter (AKOK), andel talavvikelser framför velofarynx (Framför) och andel talavvikelser bakom velofarynx (Bakom). (Mann Whitney U test)

Grupper	Mått					
	AKOK		Framför		Bakom	
	z	p	z	p	z	p
MG (n=9) – MHG (n=21)	-1,358	0,174	-1,024	0,306	-0,825	0,410
MG (n=9) – ULKG (n=34)	-1,314	0,189	-0,628	0,530	-0,882	0,378
MG (n=9) – BLKG (n=17)	-2,454	0,014*	-2,724	0,006*	-1,897	0,058
MHG (n=21) – ULKG (n=34)	-0,329	0,742	-2,439	0,015*	-0,064	0,949
MHG (n=21) – BLKG (n=17)	-1,923	0,054	-4,104	0,000*	-3,097	0,002*
ULKG (n=34) – BLKG (n=17)	-2,578	0,010*	-3,059	0,002*	-3,502	0,000*

* p < 0,05

För att undersöka de variabler som visade på signifikanta skillnader vid analys med Kruskal Wallis test, jämfördes de olika spaltgrupperna två och två med Mann Whitney U test (Tabell 3). Gruppen med spalt i mjuka gommen hade signifikant högre AKOK och lägre andel talavvikelser framför velofarynx än gruppen med bilateral LKG. En trend (0,058) mot lägre andel talavvikelser bakom velofarynx sågs också hos gruppen med spalt i mjuka gommen jämfört med gruppen med bilateral LKG. Vidare hade gruppen med spalt i mjuka och hårda gommen signifikant lägre andel talavvikelser framför velofarynx än gruppen med unilateral LKG. Jämfört med gruppen med bilateral LKG hade gruppen med spalt i mjuka och hårda gommen signifikant lägre andel talavvikelser framför velofarynx och även lägre andel talavvikelser bakom velofarynx. En trend (0,054) mot högre AKOK sågs också i gruppen med spalt i mjuka och hårda gommen jämfört med gruppen med bilateral LKG. Slutligen fanns en signifikant skillnad mellan grupperna unilateral LKG och bilateral LKG gällande samtliga variabler, med högre AKOK, lägre andel talavvikelser framför velofarynx och lägre andel talavvikelser bakom velofarynx i gruppen med unilateral LKG. Vid övriga jämförelser sågs inga signifikanta skillnader.

Jämförelse av resultat baserade på bedömningar av studenter och erfarna logoped

Samstämmigheten mellan logopedstudenterna och de erfarna logopedernas resultat baserade på transkriptioner presenteras i Tabell 4. Samstämmigheten för AKOK varierade från “god till utmärkt” (0,841- 0,925) och för talavvikelser framför velofarynx från “måttlig till god” (0,796 –

0,896), men för talavvikelser bakom velofarynx var den svag (0,126 - 0,341) (Cichetti, 2001). Vid granskning av transkriptionerna hade de erfarna logopederna vid flera tillfällen uppmärksammat talavvikelser bakom velofarynx då inte logopedstudenterna hade noterat det.

Tabell 4. Samstämmighet mellan logopedstudenter och erfarna logopeder (Log 1, Log 2, Log 3) avseende andel korrekta orala konsonanter, andel talavvikelser framför velofarynx och andel talavvikelser bakom velofarynx beräknat med intraklasskorrelationskoefficient (ICC).

Mått	Bedömare	ICC	95 % Konfidensintervall
Andel korrekt orala konsonanter	Studenter – Log 1	0,841	0,268 – 0,940
	Studenter – Log 2	0,905	0,816 – 0,947
	Studenter – Log 3	0,925	0,883 – 0,952
Andel talavvikelser framför velofarynx	Studenter – Log 1	0,82	0,263 – 0,929
	Studenter – Log 2	0,796	0,287 – 0,915
	Studenter – Log 3	0,896	0,743 – 0,948
Andel talavvikelser bakom velofarynx	Studenter – Log 1	0,126	-0,305 – 0,422
	Studenter – Log 2	0,241	-0,136 – 0,499
	Studenter - Log 3	0,341	0,000 – 0,569

Samstämmigheten mellan studenterna och de erfarna logopederna avseende de skalskattade variablerna varierade från “låg till god” (Cichetti, 2001) beroende på vilken variabel som jämfördes (Tabell 5). För hypernasalitet var den “måttlig” (0,527 - 0,571), för hyponasalitet “låg”, (0,250 - 0,374), för hörbart nasalt luftläckage “god” (0,600 - 0,680), för tryckreducerad artikulation “låg till måttlig” (0,316 - 0,489) och för velofarynxfunktion “måttlig till god” (0,542 - 0,640). Bäst samstämmighet uppnåddes på variabeln förståelighet, med kappavärden på 0,717, 0,529 och 0,719.

Tabell 5. Samstämmighet mellan logopedstudenter och erfarna logopeders (Log 1, Log 2, Log 3) avseende skalskattade variabler.

Mått	Bedömning	Kvadratisk vägd Kappa	95 % Konfidensintervall
Hypernasalitet	Studenter – Log 1	0,571	0,296 – 0,845
	Studenter – Log 2	0,568	0,353 – 0,783
	Studenter – Log 3	0,527	0,272 – 0,782
Hyponasalitet	Studenter – Log 1	0,374	0,281 – 0,468
	Studenter – Log 2	0,300	nc – nc*
	Studenter – Log 3	0,250	nc – nc*
Hörbart nasalt luftläckage	Studenter – Log 1	0,680	0,468 – 0,871
	Studenter – Log 2	0,600	0,351 – 0,840
Tryckreducerad artikulation	Studenter – Log 1	0,677	0,407 – 0,947
	Studenter – Log 2	0,418	0,255 – 0,580
	Studenter – Log 3	0,316	0,231 – 0,401
Velofarynxfunktion	Studenter – Log 1	0,489	0,297 – 0,682
	Studenter – Log 2	0,640	0,473 – 0,807
	Studenter – Log 3	0,542	0,325 – 0,759
Förståelighet	Studenter – Log 1	0,603	0,432 – 0,775
	Studenter – Log 2	0,717	0,582 – 0,852
	Studenter – Log 3	0,529	0,344 – 0,714
	Studenter – Log 3	0,719	0,597 – 0,842

* Icke konklusiv, d v s osäkert resultat

Studenternas intrabedömarreliabilitet

Samstämmigheten inom bedömare för studenterna gällande AKOK, PCC-A samt andel talavvikelser bakom velofarynx beräknat med ICC var "utmärkt" (Cichetti, 2001) med ICC mellan 0,902 och 0,954 (Tabell 6). För andel talavvikelser framför velofarynx var samstämmigheten "god", men med något lägre ICC (0,809) än de övriga konsonantvariablerna.

Tabell 6. Samstämmighet inom bedömare för studenterna avseende andel korrekta orala konsonanter (AKOK), procent korrekta konsonanter anpassat efter ålder (PCC-A), andel talavvikelser framför velofarynx och andel talavvikelser bakom velofarynx beräknat med intraklasskorrelationskoefficient (ICC).

