



Institutionen för neurovetenskap och fysiologi
Sektionen för hälsa och rehabilitering
Enheten för logopedi

303

Talet hos unga vuxna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt - En beskrivande och jämförande studie

Olivia Lundwall
Rebecka Stenlund

Examensarbete i logopedi
30 högskolepoäng
Vårterminen 2017

Handledare
Christina Persson
Patrik Boivie

Talet hos unga vuxna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt

– en beskrivande och jämförande studie

Olivia Lundwall
Rebecka Stenlund

Sammanfattning. Föreliggande studie studerade talet hos 13 unga vuxna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt samt jämförde dessa med två åldersmatchade kontrollgrupper, födda med unilateral läpp-käk-gomspalt respektive utan läpp-käk-gomspalt. Artikulation bedömdes med *Svenskt Artikulations- och NasalitetsTEst* genom fonetisk transkription. Velofarynxfunktion skattades av logopedier och nasaliseringsvärde erhöles med Nasometer™. Förståelighet bedömdes med förståelighetstestet *Swedish Intelligibility Assessment* genom ortografisk transkription. Deltagarna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt hade signifikant lägre resultat jämfört med deltagarna utan läpp-käk-gomspalt avseende artikulation, velofarynxfunktion samt förståelighet på ordnivå. Deltagarna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt hade signifikant mer nasalt luftläckage än de med unilateral läpp-käk-gomspalt, samt signifikant fler artikulationsavvikelser framför velofarynx. Kontrollgrupperna skilde sig inte nämnvärt. Resultaten tyder på att unga vuxna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt har mer avvikande artikulation samt nedsatt velofarynxfunktion än jämnåriga utan läpp-käk-gomspalt. Mer forskning inom talet hos unga vuxna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt behövs.

Nyckelord: bilateral läpp-käk-gomspalt, unga vuxna, artikulation, förståelighet, velofarynxfunktion.

Speech outcome in young adults born with bilateral cleft lip and palate

- a descriptive and comparative study

Abstract. The aim of this study was to evaluate speech in 13 young adults born with bilateral cleft lip and palate (CLP) and compare these with two age-matched controls, born with unilateral CLP or without CLP. Articulation was assessed with *Svenskt Artikulations- och NasalitetsTEst* through phonetic transcription. Velopharyngeal function was rated by speech and language pathologists and nasalance score was obtained with Nasometer™. Intelligibility was assessed through orthographic transcription with *Swedish Intelligibility Assessment*. Participants born with bilateral CLP had significantly lower results in articulation, velopharyngeal function and intelligibility in words compared to participants without cleft. Participants born with bilateral CLP had significantly more nasal air leakage and anterior articulation errors compared to participants born with unilateral CLP. Controls did not differ substantially. The results indicate more deviant articulation and velopharyngeal function in young adults born with bilateral CLP compared to young adults without cleft. Further research in this field is required.

Key words: bilateral cleft lip and palate, young adults, articulation, intelligibility, velopharyngeal function.

Behandling och uppföljning av personer som föds med läpp-käk-gomspalt (LKG) pågår upp till 19 års ålder då behandlingsresultatet räknas som slutgiltigt. Trots att talavvikelser påvisats förekomma hos personer över 19 år är talet hos vuxna födda med LKG ett relativt outforskat område, särskilt hos de födda med bilateral läpp-käk-gomspalt (Farzaneh, Becker, Peterson & Svensson, 2009). Det finns få studier som beskriver talet hos unga vuxna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt (BLKG) samt jämför dessa med andra typer av LKG. Huruvida mer utbredd LKG leder till mer avvikande tal och därmed andra terapeutiska och kirurgiska behov är ännu inte helt kartlagt (Van Lierde, De Bodt, Van Borsel, Wuyts & Van Cauwenberge, 2002). Det finns en studie som påvisat att större spalt kan leda till mer avvikande tal även hos ungdomar och unga vuxna (Karling, Larson, Leanderson & Henningsson, 1993). Det är således av intresse att ytterligare kartlägga hur talet ser ut hos unga vuxna födda med BLKG samt undersöka om de skiljer sig mot unga vuxna födda med unilateral läpp-käk-gomspalt (ULKG) eller unga vuxna födda utan LKG.