Mått	Bedömning	ICC	95 % Konfidensintervall
AKOK	Student – Student	0,930	0,835 – 0,970
PCC-A	Student – Student	0,954	0,893 – 0,981
Talavvikelser framför velofarynx	Student – Student	0,809	0,546 – 0,919
Talavvikelser bakom velofarynx	Student – Student	0,902	0,771 – 0,958

Kappavärdena för hypernasalitet, hyponasalitet och tryckreducerad artikulation låg alla nära 0,8, vilket motsvarar “utmärkt” samstämmighet (Cichetti, 2001) (Tabell 7). Samstämmigheten för velofarynxfunktionen var något sämre (0,699) medan samstämmigheten för förståelighet var bättre (0,866).

Tabell 7. Intrabedömarreliabiliteten för studenterna gällande de skalskattade variablerna hypernasalitet, hyponasalitet, hörbart nasalt luftläckage, tryckreducerad artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet.

Mått	Bedömning	Kvadratisk vägdd Kappa	95% konfidensintervall
Hypernasalitet	Student - Student	0,792	nc – nc*
Hyponasalitet	Student - Student	0,794	0 - 1
Hörbart nasalt luftläckage	Student - Student	0,742	0 - 1
Tryckreducerad artikulation	Student - Student	0,786	nc – nc*
Velofarynxfunktion	Student - Student	0,699	0,295 - 1
Förståelighet	Student - Student	0,866	nc – nc*

* Icke konklusiv, d v s osäkert resultat

Diskussion

Resultat för barnen med någon typ av gomspalt jämfört med normdata och tidigare studier

Medelvärde och median för variabeln AKOK skilde sig betydligt mellan barnen med någon typ av gomspalt och normdatan för svenskspråkiga barn utan LKG i SVANTE (Lohmander et al., 2015). Normdatan presenterar ett medelvärde på 95,8 för AKOK (Appendix 2) vilket är 4,54 standardavvikelser över medelvärdet för hela gruppen barn med någon typ av gomspalt. Förekomsten av talavvikelser framför och bakom velofarynx var också procentuellt högre för barnen med spalt i jämförelse med normdatan i SVANTE. Medelvärdet för talavvikelser framför velofarynx i gruppen med spalt låg 1,11 standardavvikelser över normdatan. När det gäller talavvikelser bakom velofarynx hade gruppen med spalt ett medelvärde på 1,4 % jämfört med normdatans medelvärde på 0 %. Således fanns en ganska stor procentuell skillnad för samtliga variabler, som visade på sämre tal hos gruppen med någon typ av gomspalt jämfört med jämnåriga födda utan spalt. Talvariablerna i SVANTE avseende konsonantproduktion har inte tidigare använts i publicerade studier om tal hos barn med LKG, men flera studier har påvisat signifikant högre förekomst av artikulatoriska talavvikelser hos barn födda med någon typ av gomspalt jämfört med barn utan spalt vid fem års ålder (t ex Klintö et al., 2016; Lohmander & Persson, 2008; Persson et al., 2002; Sell et al., 2015).

I en studie (Klintö et al., 2016) undersöktes PCC-A hos 29 femåringar med unilateral LKG jämfört med 20 jämnåriga barn utan LKG. Nio av barnen hade behandlats med enstegsslutning vid SUS och 20 med tvåstegsslutning, med slutning av hårda gommen vid 12 eller 36 månader. En signifikant skillnad i PCC-A sågs mellan barnen med och utan LKG. Vid ordbenämning hade LKG-gruppen en median på 95 % (spridning 38 till 100 %) och gruppen utan LKG en median på 100 % (spridning 96 till 100 %). Resultaten indikerade även sämre tal hos de barn som hade behandlats med tvåstegsslutning med slutning av hårda gommen vid 36 månaders ålder. Medianen för PCC-A i föreliggande studie, för samtliga barn med någon typ av LKG och även för barnen med unilateral LKG, låg strax över det i studien av Klintö et al. (2016).

Gällande de skalskattade variablerna i föreliggande studie förekom också stora skillnader mellan barnen med och utan LKG. I normdata motsvarade medelvärdena för samtliga mått på passiva talavvikelser (hypernasalitet, hörbart nasalt luftläckage, tryckreducerad artikulation och velofarynxfunktion) normal funktion. Medelvärdet för hypernasalitet för hela gruppen barn med någon typ av gomspalt låg på gränsen till lätt hypernasalitet, och maxvärdet låg strax över måttlig hypernasalitet jämfört med maxvärdet lätt hypernasalitet i normdatan. Även för hypernasalitet fick barnen med spalt ett något högre medelvärde än normdatan. För hörbart nasalt luftläckage hamnade barnen med spalt strax under skalsteget ”lätt avvikelse”. Det förekom även ”kraftig/genomgående” hörbara nasala luftläckage för hela gruppen med någon typ av gomspalt vilket är en skattningsnivå som normdatan inte kom i närheten av, då förekomsten var så sällsynt att den inte kunde beräknas för normdatan. Medelvärdet för tryckreducerad artikulation skattades för barnen med spalt en bit över ”normal”, och maxvärdet mellan ”måttlig och kraftig”. Endast två av barnen i normdatan hade tryckreducerad artikulation och då endast på delar av talmaterialet (Lohmander et al., 2015). I normdatan bedömdes 2 % av barnen ha marginellt otillräcklig velofarynxfunktion, och resterande hade normal velofarynxfunktion. Hos barnen med spalt låg medelvärdet för velofarynxfunktion strax under skalsteget ”marginellt otillräcklig”.

Att femåringar födda med någon typ av gomspalt som grupp har sämre velofarynxfunktion än jämnåriga utan spalt har även visats i andra studier (t ex Lohmander & Persson, 2008; Persson et al., 2002; Sell et al., 2015; Nyberg et al., 2010; Klintö et al., 2014a; Nyberg et al., 2014; Klintö et al., 2016). I en studie av Nyberg et al. (2014) noterades hypernasalitet hos 40 % av femåringarna med unilateral LKG, varav ca 20 % hade ”lätt”

hypernasalitet och ca 20 % "måttlig till kraftig" hypernasalitet. Trettioåtta procent bedömdes ha "marginellt otillräcklig" velofarynxfunktion och 22 % "otillräcklig" velofarynxfunktion. Vidare hade ca 5 % "lätt" tryckreducerad artikulation och ca 20 % "måttlig till kraftig" tryckreducerad artikulation. Resultaten i föreliggande studie var bättre för samtliga variabler både för hela gruppen med någon typ av gomspalt och för gruppen med unilateral LKG. I gruppen med unilateral LKG i föreliggande studie hade 29 % av barnen "lätt" hypernasalitet och ca 12 % "måttlig" hypernasalitet medan "kraftig" hypernasalitet inte förekom. "Marginellt otillräcklig" velofarynxfunktion förekom i 26 % av fallen, 6 % hade "otillräcklig" velofarynxfunktion och övriga hade "god" velofarynxfunktion. Vad gäller tryckreducerad artikulation bedömdes 12 % ha "lätt" avvikelse, 3 % "måttlig" avvikelse och inget barn hade "kraftig" avvikelse. I en annan studie bedömdes 30 % av femåringarna med unilateral LKG ha "måttlig till kraftig" hypernasalitet och 10 % beräknades ha "måttlig till kraftig" tryckreducerad artikulation (Lohmander & Persson, 2008). Jämförelse av taldata från olika studier bör dock göras med försiktighet, eftersom olika bedömare och till viss del även olika bedömningsmetoder har använts i de olika studierna.