LKG uppstår till följd av ofullständig slutning av läpp, käke och/eller gom i fjärde till tionde veckan i fosterutvecklingen vilket leder till en strukturell deformitet (Mossey, Little, Munger, Dixon & Shaw, 2009). Typ av LKG kan beskrivas utifrån vilka strukturer som berörs; läpp, käke, hårda gommen och mjuka gommen. Om ena sidan berörs av spalten benämns den som ULKG eller om båda sidor berörs BLKG. Spalten kan förekomma isolerat i enskild struktur, i några strukturer alternativt alla strukturer och kan vara partiell eller total (Mossey et al., 2009). Under ett år föds cirka 2/1000 levande födda i Sverige med denna missbildning och det är således en av de vanligaste ansiktsmissbildningarna hos barn (Hagberg, Larson & Milerad, 1998). Av alla svenska barn som föds drabbas 0,3/1000 av BLKG. LKG förekommer oftare hos pojkar än hos flickor och samtidig förekomst av ytterligare missbildning finns hos cirka en sjättedel av de som föds med någon form av LKG (Hagberg et al., 1998). Orsaken till att LKG uppstår är till stor del okänd, men ärftliga och miljömässiga komponenter har påvisats påverka uppkomsten (Mossey et al., 2009). Personer som föds med LKG i Sverige behandlas på ett av landets regionsjukhus av ett multidisciplinärt behandlingsteam bland annat bestående av plastikkirurg, ortodontist och logoped (Havstam, Lohmander, Dahlgren Sandberg & Elander, 2008). Målet med behandlingen är att normalisera utseendet av näsa, läppar, tänder och funktioner som tal, tuggning, näsandning och hörsel, samt att bidra till psykologisk anpassning för individen med LKG (Marcusson, Akerlind & Paulin, 2001). Kirurgi för slutning av berörda strukturer genomförs under uppväxten enligt ett vårdprogram och varierande typ av kirurgiska metoder och tidpunkt för slutning används av olika team. Vid behov genomförs också sekundära operationer såsom talförbättrande kirurgi (Lohmander-Agerskov, 1998). De som föds med LKG följs upp regelbundet från födsel till 19 års ålder (Havstam et al., 2008). Logopedens uppgift i teamet är att tidigt ge information om matning samt bedöma tal- och språkutveckling under uppväxten. Talbehandling ges ofta med fokus på att hitta rätt artikulationsställen vid tal samt att kunna rikta luftströmmen oralt (Lohmander-Agerskov, 1998).

Många som föds med LKG får påverkat tal i form av hypernasalitet, hyponasalitet, nasalt läckage och/eller kompensatorisk artikulation på grund av strukturella avvikelser i munhåla och otillräcklig velofarynxfunktion (Henningsson et al., 2008). Röstsvårigheter vid LKG kan också förekomma. Talavvikelser hos personer födda med LKG kan delas in i passiva och aktiva (Harding & Grunwell, 1998; Hutter & Brønstedt, 1987). Passiva

talavvikelser är ett resultat av otillräcklig velofarynxfunktion eller strukturella avvikelser i munhåla, vilket kan leda till ett bristande intraoralt tryck vid skapandet av tryckstarka konsonanter, hypernasal klang på tonande fonem, hörbara nasala genomslag och velofaryngeala friktionsljud. Aktiva talavvikelser består av kompensatorisk artikulation där artikulatorerna flyttas till en plats där uppbyggande av intraoralt tryck är möjligt (Hutters & Brønstedt, 1987).

Förståelighet är ett begrepp som förekommer i många studier då man undersöker talet hos personer födda med LKG (Karling et al., 1993; Lohmander, Friede & Lilja, 2012; Van Lierde et al., 2002). Trots begreppets långvariga användning saknas konsensus kring vad förståelighet innebär och hur det ska bedömas på bästa sätt (Kent, Weismer, Kent & Rosenbek, 1989; Whitehill, 2002). Många olika definitioner av förståelighet har använts genom åren (Lagerberg, 2013). I föreliggande studie definieras förståelighet som *“the degree to which the acoustic signal /.../ is understood by a listener”* (Yorkston, Strand & Kennedy, 1996, s. 55). Definitionen innebär alltså hur väl lyssnaren förstår talarens akustiska signal isolerat från omgivande faktorer. Det är viktigt att förståelighet bedöms med metoder som har både hög reliabilitet och validitet (Whitehill, 2002). Nästan hälften av de artiklar som granskades i reviewartikeln av Whitehill (2002) använde någon variant av intervallskalor. En sådan bedömning påverkas lätt av kontextuella faktorer och brister ofta i validitet. Genom transkription eller flervalsuppgifter hjälper man lyssnaren att enbart fokusera på förståeligheten och hög reliabilitet har påvisats för dessa metoder (Johannisson, Lohmander & Persson, 2014; Whitehill, 2002). De senaste åren har det även utvecklats datorprogram med så kallad automatisk taligenkänning för instrumentell bedömning av förståelighet i talade ord och meningar (Mayr et al., 2010; Schuster et al., 2006, 2012). Några studier har undersökt förståelighet hos personer äldre än 19 år födda med ULKG genom ordinalskala och påvisat hög förekomst av god förståelighet (Farzaneh, Becker, Peterson & Svensson, 2008; Lohmander et al., 2012). I en longitudinell studie av Lohmander et al. (2012) hade 98–100% av deltagarna födda med ULKG vid 10 års ålder normal förståelighet, vilket likväl kvarstod vid 19 års ålder. I studien av Farzaneh et al. (2008) hade 1/61 (2%) vuxna födda med ULKG nedsatt förståelighet. Av vuxna födda med BLKG hade däremot 5/36 (14%) nedsatt förståelighet (Farzaneh et al., 2009). Till synes förefaller förståeligheten vara något lägre hos de födda med BLKG vid skattad förståelighet. Olsson och Rutgersson (2010) har i ett examensarbete undersökt förståelighet på ord- och meningsnivå hos 19-åringar där flervalsalternativ respektive ortografisk transkription användes. De födda med BLKG tenderade att ha något lägre förståelighet än de med isolerad gomspalt.

Mycket av den forskning som bedrivits inom området unga vuxna födda med LKG har inriktats på operationsmetoder där tidpunkt för slutning av gommen varit i fokus (Whitehill, 2002). En debatt har länge pågått angående tidpunkt för slutning av gommen och generellt har resultaten visat att sen slutning av gommen ger förbättrad tillväxt av mellanansiktet medan tidigare slutning ger förbättrad artikulation (Lohmander et al., 2012). Vissa studier har som del i utvärderingen av kirurgi bedömt bland annat talet hos unga vuxna (Farzaneh et al., 2008, 2009; Lohmander et al., 2012; Peterson-Falzone, 1995). Farzaneh et al. (2009) har i en långtidsuppföljning utfört perceptuell talanalys och självskattning av talkvalitet hos unga vuxna födda med BLKG. Mellan de två studiegrupperna skilde sig inte tidpunkt och strategi av kirurgi signifikant. Hos deltagarna var det låg förekomst av kompensatorisk artikulation men cirka 40% hade avvikelse på

/s/. I en tidigare studie av Farzaneh et al. (2008) undersöktes på liknande sätt artikulation hos unga vuxna födda med ULKG där resultatet visade att 35% av deltagarna hade avvikande artikulation på /s/. En studie av Peterson-Falzone (1995) har bedömt talet hos tonåringar födda med BLKG, ULKG eller isolerad gomspalt perceptuellt. Deltagarna delades in i sju kategorier utefter vilka talavvikelser som förekom och av de födda med BLKG hamnade cirka 45% i kategorin "enbart artikulationsavvikelser", cirka 22% i kategorin "normal" och resterande i övriga kategorier där blandade svårigheter med nasalitet och/eller artikulationsavvikelser förekom. Lohmander et al. (2012) har genomfört en långtidsuppföljning hos personer födda med ULKG där tillbakadragen artikulation minskade från förekomst hos 34/55 (61%) vid 5 år till 2/55 (4%) av deltagarna vid 16 år och 1/55 (2%) vid 19 år. I ovanstående studier har inte talet hos de tonåringar eller unga vuxna med LKG som deltagit transkriberats fonetiskt utan bedömts med skattningsskalor.

Gällande passiva avvikelser visade talresultatet i Farzaneh et al. (2009) att 53% av deltagarna med BLKG hade måttlig till kraftig hypernasalitet, detta trots att cirka en tredjedel av samtliga deltagare hade genomgått talförbättrande kirurgi i form av svalglambå. Dessutom hade 22% av deltagarna velofaryngeala friktionsljud och 14% hade nasala genomslag. I den tidigare studien av Farzaneh et al. (2008) där talet hos unga vuxna födda med ULKG bedömdes hade cirka 26% av deltagarna måttlig till kraftig hypernasalitet, vilket således är ungefär hälften så många vid jämförelse med de födda med BLKG. Här hade 7% velofaryngeala friktionsljud och 15% nasala genomslag. Dessa två studier hade inga kontrollgrupper och bedömarna var inte blindade för vilken typ av LKG som bedömdes. Lohmander et al. (2012) visade i sin långtidsuppföljning att 53% av femåringarna födda med ULKG hade någon grad av hypernasalitet samt att 31% hade nasalt luftläckage, vilket sedan minskat kraftigt till att endast en deltagare hade nasalt luftläckage vid 19 år och ingen hade mer än lätt hypernasalitet. Velofarynxfunktionen bedömdes vara god hos 87% av 19-åringarna. Det finns dessvärre ingen studie som, enligt författarnas kännedom, undersökt talet hos unga vuxna födda med BLKG som varit blindade för typ av LKG samt haft en kontrollgrupp med annan typ av LKG eller utan LKG. Nasalt luftläckage har dessutom i många studier bedömts på en skala och inte utifrån andel förekomster i ett visst antal målljud.

Studier har gjorts som undersökt huruvida artikulation och symtom på velofarynxinsufficiens skiljer sig åt hos barn beroende på vilken typ av LKG som förekommer (Dalston, Warren & Dalston, 1992; Laitinen et al., 1998). Barnen med BLKG hade nästan dubbelt så mycket kompensatorisk artikulation jämfört med barnen med ULKG eller isolerad gomspalt (Dalston et al., 1992) och artikulationsavvikelser på /l/, /s/ och /r/ blev vanligare ju större spalt som förekom (Laitinen et al., 1998). Betydligt färre studier har jämfört talet hos unga vuxna och de studier som genomförts har fått varierande resultat (Karling et al., 1993; Van Lierde et al., 2002; Van Lierde, De Bodt, Baetens, Schrauwen & Van Cauwenberge, 2003). Karling et al. (1993) jämförde talet hos barn och ungdomar födda med BLKG, ULKG eller utan LKG där olika talparametrar bedömdes på en femgradig skala. Resultatet blev att deltagarna födda med BLKG hade lägre logopedskattad förståelighet samt mer avvikande artikulation än deltagarna födda med ULKG. Van Lierde et al. (2002) fann däremot ingen skillnad på talet mellan de 18 barn och ungdomar som var födda med BLKG jämfört med 19 födda med ULKG avseende nasometervärden och hypernasalitet, där den senare bedömdes på en fyragradig

skala. Dock fanns en signifikant skillnad mellan LKG-grupperna jämfört med kontrollgruppen avseende samtliga parametrar. Van Lierde et al. (2003) jämförde också i en studie deltagare födda med BLKG mot de födda med ULKG och kom även här fram till att dessa inte skilde sig åt avseende nasalitet eller förståelighet. Det finns således ingen konsensus över om talet hos de födda med olika typer av LKG skiljer sig åt på några talparametrar, trots att vissa skillnader påvisats förekomma.