Medelvärdet för förståelighet hos barnen med någon typ av gomspalt låg mellan skalstegen "god" och "lätt nedsatt" förståelighet, medan medelvärdet i normdatan låg nära skalsteget "god" förståelighet. De barn i normdatan som hade sämst förståelighet låg på skalsteget "lätt nedsatt", medan vissa barn med spalt hade "måttlig till kraftig" nedsatt förståelighet. Således hade barnen med spalt sämre förståelighet jämfört med barnen utan spalt i normdatan i SVANTE. I föreliggande studie var det ett barn i gruppen med unilateral LKG som bedömdes ha "måttlig till kraftig" nedsatt förståelighet vilket motsvarar 2,9 % av barnen med unilateral LKG. Om man även räknar med de två barn som skattades ligga på gränsen till "måttlig till kraftig" nedsatt förståelighet blir detta totalt 8,8 % av barnen med unilateral LKG som var svårförståeliga. Detta kan jämföras med resultaten i en studie som utfördes i Storbritannien, där talet hos 238 femåringar med unilateral LKG undersöktes, och 17,2 % av barnen bedömdes vara omöjliga att förstå (Sell et al., 2015). Det indikerar att barnen med unilateral LKG i föreliggande studie var svårförståeliga i mindre utsträckning än barnen i den brittiska studien.

Talet hos barn med olika typer av gomspalt

Vid jämförelse mellan barn med olika spalttyper sågs en trend att det vid en grövre spalt (så som unilateral LKG och bilateral LKG) fanns högre förekomst av talavvikelse än vid en mindre omfattande spalt. Barnen med spalt i mjuka gommen och barnen med spalt i mjuka och hårda gommen är färdigopererade vid fem års ålder, om inte fistlar eller annan problematik tillkommer. Vid unilateral och bilateral LKG kvarstår däremot en operation i tandlisten, som utförs vid ca åtta till tio års ålder. Den kvarvarande restspalten kan göra att produktionen av framförallt främre konsonanter försvåras, vilket kan leda till större talproblem (Choa et al., 2014). Det är dock viktigt att ta i beaktande att gruppen med spalt i mjuka gommen i föreliggande studie var mindre än de andra grupperna. Detta kan ha inverkat på resultaten, och bidragit till ett bättre resultat i denna grupp, då det slumpmässigt skulle kunna ha varit fler barn i denna grupp med bra tal. Å andra sidan kan det lilla antalet barn i gruppen vara en bidragande orsak till att det i en del fall inte gick att finna några signifikanta skillnader mellan denna grupp och andra grupper. Skillnaderna mellan grupperna för konsonantvariablerna AKOK, talavvikelse framför och bakom velofarynx var dock signifikanta och risken för att skillnaden var slumpmässig är liten.

Samband mellan spalttyp och talresultat har även setts i tidigare studier (t ex Hardin-Jones & Jones, 2005; Choa et al., 2014; Nyberg et al., 2010). Högre förekomst av främre ljud (bilabialer, dentaler/alveolarer), som är vanliga i joller hos barn med typisk utveckling, har registrerats i joller hos barn med isolerad gomspalt än hos barn med genomgående LKG

(Lohmander-Agerskov et al., 1994). Skillnader i talutvecklingen mellan grupper med olika spalttyper har även noterats hos äldre barn. I en studie som undersökte talet hos femåringar sågs LKG-relaterade talavvikelser, som tillbakadragen artikulation, vara vanligare hos barn med mer omfattande spalter, så som bilateral LKG, än hos barn med mindre omfattande spalter (Choa et al., 2014). Barn med bilateral och unilateral LKG har också visats vara i behov av talbehandling i större utsträckning än barn med spalt i enbart mjuka gommen (Hardin-Jones & Jones, 2005). Två tidigare studier har visat på bättre artikulation och velofarynxfunktion hos barn med spalt i mjuka gommen än hos barn med spalt i både hårda och mjuka gommen (Persson et al., 2002; Hardin-Jones & Jones, 2005). Även i studien av Nyberg et al. (2010) hade barn med spalt i enbart mjuka gommen bättre tal, i form av signifikant lägre förekomst av glottal artikulation och trycksvag artikulation, än barn med spalt i både hårda och mjuka gommen. I föreliggande studie motsvarade medianen för tryckreducerad artikulation "god funktion" för båda spalttyperna. Däremot var maximum-värdet för talavvikelser bakom velofarynx betydligt högre för barnen med spalt i både hårda och mjuka gommen (20 %) än för barnen med spalt i enbart mjuka gommen (7 %). Dock sågs ingen signifikant skillnad mellan grupperna, och medianen för båda grupperna var 0 %.

En bidragande orsak till sämre tal vid mer omfattande spalter kan vara att dessa operationer är svårare att utföra. Sommerlad (2003) undersökte frekvensen av laterala incisioner vid primär gomslutning med muskelrekonstruktion enligt Sommerlad, och fann att laterala incisioner krävdes i 20 % av fallen med unilateral LKG, 71 % av fallen med bilateral LKG och 16 % av fallen med isolerad gomspalt. Risken att utveckla fistlar har dessutom visats vara större för bilateral LKG än isolerad gomspalt (Musgrave, & Bremner, 1960).

En större spridning i individuella resultat för AKOK och andel talavvikelser framför velofarynx sågs i gruppen med bilateral LKG. Dessutom förekom outliers (d v s enskilda värden som avviker från mängden och som, om de utesluts från analysen, får tydlig effekt på resultatet), avseende PCC-A, andel talavvikelser framför velofarynx och andel talavvikelser bakom velofarynx i flera grupper. Flera olika orsaker kan ha bidragit till de lägre resultaten hos enskilda barn. Flertalet barn (18 av 22, d v s 81,8 %) inom de olika spalttyperna, vars resultat visade outliers, hade fått logopedbehandling för någon form av talproblematik, stamning, fonologi eller språkstörning. Elva av barnen, (50 %) hade behandlats för sekretorisk media otit med plaströr och ett barn, (4,5 %) hade genomgått fistelutslutning. Ett barn var flerspråkigt (4,5 %), och ett barn var mycket prematurt född (4,5 %). Dessa faktorer kan ha inverkat på resultaten för de undersökta variablerna, både för hela gruppen med LKG och för grupperna med olika spalttyper. Bland övriga barn, som inte var outliers, förekom logopedbehandling för någon form av talproblematik och/eller fonologi hos 11 barn (18,6 %), 25 barn hade behandlats med plaströr (42,3 %), sex barn var flerspråkiga (10 %) och tre barn var prematurt födda (5 %). Således föreföll förekomsten av logopedisk behandling, behandling av sekretorisk media otit med plaströr och behov av fistelutslutning vara högre bland outliers. Det visade sig dock vara högre förekomst av flerspråkighet och ungefär samma andel prematurt födda barn i gruppen som inte var outliers än hos barnen som var outliers, vilket indikerar att dessa faktorer inte påverkade talet negativt.