Sammanfattningsvis finns alltså relativt lite forskning gjord på talet hos unga vuxna födda med BLKG, då behandlingen avslutats. De som gjorts har ofta haft deltagare i olika åldrar; barn, ungdomar, unga vuxna och vuxna (Karling et al., 1993; Peterson-Falzone, 1995; Van Lierde et al., 2002). Vissa studier har undersökt talet hos unga vuxna med andra typer av LKG eller inkluderat olika typer i analysen (Farzaneh et al., 2008; Lohmander et al., 2012; Van Lierde et al., 2003). Några studier saknar kontrollgrupp eller har inte varit blindade för typ av LKG (Farzaneh et al., 2008, 2009). I nuläget saknas konsensus kring huruvida spaltens utbredning leder till sämre tal. Således är syftet med denna studie att studera talet hos unga vuxna födda med BLKG samt att undersöka om det skiljer sig från unga vuxna födda med ULKG eller unga vuxna födda utan LKG utifrån artikulation, velofarynxfunktion eller förståelighet.

Frågeställningar

- Hur är talet hos unga vuxna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt avseende artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet?
- Skiljer sig talet hos unga vuxna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt jämfört med unga vuxna födda med unilateral läpp-käk-gomspalt eller unga vuxna födda utan läpp-käk-gomspalt?

Metod

Deltagare

Unga vuxna födda med BLKG. Patienter födda med BLKG år 1989-1993 tillfrågades att delta i studien då de besökte Sahlgrenska Universitetssjukhuset för sin avslutande 19-årskontroll. Urvalet baserades på födelseår samt villighet att delta. Totalt 32 personer var aktuella för deltagande i denna studiegrupp. Av dessa uteblev 5 från 19-årskontrollen, 6 avböjde deltagande och 21 tackade ja till att delta. Därefter exkluderades 3 av deltagarna på grund av ytterligare missbildning med eventuell påverkan på spalt eller kognition alternativt gomkirurgi på annan ort. Definitionen av BLKG i denna studie bestämdes till förekomst av dubbelsidig käkspalt, men partiell läppspalt godtogs. För att säkerställa att det rörde sig om bilateral käkspalt studerades gipsmodeller av deltagarnas spalter tagna innan deras första operation på Sahlgrenska universitetssjukhuset tillsammans med erfaren logoped samt plastikkirurg. Det konstaterades att 5 deltagare inte stämde överens med vald definition varpå dessa exkluderades. Efter slutlig bedömning kvarstod 13 deltagare (3 kvinnor, 10 män) i studiegruppen, varav 3 var internationellt adopterade (tabell 1).

Kontrollgrupp unga vuxna födda med ULKG. I likhet med studiegruppen tillfrågades dessa patienter om medverkan vid sin 19-årskontroll på Sahlgrenska Universitetssjukhuset. Deltagarna var födda år 1989-1993, samtliga med total ULKG. Totalt 58 personer var aktuella och av dessa tackade 41 ja till att delta. 3 avböjde deltagande och 14 uteblev från 19-årskontrollen. Innan urval exkluderades 14 av de 41

deltagare som gett medgivande på grund av gomkirurgi på annan ort, spalt som ej var total unilateral, otillräcklig data eller missbildning med eventuell inverkan på spalt eller kognition. Stratifierat urval användes för att få denna kontrollgrupp mer jämlik studiegruppen utifrån variablerna födelseår, kön och adoption. Adoption matchades utifrån kön samt ålder vid ankomst till Sverige. Efter urval bestod denna kontrollgrupp av 13 matchade deltagare (tabell 1).

Kontrollgrupp unga vuxna födda utan LKG. Deltagarna i denna kontrollgrupp samlades in som en del av ett examensarbete i syfte att motsvara unga vuxna födda år 1989-1990 med LKG tillhörande Sahlgrenska universitetssjukhusets upptagningsområde avseende ålder, kön och geografisk spridning (Olsson & Rutgersson, 2010). Denna kontrollgrupp bestod innan urval av 65 deltagare från samma upptagningsområde som ovanstående. Urval gjordes med hänsyn till ålder och kön, genom konsekutivt urval. Personer som själva uppgivit läs- och skrivsvårigheter, flerspråkighet samt hörselpåverkan exkluderades ej. Materialet var sorterat utifrån inspelningsdag och för att få en spridning valdes var femte person ut att delta i föreliggande studie. Efter urval bestod denna kontrollgrupp av 13 deltagare.