Elva av 22 outliers förekom i gruppen unilateral LKG, vilket resulterade i lägre resultat för gruppen. Till exempel sågs för variabeln PCC-A tre tydliga outliers i gruppen med unilateral LKG. Ett av barnen hade genomgått fisteloperation och hade dokumenterad hörselnedsättning och ett annat barn genomgick logopedbehandling för talavvikelser. För talavvikelser framför velofarynx förekom två outliers i gruppen med unilateral LKG. Båda dessa barn hade fått logopedbehandling för fonologi eller annan talproblematik. Ett av dessa två barn var även flerspråkigt och hade genomgått plaströrsbehandling p g a sekretorisk media otit. Sex barn med unilateral LKG hade outliers för talavvikelser bakom velofarynx. För ett av dem noterades flerspråkighet och för ett annat barn plaströrsbehandling p g a sekretorisk media otit,

logopedbehandling för tal och relativt sen operationsålder (16,3 månader). För ytterligare tre barn i gruppen med unilateral LKG noterades logopedbehandling för tal och ett av dem hade en relativt sen operationsålder (17,5 månader).

Tidpunkt och metod för operation

I en brittisk studie på 1110 femåriga barn med LKG genomfördes sekundära talförbättrande operationer i 34 % av fallen (Britton et al., 2014). Sommerlad (2003), som också är verksam i Storbritannien, fann vid utvärdering av sin operationsmetod att av 192 barn, opererade mellan åren 1988 och 1992, behandlades senare 4,6 % med talförbättrande kirurgi. I föreliggande studie hade fyra barn genomgått talförbättrande kirurgi vid fem års ålder och ytterligare fem genomgick talförbättrande kirurgi efter 5 års ålder, vilket totalt motsvarar 11,1 % av barnen. I studien av Persson et al. (2002) genomgick 2 % av barnen med isolerad gomspalt talförbättrande kirurgi före fem års ålder, och i en annan studie genomgick 31 % av barnen med isolerad gomspalt talförbättrande kirurgi före tio års ålder (Persson, Lohmander, & Elander, 2006). I andra svenska studier genomgick 20 till 43 % av barnen talförbättrande kirurgi (Lohmander & Persson, 2008; Nyberg et al., 2010; Nyberg et al., 2014). Andelen barn som genomgick talförbättrande kirurgi i föreliggande studie var således högre än i Sommerlads (2003) utvärdering, men lägre i förhållande till flera andra studier. Det kan inte uteslutas att toleransen för hypernasalitet är av betydelse då behovet av sekundär talförbättrande kirurgi bedöms, och sannolikt är toleransen för hypernasalitet olika inom olika språk (Henningsson, Willadsen, & Lohmander, 2011).

I Sommerlads studie (2003) krävdes fistelslutning i 14 % av fallen med unilateral LKG, 35 % av fallen med bilateral LKG och i 12 % av fallen med isolerad gomspalt. För hela gruppen ger detta en procenthalt på 15 %. I föreliggande studie hade 6,2 % av barnen fistlar och endast ett barn (1,2 %) ansågs vara i behov av fistelslutning, d v s betydligt färre barn än i Sommerlads undersökning. En förklaring till detta kan vara att man vid SUS lägger laterala incisioner i fler av fallen (42 %) (Becker & Hansson, 2013) än vad Sommerlad (2003) själv gör (ca 20 %). Laterala incisioner syftar just till att minska risken för postoperativa fistlar.

I föreliggande studie skedde den primära gomplastiken senare i början av undersökningsperioden och tidigare i slutet. År 2005 var medelåldern för operationen 13,6 månader (spridning 9,8 till 19,1) jämfört med 11,4 månader (spridning 10,2 till 12,8) 2009. Att operationerna har utförts vid olika åldrar kan ha inverkat på talresultatet, då tidig gomslutning anses gynnsam för talutvecklingen (Rohrich et al., 2000). Vid en närmare granskning noterades att barn som hade opererats från 14 månader och uppåt (t o m 19,1 månader) hade sämre genomsnittligt resultat vad gäller AKOK, talavvikelser framför velofarynx och talavvikelser bakom velofarynx, jämfört med genomsnittet för samtliga 81 barn. Även om ingen statistisk analys av skillnader genomfördes, indikerar detta att operation innan 14 månaders ålder är att föredra för att få ett bättre talresultat. En tidigare studie indikerade att barn som hade opererats med enstegsslutning vid 12-15 månaders ålder och även barn som hade opererats med tvåstegsslutning och som fått hårda gommen slutet vid 12 månader hade ett bättre tal vid fem års ålder, än barn som hade genomgått slutning av hårda gommen vid 36 månader (Klintö et al., 2016). Sammantaget tyder detta på att tidig slutning av gommen ger bättre talresultat än sen slutning av gommen. Att barnen i föreliggande studie i början av undersökningsperioden opererades senare kan således ha påverkat resultaten negativt.

Logopedstudenternas bedömningar jämfört med bedömningar av erfarna logopeders

Logopedstudenterna visade sig vara strängare i sina bedömningar än de erfarna logopederna gällande framförallt talavvikelser framför velofarynx, men även gällande AKOK.

Samstämmigheten för talavvikelser bakom velofarynx för logopedstudenterna och logopederna

var svag i samtliga fall. Detta berodde på att logopedstudenterna var sämre på att urskilja talavvikelser bakom velofarynx, kanske för att de inte hört dessa avvikelser i någon större utsträckning och därför inte hade några inre referenser till detta, till skillnad från de erfarna lyssnarna (Sweeney, 2011). Gällande samtliga konsonantvariabler nådde logopedstudenterna högst samstämmighet med logoped 3. Det var också logoped 3 som var strängast bland logopederna för AKOK och talavvikelser framför velofarynx. För talavvikelser bakom velofarynx var logoped 3 mildast i sin bedömning. Värt att notera är att logoped 3 var den av logopederna som hade minst erfarenhet av vetenskapliga talutvärderingar. Detta stärker tidigare indikationer om att mindre erfarna men tränade bedömare generellt är strängare i sina bedömningar vad gäller konsonanttranskriptioner än mer erfarna bedömare (Klintö & Lohmander, 2016). För de skalskattade variablerna var studenterna strängare i sin bedömning avseende variablerna tryckreducerad artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet än den sammanlagda logopedbedömningen. För övriga variabler, hypernasalitet, hyponasalitet och hörbart nasalt luftläckage, var logopederna strängare än studenterna. Studenterna var för de tre sistnämnda variablerna mest lika logoped 1 i bedömningen, men gällande de övriga skalskattade variablerna var inte logopedstudenterna mer samstämmiga med någon specifik logoped, utan samstämmigheten med de olika logopederna varierade för olika variabler. Generellt var samstämmigheten för de skalskattade variablerna, som förväntat, sämre än för konsonantvariablerna (Lohmander & Persson 2008; Klintö, et al., 2014b). Interbedömarreliabiliteten mellan logopederna, samt mellan logopederna och studenterna var låg för hyponasalitet. Det kan bero på att hyponasalitet inte är den mest utmärkande talavvikelsen vid LKG.

För variablerna som baserades på konsonanttranskriptioner var logopedstudenternas intrabedömarreliabilitet "utmärkt", med ICC över 0,9 (Cicchetti, 2001), förutom avseende andel talavvikelser framför velofarynx där samstämmigheten var "god" (ICC 0,809). De erfarna logopedernas intrabedömarreliabilitet var "utmärkt" i samtliga fall, med något bättre ICC-värden än studenterna. Någon avgörande skillnad sågs dock inte, då även studenternas intrabedömarreliabilitet var "utmärkt" för två variabler och "god" för en. Den bästa intrabedömarreliabiliteten gällande de skalskattade variablerna noterades för variabeln förståelighet, för både logopedstudenterna och även för logopederna. Näst bäst samstämmighet inom bedömare noterades för hyponasalitet, därefter hypernasalitet och sedan för hörbart nasalt luftläckage. För studenterna var samstämmigheten inom bedömare sämst för variabeln velofarynxfunktion och för logopederna var den sämst för tryckreducerad artikulation. Velofarynxfunktion och förståelighet skattades på en tregradig skala och resterande variabler på en fyrgradig skala. Färre skalsteg leder i regel till ökad samstämmighet (Whitehill, Lee, & Chun, 2002), och kan ha inverkat positivt på samstämmigheten för både förståelighet och velofarynxfunktion. Till skillnad från variablerna baserade på konsonanttranskriptioner hade studenterna bättre intrabedömarreliabilitet avseende de skalskattade variablerna än logopederna i samtliga fall, utom när det gäller logoped 3:s samstämmighet för variabeln hörbart nasalt luftläckage. Detta kan tyckas överraskande då logopederna hade större erfarenhet av denna sortens bedömning. En förklaring till resultatet kan vara att logopedstudenterna genomförde en konsensusbedömning, vilket gjorde att de hade möjlighet att diskutera. Detta kan ha resulterat i en större balans i bedömningen. Tidigare studier har också visat att konsensusbedömningar kan öka reliabiliteten i bedömningarna (Gooch et al., 2001; Hayden & Klimacka, 2000). En annan orsak till den högre samstämmigheten kan vara att logopedstudenterna, med vetskap om att de var nybörjare på området, lyssnade om fler gånger än de erfarna logopederna, och att de jämförde med referensbedömningarna på PUMA oftare än de erfarna logopederna.

Metoddiskussion

Vid datainsamlingen i denna studie var inte testsituationen identisk för alla barn. Det förekom under åren olika testledare och även i undantagsfall olika ordtest, p g a pågående internationella studier. Dessutom saknades i vissa fall komplett taldata. Variation i testsituationen kan till viss del ha påverkat resultatet och bedömningen av barnen. Exempelvis kan helhetsintrycket för barnen där någon testdel saknades ha blivit annorlunda jämfört med om talmaterialet hade varit komplett. Om till exempel enskilda ord med nasaler saknas, är det svårare att bedöma hyponasalitet, vilket även det kan påverka helhetsintrycket. I de fall där viss taldata saknades, i till exempel orddelen, fanns det ofta annat i talmaterialet, till exempel spontantal, som kunde kompensera för det saknade materialet. Trots vissa brister var talmaterialet i föreliggande studie förhållandevis väl standardiserat i jämförelse med andra studier inom området (t ex Nyberg et al., 2010; Nyberg et al., 2014). Efter övervägning valde vi att inkludera samtliga barn, för att få en konsekutiv grupp barn som i så stor utsträckning som möjligt representerade samtliga barn behandlade vid SUS inom tidsperioden. Detta resulterade i en för LKG-sammanhang relativt stor grupp (Klintö et al., 2014a; Klintö et al., 2014b; Nyberg et al., 2014), med ett förhållandevis litet bortfall (Nyberg et al., 2010; Nyberg et al., 2014; Persson et al., 2002).

Nio av barnen testades med annat ordtest än det som ingår i SVANTE. Även om testen är designade enligt samma principer, är ordtestet i SVANTE mer omfattande. Det kan inte uteslutas att detta påverkade resultaten marginellt. Dessutom eliciterades orden hos tio barn genom eftersägning efter förälder, istället för genom elicitering med bilder i samspel med logoped som hos de andra barnen. Detta berodde på att en logoped som var ny som testledare inte var införstådd med rutinerna. Det kan inte uteslutas att även detta kan ha påverkat resultaten marginellt.

AKOK omfattar både passiva och aktiva talavvikelser. Detta kan ses som en nackdel, eftersom AKOK då inte är ett rent artikulatoriskt mått. De passiva avvikelserna täcks dessutom in i de skalskattade variablerna. För att kunna redovisa ett rent artikulatoriskt mått, och för att kunna jämföra resultaten med resultat från tidigare studier av svenskspråkiga femåringar födda med LKG, beräknades PCC-A utöver variablerna i SVANTE. I PCC-A får barnen inte fel för passiva talavvikelser, och inte heller åldersadekvata talavvikelser, och det bedömdes därför vara ett värdefullt komplement i vår undersökning, för att ge en tydligare bild av barnens tal.

Samstämmigheten mellan och inom bedömare för varje enskild talvariabel är avgörande för resultatens tillförlitlighet. Logopedernas samstämmighet mellan och inom bedömare för konsonantvariablerna var ”god till utmärkt” (Cicchetti, 2001), vilket gör resultaten tillförlitliga. Logopedernas samstämmighet mellan och inom bedömare för de skalskattade variablerna var inte lika god som för konsonantvariablerna. Samstämmigheten mellan logopederna varierade mellan ”måttlig till god” för samtliga variabler förutom hörbart nasalt luftläckage där samstämmigheten var ”god till utmärkt” och för hyponasalitet där samstämmigheten varierade från “lätt till måttlig”. Inom bedömare var samstämmigheten för velofarynxfunktion “måttlig till god”, för hypernasalitet “måttlig till utmärkt”, för hörbart nasalt luftläckage och hyponasalitet “god till utmärkt” och för förståelighet “utmärkt”. För hypernasalitet, tryckreducerad artikulation och velofarynxfunktion var samstämmigheten ändå relativt god i jämförelse med andra studier i området (Klintö et al., 2014b; Nyberg et al., 2010). Eftersom resultaten baserades på ett medelvärde från de tre logopedernas bedömningar, bedöms resultaten vara tillförlitliga för samtliga variabler, utom för hyponasalitet där samstämmigheten var svag.

Fortsatt forskning

Det vore intressant att ytterligare undersöka hur barnets ålder vid den primära gomplastiken inverkar på talutvecklingen och var den kritiska gränsen för operationsålder går för att uppnå en

god talutveckling. Det skulle även vara värdefullt att studera fler barn som har undersökts med talmaterialet SVANTE, för att ytterligare kartlägga talet hos femåringar födda med LKG och de variabler som kan tänkas inverka på talet. Det faktum att samma material används vid samtliga av Sveriges centra för LKG, och att alla centra strävar efter att dokumentera samtliga barns tal med standardiserade ljudinspelningar, möjliggör framtida studier där barn som har opererats med olika operationsmetoder ingår i samma studie. Då kan operationsmetodernas inverkan på talutvecklingen studeras ytterligare.