Operationsmetod

Samtliga deltagare födda med LKG hade opererats enligt Göteborgs vårdprogram med tvåstegsmetod för slutning av gommen. Primär kirurgi utfördes enligt de tidpunkter som bestämts av vårdprogrammet för läppadaptation, läpp-plastik, bakre gomplastik (mjuka gommen), slutning av hårda gommen (restspaltslutning) samt bentransplantation (Läpp-käk-gomspalt, 2011). Tvåstegsmetod för slutning av gommen innebar att mjuka gommen slöts först (BLKG $M=6,9$ månader, $s=1,9$; ULKG $M=6,4$ månader $s= 1,7$) och hårda gommen i ett senare skede (BLKG $M=70,2$ månader, $s=15,6$; ULKG $M=67,3$ månader, $s= 20,4$). Då operationerna av hårda gommen utfördes befann man sig i en övergång mellan två operationsmetoder, vilket innebar att slutningen utfördes mellan 3 och drygt 8 års ålder. En del av ovanstående ingrepp gjordes vid två tillfällen på deltagarna födda med BLKG, en sida i taget, vilket var en bidragande faktor i skillnaden av det totala antalet operationer mellan grupperna (BLKG $M=9,5$ operationer $s= 2,2$; ULKG $M= 7,9$ operationer, $s=2,1$). Utöver de obligatoriska primärkirurgiska ingreppen uppstod ibland behov av sekundärkirurgi till följd av funktionella nedsättningar. Sekundära ingrepp var exempelvis talförbättrande kirurgi vid otillräcklig velofarynxfunktion, käkkirurgi eller sekundära korrekationer av läpp/näsa. Fyra deltagare födda med BLKG och fyra av deltagarna födda med ULKG hade genomgått talförbättrande kirurgi. I tabell 1 redovisas antalet operationer, ålder vid slutning av mjuka respektive hårda gommen samt antal talförbättrande operationer.

Etik

Studien godkändes av regionala etikprövningsnämnden i Göteborg. Samtliga deltagare gav skriftligt medgivande till deltagande i studien.

Tabell 1

Födelseår, kön, adoption och kirurgi redovisas för deltagarna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt och unilateral läpp-käk-gomspalt. Ålder vid inskrivning för adopterade deltagare samt ålder vid slutning av mjuka respektive hårda gommen redovisas i år;månader.

Deltagare	Född	Kön	Adopterad (ålder vid ankomst)	Slutning mjuka gommen	Slutning hårda gommen	Totalt antal operationer	Antal talförbättrande operationer
B1	-89	M	-	0;6	7;3	8	0
B3	-90	M	Ja (0;10)	0;10	7;9	7*	0
B4	-90	M	-	0;7	5;6	9	0
B5	-90	M	-	0;7	7;6	11	0
B6	-91	K	Ja (0;10)	0;11	6;9	11	0
B7	-91	K	-	0;7	5;4	11	1
B8	-91	M	Ja (0;4)	0;4	5;2	9	0
B9	-91	K	-	0;7	5;1	11	1
B10	-92	M	-	0;5	5;7	9	1
B11	-92	M	-	0;6	5;2	7	1
B12	-92	M	-	0;7	5;5	10	0
B13	-93	M	-	0;6	3;7	9	0
B14	-93	M	-	0;6	5;2	8	0
U2	-89	M	-	0;7	7;6	8	0
U3	-89	K	Ja (1;7)	1;7	3;10	9*	1
U4	-90	M	-	0;3	8;9	3	0
U5	-90	M	-	0;7	7;5	9	1
U6	-91	K	-	0;6	5;11	10	0
U7	-91	M	Ja (0;5)	0;5	7;3	7	0
U8	-91	K	-	0;9	5;2	10	0
U9	-92	M	-	0;5	5;3	9	0
U10	-92	M	Ja (0;5)	0;8	5;2	7	1
U11	-92	M	-	0;6	5;7	8	1
U12	-93	M	-	0;7	4;3	6	0
U13	-93	M	-	0;6	3;2	10	0
U14	-93	M	-	0;6	3;7	6	0

B=Bilateral läpp-käk-gomspalt, U=Unilateral läpp-käk-gomspalt. M=Man, K=Kvinna.

*Läpp opererad i hemland.

Material

Datinsamling. Föreliggande studie utgick från material som samlades in 2008 till 2012 för deltagarna födda med LKG. Insamlingen gjordes av logoped under kontrollbesök på Sahlgrenska Universitetssjukhuset. Talmaterialet för deltagarna utan LKG samlades in av logopedstudenter på deltagarnas respektive skolor (Olsson & Rutgersson, 2010). Samtliga inspelningar gjordes med en bärbar ljudinspelare (Tascam HD-P2) och en mikrofon (Sony ECM-MS957). Inspelningarna försågs med koder och kodlista upprättades.