Slutsatser och kliniska implikationer

Talet hos femåringar födda med någon typ av gomspalt som grupp var sämre än hos jämnåriga födda utan spalt. Gruppen med spalt uppvisade sämre resultat både vad gäller variabler relaterade till artikulation och velofarynxfunktion. Resultaten indikerade dock ett förhållandevis bra tal hos barnen i föreliggande studie, jämfört med talet hos femåringar födda med gomspalt i andra studier. Färre barn som har opererats med muskelrekonstruktion enligt Sommerlad förfaller vara i behov av sekundär talförbättrande kirurgi i jämförelse med barn som har behandlats med andra metoder för primär gomplastik. I enlighet med resultat från tidigare studier noterades ökad risk för talavvikelse ju mer omfattande spalten var. Diskussion pågår angående vilken tidpunkt för primär gomplastik som är att föredra för att få en gynnsam talutveckling. Resultaten i den här studien indikerade att talet blev sämre vid senare primär gomplastik än vid tidigare.

Vidare skilde sig logopedstudenternas bedömningar av talet från de erfarna LKG-logopedernas bedömningar, genom att logopedstudenterna var strängare i sina bedömningar gällande talavvikelse framför velofarynx och AKOK än de erfarna bedömarna, vilket stärker fynd i tidigare forskning som har indikerat detsamma. De hade däremot svårare att uppmärksamma talavvikelse bakom velofarynx. De var även strängare i sin bedömning av vissa skalskattade variabler, så som tryckreducerad artikulation samt velofarynxfunktion och förståelighet, men inte när det gällde hypernasalitet, hyponasalitet och hörbart nasalt luftläckage.

Sammanfattningsvis bedömde logopedstudenterna, som hade mindre erfarenhet av talbedömningar, barnen annorlunda än de erfarna logopederna. För att få en större samstämmighet mellan bedömare i klinik hade ett träningsmaterial för att kalibrera och utveckla bedömare varit positivt. Detta har tidigare utvecklats i Storbritannien med gott resultat (Sell et al., 2009).

Tack

Varmt tack till handledarna Kristina Klintö och Magnus Becker för all guidning under arbetets gång. Stort tack till Rebecca Rylance för statistisk konsultation vid säkerställandet av adekvata statistiska analyser. Tack riktas även till Liisi Raud Westberg för illustrationer. Hjärtligt tack till logopederna Karin Brunnegård, Liisi Raud Westberg och Maria Sporre för ert deltagande i form av de bedömningar som uppsatsen vilar på. Tack till alla deltagande barn.

Referenser

- Alam, M. K., Iida, J., Sato, Y., & Kajii, T. S. (2013). Postnatal treatment factors affecting craniofacial morphology of unilateral cleft lip and palate (UCLP) patients in a Japanese population. *British Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 51(8), 205-210. doi: 10.1016/j.bjoms.2012.10.001
- Bagnall, A. D., & David, D. J. (1988). Speech results of cleft palate surgery: two methods of assessment. *British Journal of Plastic Surgery*, 41(5), 488-495. doi:10.1016/0007-1226(88)90005-7
- Barillas, I., Dec, W., Warren, S. M., Cutting, C. B., & Grayson, B. H. (2009). Nasoalveolar molding improves long-term nasal symmetry in complete unilateral cleft lip-cleft palate patients. *Plastic Reconstructive Surgery*, 123(3), 1002-1006. doi:10.1097/PRS.0b013e318199f46e
- Becker, M., & Hansson, E. (2013). Low rate of fistula formation after Sommerlad palatoplasty with or without lateral incisions: an analysis of risk factors for formation of fistulas after palatoplasty. *Journal of Plastic, Reconstructive & Aesthetic Surgery*, 66(5), 697-703. doi: 10.1016/j.bjps.2013.01.031
- Britton, L., Albery, L., Bowden, M., Harding-Bell, A., Phippen, G., & Sell, D. (2014). A cross-sectional cohort study of speech in five-year-olds with cleft palate +/- lip to support development of national audit standards: benchmarking speech standards in the United Kingdom. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 51(4), 431-451. doi:10.1597/13-121
- Brunnegård, K., & Lohmander, A. (2007). A cross-sectional study of speech in 10-year-old children with cleft palate: results and issues of rater reliability. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 44(1), 33-44. doi: 10.1597/05-164
- Chapman, K. L. (2004). Is presurgery and early postsurgery performance related to speech and language outcomes at 3 years of age for children with cleft palate. *Clinical linguistics & phonetics*, 18(4-5), 235-257.
- Chapman, K. L. (2009). Speech and language of children with cleft palate: interactions and influences. I K. T. Moller & L. E. Glaze (Red.), *Cleft Lip and Palate: Interdisciplinary Issues and treatment* (ss. 243-293). Austin: Pro-Ed Publications
- Choa, R. M., Slator, R., Jeremy, A., Robinson, S., Franklin, D., Roberts, A., ... Clark, V. (2014). Identifying the effect of cleft type, deprivation and ethnicity on speech and dental outcomes in UK cleft patients: a multi-centred study. *Journal of Plastic, Reconstructive & Aesthetic Surgery*, 67(12), 1637-1643. doi: 10.1016/j.bjps.2014.07.018
- Cicchetti D.V. (2001). Methodological commentary. The precision of reliability and validity estimates re-visited: Distinguishing between clinical and statistical significance of sample size requirements. *Journal of Clinical and Experimental Neuropsychology*, 23(5), 695-700. doi: 10.1076/jcen.23.5.695.1249
- Friede, H. (2009). Two-stage palate repair. I J. E. Losee, & R. E. Kirschner (Red.), *Comprehensive Cleft Care* (ss. 413-429). McGraw Hill.
- Friede, H., Lilja, J., & Lohmander, A. (2012). Long-term, longitudinal follow-up of individuals with UCLP after the gothenburg primary early veloplasty and delayed hard palate closure protocol: maxillofacial growth outcome. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 49(6), 649-656. doi: 10.1597/10-252
- Funayama, E., Yamamoto, Y., Nishizawa, N., Mikoya, T., Okamoto, T., Imai, S., ... Oyama, A. (2014). Important points for primary cleft palate repair for speech derived from speech outcome after three different types of palatoplasty. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 78(12), 2127-2131. doi: 10.1016/j.ijporl.2014.09.021