Svenskt artikulations- och nasalitetstest. Artikulation och velofarynxfunktion bedömdes utifrån Svenskt artikulations- och nasalitetstest (SVANTE), ett standardiserat test för bedömning av artikulationsförmåga och nasalitet (Lohmander et al., 2005). SVANTE har utformats för bedömning av talavvikelser till följd av strukturella och funktionella avvikelser i munhåla och svalg där LKG utgör en stor del av användningsområdet. Testet utgick från målljud i både ord och meningar som transkriberades fonetiskt och delades sedan in i olika grupper utifrån vilka talavvikelser som förekom. För bedömning av artikulation fick deltagarna läsa upp 59 ord från en lista. Dessa ord var utvalda så att vardera målljud påverkades så lite som möjligt av intilliggande ljud. Målljuden var sådana som ofta påverkas av nedsatt velofarynxfunktion. Sex av målljuden var klusiler (/p/, /b/, /t/, /d/, /k/, /g/) och två var frikativor (/f/, /s/) som vardera förekom tre gånger i initial position och två gånger medial och final position. Ytterligare en frikativa (/ç/) förekom i initial position tre gånger. Meningsartikulation och velofarynxfunktion bedömdes utifrån att deltagarna repeterade 13 korta meningar som innehöll fyra målljud vardera, extra sårbara för anatomiska eller funktionella avvikelser i munhåla och svalg (Lohmander et al., 2005). I de åtta första meningarna transkriberades målljuden (/p/, /b/, /t/, /d/, /k/, /g/, /f/, /s/) för analys av artikulation i en längre kontext än ord. Alla 13 meningar användes för övergripande bedömning av velofarynxfunktion på en tregradig skala, där övriga målljud var frikativa, lateral samt nasal konsonant (/v/, /l/, /n/, /m/). I majoriteten av meningarna fanns varje ljud meningsinitialt och ordinitialt följt av vokal, två gånger ordmedialt omgivet av vokaler samt ordinitialt och meningsmedialt omgivet av vokaler.

Nasometer™. I föreliggande studie jämfördes nasaleringsvärdet från mätningar med Nasometer™ av orala meningar ur SVANTE för att undersöka eventuella skillnader mellan grupperna. Nasaleringsvärdena var insamlade med Nasometer™ II 6400 (Pentax Medical), ett datorbaserat system som spelar in talsignalens energi genom två separata mikrofoner, en för ljud från munhålan och en för ljud från näsan. Genom beräkning av balansen mellan nasal och oral energi erhöles sedan ett nasaleringsvärde i procent. Nasaleringsvärdet är ett kvantitativt mått på hur nasalt talet är. Nasometer™ förefaller vara det vanligaste av flera instrument som kan användas i forskning vid mätning av nasalitet och velofarynxfunktion som komplement till perceptuell bedömning (Brunnegård & van Doorn, 2009).

Swedish Intelligibility Assessment. Förståelighet testades med hjälp av Swedish Intelligibility Assessment (SWINT), ett svenskt kvantitativt och kvalitativt datorbaserat bedömningstest för förståelighet av dysartriskt tal med hjälp av ord och meningar (Lillvik, Allemark, Karlström & Hartelius, 1998). Testet har tidigare även använts för att mäta förståelighet hos personer med annan talpåverkan, exempelvis hos personer födda med LKG (Johannisson et al., 2014), och har påvisats ha hög reliabilitet (Johannisson et al., 2014; Lillvik et al., 1998). Deltagarna läste upp en framslumpad ordlista med 68 ord, olika för varje deltagare. Orden var slumpade ur testets datorprogram och varje lista innehöll 22 utvalda fonetiska kontraster från svenskan (Lillvik et al., 1998). Lyssnaren transkriberade de uppfattade orden ortografiskt, då denna metod påvisats ha hög validitet (Johannisson et al., 2014). Deltagarna läste även upp tio slumpmässiga meningar innehållande fyra huvudord vardera, även dessa framslumpade ur datorprogrammet och unika för varje deltagare. Meningarna var grammatiskt korrekta men semantiskt

osammanhängande för att minska lyssnarens möjlighet att ta hjälp av sammanhanget för att förstå. Liksom orden transkriberades meningarna ortografiskt.

Tillvägagångssätt

Bearbetning av filer. Ljudfilerna klipptes i Audacity (version 2.1.2) och delades in i fyra separata .wav-filer för “SVANTE ord”, “SVANTE meningar”, “SWINT ord” samt “SWINT meningar” för varje deltagare. Ljudfilerna försågs med namn utifrån vilket test de innehöll samt kod utifrån deltagare. Två oberoende logopedstudenter skapade en randomiserad spellista med nya koder för att författarna inte skulle ha kunskap om vilken grupp ljudfilerna tillhörde vid bedömning. För att kunna beräkna intrabedömarreliabilitet randomiserades 30% av SVANTE-materialet samt 30% av SWINT-materialet till en extra bedömningsmapp. Den bedömaren med högst intrabedömarreliabilitet utsågs till huvudbedömaren. Randomisering av intrabedömarermaterialet gjordes av de oberoende logopedstudenterna så att minst fyra filer från varje grupp fanns med och omkodades för att minska igenkänning.