- Gooch, L. J., Hardin-Jones M., Chapman, L. K., Trost-Cardamone, E. J., & Sussman, J. (2001). Reliability of listener transcriptions of compensatory articulations. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 38(1), 59-67.
- Hagberg, C., Larson, O., & Milerad, J. (1998). Incidence of cleft lip and palate and risks of additional malformations. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 35(1), 40-45.
- Hanson, J. W., Myrianthopoulos, N. C., Harvey, M. A., & Smith, D. W. (1976). Risks to the offspring of women treated with hydantoin anticonvulsants, with emphasis on the fetal hydantoin syndrome. *Journal of Pediatrics*, 89(4), 662-668.
- Hardin-Jones, M. A., & Jones, D. L. (2005). Speech production of preschoolers with cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 42(1), 7-13.
- Harding, A., & Grunwell, P. (1998). Active versus passive cleft-type speech characteristics. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 33(3), 329-352.
- Hayden, C., & Klimacka, L. (2000). Inter-rater reliability in cleft palate speech assessment. *Journal of Clinical Excellence*, 2, 169-173.
- Henningsson, G. & Isberg, A. (1990). Oronasal fistulae and speech production. I J. Bardach, & H. Morris (Red.), *Multidisciplinary Managment of Cleft Lip and Palate*. Philadelphia: WB Saunders.
- Henningsson, G. & Willadsen, E. Lohmander, A. (2011). I S. Howard & A. Lohmander (Red.), *Cleft Palate Speech: Assessment and Intervention* (ss. 167-179). Wes Sussex. UK: Wiley-Blackwell. John Wiley and Sons. ISBN: 978-0-470-74330-0
- Honein, M. A., Rasmussen, S. A., Reefhuis, J., Romitti, P. A., Lammer, E. J., Sun, L., & Correa, A. (2007). Maternal smoking and environmental tobacco smoke exposure and the risk of orofacial clefts. *Epidemiology*, 18(2), 226-233.
- Howard, S. J. (1993). Articulatory constraints on a phonological system: a case study of cleft palate speech. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 7, 299-317.
doi: 10.1080/02699209308985569
- IPA. (2005). The International Phonetic Alphabet.
http://www.langsci.ucl.ac.uk/ipa/IPA_chart_%28C%292005.pdf (Hämtad 150306).
- IPA. (2008). extIPA Symbols for Disordered Speech.
<http://www.langsci.ucl.ac.uk/ipa/extIPAChart2008.pdf> (Hämtad 150306).
- Karolinska Institutet. (2016). *PUMA Praktisk Utbildning med Multimedia Användning*. Hämtad 2016-01-20, från <https://www.puma-lkg.se/node/25>
- Kent, R. D. (1996). Hearing and believing: some limits to the auditory-perceptual assessment of speech and voice disorders. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 5, 7-23.
doi:10.1044/1058-0360.0503.07
- Klintö, K., & Lohmander, A. (2016). Does the recording medium influence phonetic transcription of cleft palate speech? Submitted.
- Klintö, K., Salameh, E. K., Flynn, T., Olsson, M., Svensson, H., & Lohmander, A. (2014a). Phonology in Swedish-speaking 3-year-olds born with cleft lip and palate and the relationship with consonant production at 18 months. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 49(2), 240-254. doi: 10.1111/1460-6984.12068
- Klintö, K., Salameh, E. K., & Lohmander, A. (2016). Phonology in Swedish-speaking 5-year-olds born with unilateral cleft lip and palate and the relationship with consonant production at 3 years of age. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 18(2), 147-156.

- Klintö, K., Salameh, E. K., Svensson, H., & Lohmander, A. (2011). The impact of speech material on speech judgement in children with and without cleft palate. *International Journal of Language & Communication Disorders*, 46(3), 348-360. doi: 10.3109/13682822.2010.507615
- Klintö, K., Svensson, H., Elander, A., & Lohmander, A. (2014b). Speech and phonology in Swedish-speaking 3-year-olds with unilateral complete cleft lip and palate following different methods for primary palatal surgery. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 51(3), 274-282. doi: 10.1111/1460-6984.12127
- Kriens, O. B. (1969). An anatomical approach to veloplasty. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 43(1), 29-41.
- Källén, B. (1997). Maternal smoking and orofacial clefts. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 34(1), 11-16.
- Lohmander, A. (2011). Surgical Intervention and speech outcomes in cleft lip and palate. I S. Howard & A. Lohmander (Red.), *Cleft Palate Speech: Assessment and Intervention* (ss. 55-85). Wes Sussex. UK: Wiley-Blackwell. John Wiley and Sons. ISBN: 978-0-470-74330-0
- Lohmander, A., Borell E., Henningsson, G., Havstam, C., Lundeborg, I. & Persson, C., SVANTE – Svenskt Artikulations- och Nasalitetstest. Manual. (2015). Pedagogisk Design
- Lohmander, A., Friede, H., & Lilja, J. (2012). Long-term, longitudinal follow-up of individuals with unilateral cleft lip and palate after the gothenburg primary early veloplasty and delayed hard palate closure Protocol: Speech Outcome. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 49(6), 657–667. doi: 10.1597/11-085
- Lohmander, A., & Olsson, M. (2004). Methodology for perceptual assessment of speech in patients with cleft palate: a critical review of the literature. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 41(1), 64-70. doi: 10.1597/02-136
- Lohmander, A., Olsson, M., & Flynn, T. (2011). Early consonant production in Swedish infants with and without unilateral cleft lip and palate and two-stage palatal repair. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 48(3), 271-285. doi: 10.1597/09-105.
- Lohmander, A., & Persson, C. (2008). A longitudinal study of speech production in Swedish children with unilateral cleft lip and palate and two-stage palatal repair. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 45(1), 32-41. doi: 10.1597/06-123.1
- Lohmander, A., Willadsen, E., Persson, C., Henningsson, G., Bowden, M., & Hutters, B. (2009). Methodology for speech assessment in the Scandcleft project—an international randomized clinical trial on palatal surgery: Experiences from a pilot study. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 46(4), 347-362.
- Lohmander-Agerskov, A., Söderpalm, E., Friede, H., Persson, E. C., & Lilja, J. (1994). Pree-speech in children with unilateral cleft lip and palate or cleft palate only: phonetic analysis related to morphologic and functional factors. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 31(4), 271-279.
- Malmborn, J. O., Becker, M., & Klintö, K. (2016). Reliability of speech data in the Swedish quality registry for cleft lip and palate. Submitted.
- Mars, M., & Houston, W. J. (1990). A preliminary study of facial growth and morphology in unoperated male unilateral cleft lip and palate subjects over 13 years of age. *Cleft Palate Journal*, 27(1), 7-10.
- Moore, L. K. & Persaud T. V. N. (2008). *The Developing Human, Clinically oriented embryology*. Philadelphia: Saunders/Elsevier.
- Morris, H., & Ozanne, A. (2003). Phonetic, phonological, and language skills of children with a cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 40(5), 460-470.