Bedömning av artikulationstest. Författarna som bedömde materialet gick åttonde och sista terminen på logopedutbildningen vid Göteborgs universitet och har under utbildningen tränat på att lyssna på avvikande tal samt transkriberat LKG-patienters tal vid några tillfällen. Innan bedömning av inspelningarna gjordes samstämmighetsträning där bedömarna lyssnade och transkriberade talmaterial från SVANTE gällande både ord och meningar från ett antal av de exkluderade deltagarnas ljudfiler. När olikheter uppstod diskuterades dessa för att nå konsensus. Träningen slutfördes genom att lyfta olikheter och frågetecken tillsammans med en logoped med mycket erfarenhet av att lyssna på och bedöma tal hos personer födda med LKG. Bedömningen av inspelningarna gjordes av båda författarna enskilt där antal lyssningar var obegränsat. Vardera författare transkriberade målljuden i ord och meningar halvsnävt, vilket här innebar att artikulationsställe, artikulationssätt samt symtom på otillräcklig velofarynxfunktion transkriberades. Denna data fördes sedan in i ett rutschema för varje deltagare där sammanställning och analys utfördes.

En procentsats beräknades för andel korrekta orala konsonanter (AKOK) utifrån de 59 ord som ingick i artikulationsbedömningen i SVANTE (Lohmander et al., 2005). Korrekta målljud enligt AKOK var de som producerades utan aktiva eller passiva talavvikelser. Utöver AKOK beräknades också ”percentage consonants correct” (PCC) som är ett mer internationellt förekommande mått (Lohmander, Lundeborg & Persson, 2017a). PCC ansågs komplettera AKOK som ett mer renodlat mått på artikulation och beräknades utifrån transkriptionerna där aktiva talavvikelser ansågs inkorrekta. Undantag från aktiva talavvikelser var bilabiala /f/ då det anses svårt att avgöra exakt artikulationsställe utifrån enbart akustisk bedömning. Därför bedömdes bilabiala /f/ ej som en avvikelse. Bedömning av artikulationsavvikelser gjordes med utgångspunkt i SVANTE-manualen och utifrån artikulationsställe i kategorierna “framför velofarynx” och “bakom velofarynx” (Lohmander et al., 2005). Uppdelningen baserades på det artikulationsställe ljudet realiserades inom. Procentsats artikulationsavvikelser inom varje kategori beräknades för varje deltagare. Analys av velofarynxfunktion delades in i kategorierna “nasalt luftläckage” och “tryckreducerad artikulation” där procentsats beräknades utifrån transkriptionen för varje kategori. En kvalitativ analys av artikulationsavvikelserna framför velofarynx (även kallat orala artikulationsavvikelser)

på orden genomfördes utifrån uppdelning "främre orala avvikelser" och "bakre orala avvikelser" där en avvikelse räknades om den förekom minst tre gånger (Willadsen et al., 2017).

I det inspelade meningsmaterialet transkriberade båda författarna målljuden i de första åtta meningarna med samma noggrannhet som vid bedömning av målljuden i orden. På samma sätt som för ordmaterialet beräknades AKOK och PCC utifrån meningarnas målljud. Artikulationsavvikelser och velofarynxfunktion delades in i samma kategorier som för ordmaterialet och även dessa beräknades i procent. En kvalitativ analys genomfördes liksom det genomfördes på ordnivå, där fler än tre artikulationsavvikelser skulle framkomma för att avvikelsen skulle räknas med.

För en övergripande bedömning av velofarynxfunktion kontaktades tre logopedier med erfarenhet av arbete med LKG på tre olika LKG-center i Sverige. Ingen av dem hade deltagit i behandling av studiens deltagare. Logopederna erhöll instruktion samt varsitt krypterat USB-minne innehållande SVANTE meningarna 1-13 för att göra en helhetsbedömning av velofarynxfunktion på en tregradiga skala; tillräcklig (kompetent), marginellt otillräcklig samt otillräcklig (inkompetent), som ingår i SVANTE-materialet (Lohmander et al., 2005).

Utifrån huvudbedömarens transkriptioner av SVANTE ord och meningar genomfördes en analys av antalet förekomster av både nasalt luftläckage och tryckreducerad artikulation samlat under termen VPI-symtom. Samtliga deltagare klassificerades utifrån antal förekomster; 0-2 VPI-symtom, 3-5 VPI-symtom eller fler än 5 VPI-symtom (Lohmander, Persson, et al., 2017b).

Bedömning av förståelighetstest. För att bekanta sig med materialet lyssnade författarna på några ljudfiler från exkluderade deltagare och testade att transkribera ortografiskt. Utifrån detta bestämdes att transkriptionen räknades som korrekt om ordet var detsamma som i ordlistan, inklusive eventuella felstavningar såsom "hektar"/"häktar". Alla transkriptioner gjordes enskilt, med maximalt två lyssningar per ord eller mening. Förståeligheten beräknades sedan utifrån hur många procent av orden lyssnaren uppfattat korrekt. På meningsnivå beräknades förståeligheten utifrån de fyra huvudorden i varje mening.