- Musgrave, R. H., & Bremner, J. C. (1960). Complications of cleft palate surgery. *Plastic and Reconstructive Surgery Transplant Bull*, 26, 180–189.
- Nyberg, J., Peterson, P., & Lohmander, A. (2014). Speech outcomes at age 5 and 10 years in unilateral cleft lip and palate after one-stage palatal repair with minimal incision technique – A longitudinal perspective. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 78, 1662-1670.
- Nyberg, J., Raud-Westberg, L., Neovius, E., Larson, O., & Henningsson, G. (2010). Speech results after one-stage palatoplasty with or without muscle reconstruction for isolated cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 47(1), 92-103. doi: 10.1597/08-222.1
- Oller, D. K., & Eilers, R. E. (1975). Phonetic expectation and listener validity. *Phonetica*, 31(3-4), 288-304.
- Oller, D. K., Eilers, R. E., Neal, A. R., & Schwartz, H. K. (1999). Precursors to speech in infancy: the prediction of speech and language disorders. *Journal of Communication Disorders*, 32(4), 223-246.
- Ortiz-Monasterior, F., Rebeil, A. S., Valderrama, M., & Cruz, R. (1959). Cephalometric measurements on adult patients with nonoperated cleft palates. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 4, 53-61.
- Persson, C., Elander, A., Lohmander-Agerskov, A., & Söderpalm, E. (2002). Speech outcomes in isolated cleft palate: impact of cleft extent and additional malformations. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 39, 397-408. doi:10.1597/1545-1569(2002)039%3C0397:SOIICP%3E2.0.CO;2
- Persson, C., Lohmander, A., & Elander, A. (2006). Speech in children with an isolated cleft palate: A longitudinal perspective. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, 43(3), 295-309.
- Peterson-Falzone, S., Trost-Cardamone, J., Karnell, M. & Hardin-Jones, M. (2006). *The Clinician's Guide to Treating Cleft Palate Speech*. St Louis: Mosby.
- Renfrew, C. E. (1997). *Bus Story Test: A Test of Narrative Speech* (4. uppl.). Bicester, Oxon: Winslow Press. Swedish translation and adaptation: Svensson, Y., & Tuominen-Eriksson, A-M. (2002). Göteborg, Sweden: Specialpedagogiska institutet Läromedel.
- Rohrich, R. J., Love, E. J., Byrd, H. S., & Johns, D. F. (2000). Optimal timing of cleft palate closure. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 106(2), 413-421.
- Ross, R. B. (1987). Treatment variables affecting facial growth in complete unilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate Journal*, 24, 54-77.
- Santelmann, L., Sussman, J., & Chapman, K. (1999). Perception of middorsum palatal stops from the speech of three children with repaired cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 36(3), 233-242. doi:10.1597/1545-1569(1999)036<0233:POMPSF>2.3.CO;2
- Schweckendiek, W. (1978). Primary veloplasty: long-term results without maxillary deformity, a twenty-five year report. *Cleft Palate Journal*, 15(3), 268-247.
- Sell, D. (2005). Issues in perceptual speech analysis in cleft palate and related disorders: a review. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 40(2), 103-121. doi:10.1080/13682820400016522
- Sell, D., John, A., Harding-Bell A., Sweeney, T., Hegarty F., & Freeman J. (2009). The cleft audit protocol for speech (CAPS-A): a comprehensive training package for speech analysis. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 44, 4, 529-548. doi:10.1080/13682820802196815
- Sell, D., Mildinhal, S., Albery, L., Wills, A. K., Sandy, J. R., & Ness, A. R. (2015). The cleft care UK study. Part 4: perceptual speech outcomes. *Orthodontics and Craniofacial Research*, 18(2), 36–46. doi: 10.1111/ocr.12112

- Shaw, W. C., Semb, G., Nelson, P., Brattström, V., Mølsted, K., Prah-Andersen, B. & Grundlach, K. K. (2000). *The Eurocleft Project 1996-2000. Standards of Care for Cleft Lip and Palate in Europe. European Commission Biochemical and Health Research.* Amsterdam: IOS Press
- Shriberg, L. D., & Lof, G. L. (1991). Reliability studies in broad and narrow phonetic transcription. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 5(3), 225-279.
doi:10.3109/02699209108986113
- Sommerlad, B. (2006). Surgery of the cleft palate: repair using the operating microscope with radical muscle repositioning – the GOSTA approach. *B-ENT*, 2(4), 32-34.
- Sommerlad, B. C. (2003). A technique for cleft palate repair. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 112(6), 1542-1548.
- Sommerlad, B. C. (2008). Cleft palate repair. I J. E. Losee & R. E. Kirschner (Red.), *Comprehensive Cleft Care* (ss.413-429). McGraw Hill.
- Suslak, L., & Desposito, F. (1988). Infants with cleft lip/cleft palate. *Pediatrics in Review*, 9(10), 331-334.
- Sweeney, T. (2011). Nasality – Assessment and Intervention. I S. Howard & A. Lohmander (Red.). *Cleft Palate Speech: Assessment and Intervention* (ss. 199-220). Wes Sussex. UK: Wiley-Blackwell. John Wiley and Sons. ISBN: 978-0-470-74330-0
- Whitehill, T. L., Lee, A. S. Y., & Chun, J. C. (2002). Direct magnitude estimation and interval scaling of hypernasality. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 45(1), 80-88. doi:10.1044/1092-4388(2002/006)
- Wilcox, A. J., Lie, R. T., Solvoll, K., Taylor, J., McConnaughey, D. R., Åbyholm, F., ... Drevon, C. A. (2007). Folic acid supplements and risk of facial clefts: national population based case-control study. *BMJ*, 334, 464-474. doi:10.1136/bmj.39079.618287.0B
- Willadsen, E. (2013). Lexical selectivity in danish toddlers with cleft palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 50(4), 456–465.
- Williams, A. C., Sandy, J. R., Thomas, S., Sell, D., & Sterne, J. A. (1999). Influence of surgeon's experience on speech outcome in cleft lip and palate. *Lancet*, 345(9191), 1697-1698.

Appendix 1

Tillägg till riktlinjerna i SVANTE-manualen

- Om talavvikelse sker både bakom och framför velofarynx, vid dubbelartikulation, väger talavvikelsen bakom velofarynx tyngre och antecknas som talavvikelse bakom velofarynx, men talavvikelsen framför velofarynx noteras inte.
- När det förekommer två avvikande artikulationsställen vid en dubbelartikulation kryssas endast ett av dessa avvikande artikulationssätt i.
Exempel 1: Om /b/ är målljud och transkriberas som /tk/, kan man välja att kryssa i avvikande artikulationsställe velar eller dental.
Exempel 2: Om /s/ är målljud, men transkriberas /tf/, så kryssas den ruta i där annat artikulationsställe förekommer, i detta fall labiodental.
- Avtoning, påtoning, h-sering, klusilering o s v kryssas i som fonologiskt relaterade avvikelser.
- När samma ord upprepas av barnet, och har transkriberats två gånger, förs den transkription in i rutschemat som motsvarar barnets bästa produktion.
- h-sering blir i SVANTE ett fonologiskt relaterat fel, och alltså inte en talavvikelse bakom velofarynx, trots att det är en glottal frikativa.

Appendix 2

SVANTE-normering

Medelvärde, standardavvikelse (SD), median, minimum-maximum (Min-Max), medelvärde -1 och -2 SD för variablerna andel korrekta orala konsonanter (AKOK), andel talavvikelser framför och bakom velofarynx, hypernasalitet, hyponasalitet, hörbart nasalt luftläckage, tryckreducerad artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet för 103 barn utan LKG i åldern 4;7- 5;3 år (Lohmander et al., 2015).

Mått	Medelvärde	SD	Median	Min-Max	-1 SD	-2 SD
AKOK %	95,8	4,8	97	76-100	91	86,2
Talavvikelser framför velofarynx %	2,8	3,9	1,7	0-15	-	-
Talavvikelser bakom velofarynx %	0	0	0	0	0	0
Hypernasalitet 1-4	1,0	-	1,0	1-2	-	-
Hyponasalitet 1-4	-	-	1,0	-	-	-
Hörbart nasalt luftläckage 1-4	1,0	-	1,0	1-1	0	0
Tryckreducerad artikulation 1-4	1,0	-	1,0	-	-	-
Velofarynxfunktion 1-3	1,0	-	1,0	1-2	-	-
Förståelighet 1-3	1,1	-	1	1-2	-	-