Inter- och intrabedömarreliabilitet. Både inter- och intrabedömarreliabilitet beräknades utifrån punkt för punkt överensstämmelse ("point-by-point agreement"). De extra 30% för intrabedömarreliabilitet bedömdes drygt en vecka efter första bedömningen. För att beräkna samstämmigheten i bedömning av SVANTE-transkriptionerna upprättades en regellista baserad på regler som använts i en tidigare studie av Willadsen et al. (2017). Utifrån föreliggande studies halvsnäva transkriptioner anpassades regellistan och utökades vid avsaknad av regler för materialet i föreliggande studie. För en överblick av de regler som användes se tabell 2. Utifrån regellistan beräknades sedan antalet lika bedömningar fram och ett procentuellt mått av samstämmighet erhöles. Interbedömarreliabiliteten uppnådde 93,5% för ord och 90,6% för meningar. Även intrabedömarreliabilitet för SVANTE beräknades utifrån regellistan. Intrabedömarreliabiliteten uppnådde 95,1% för författare A på ord och 94,7% på meningar, samt 94,1% för författare B på ord och 94,7% på meningar. Författare A hade

högst intrabedömarreliabilitet och utsågs därför till huvudbedömare för SVANTE. Gällande övergripande velofarynxfunktion visas inter- och intrabedömarreliabilitet mellan de tre logopederna i tabell 3 nedan.

Tabell 2

Regellista för beräkning av inter- och intrabedömarreliabilitet utifrån godkända och inte godkända variationer i fonetisk transkription.

Godkända olikheter	Ej godkända olikheter
Palatal/velar/uvular klusil	Dental/palatal klusil
Dental/alveolar klusil	Tonande/tonlös klusil
Glottal klusil/glottal förstärkning (?/ b?)	Olika /s/-avvikelser (undantaget ç / ł)
Nas. luftläckage/ tryckreducerad art.	Nas. luftläckage/ ej nas. luftläckage
f / φ	Tryckreducerad art./ ej tryckreducerad art.
ç / ł	s / θ
ħ / x	

Nas. = nasalt, Art. = artikulation

Tabell 3

Inter- och intrabedömarreliabilitet hos logoped vid bedömning av övergripande velofarynxfunktion.

Bedömare	1	2	3
1	100%		
2	90,5%	100%	
3	85,7	85,7	100%

Interbedömarreliabilitet av förståelighet utifrån SWINT ord och meningar beräknades genom procent samstämmiga ord till 93,5% för ord-delen och 95,4% för meningsdelen. Intrabedömarreliabiliteten för författare A var 95,1% på SWINT ord och 96,4% för SWINT meningar medan den för författare B var 96,8% på SWINT ord och 96,4% på SWINT meningar. Då författare B hade en högre intrabedömarreliabilitet utsågs denne till huvudbedömare för SWINT-avsnittet.

Statistisk analys. Statistisk analys genomfördes i SPSS version 24 för Windows. Baserat på studiens relativt lilla urval samt icke normalfördelade grupper beräknades eventuell signifikant skillnad mellan grupperna med det icke-parametriska testet Kruskal Wallis för flertalet variabler. Parvisa jämförelser med Mann-Whitney U-test genomfördes när signifikant skillnad framkom. Signifikansvärdet som framkom är korrigerat för multipla jämförelser. För att undersöka eventuellt samband av övergripande velofarynxfunktion mellan grupperna användes Chi-2 utifrån medianen av de tre logopedernas skattning. Resultaten bedömdes signifikanta om p-värdet understeg ,05.

Resultat

Talet hos unga vuxna födda med BLKG redovisas i förhållande till kontrollgrupperna i tabell 4. I tabellen redovisas deskriptiva data samt resultat vid gruppjämförelser med Kruskal-Wallis och erhållet signifikansvärde.

Artikulation

AKOK och PCC. Gällande AKOK förelåg en statistisk signifikant skillnad mellan de tre grupperna på både ord- och meningsnivå ($p < ,001$). Parvis jämförelse visade att deltagarna födda med BLKG hade signifikant lägre andel korrekta konsonanter jämfört med deltagarna födda utan LKG beräknat på både ord och meningar (ord: $p < ,001$, meningar: $p < ,001$). Det fanns inte någon signifikant skillnad mellan de födda med BLKG jämfört med de födda med ULKG (ord $p = ,18$; meningar $p = ,22$). Den parvisa jämförelsen visade att de födda med ULKG och de födda utan LKG skilde sig signifikant där de födda med ULKG hade ett lägre resultat på AKOK meningar ($p < ,05$). Däremot skilde de sig inte signifikant på AKOK ord ($p = ,10$). Vid jämförelse mellan grupperna avseende PCC fanns signifikant skillnad för både ord ($p < ,01$) och meningar ($p < ,05$). På både ord och meningar hade de födda med BLKG signifikant lägre resultat än de födda utan LKG (ord: $p < ,01$, meningar $p < ,05$). Det fanns ingen ytterligare signifikant skillnad mellan de födda med BLKG och de födda med ULKG (ord $p = ,74$; meningar $p = ,48$) och inte heller mellan kontrollgrupperna (ord $p = ,18$; meningar $p = ,54$). Spridningen i grupperna för PCC ord visade att tre deltagare födda med BLKG hade värden på 75–85% medan övriga antalet deltagare alla hade värden närmare 100%.

Artikulationsavvikelser framför och bakom velofarynx. Den statistiska analysen uppvisade en signifikant skillnad mellan grupperna avseende andel artikulationsavvikelser framför velofarynx (tabell 4). Parvis jämförelse visade att andelen avvikelser var signifikant större hos unga vuxna födda med BLKG på både ord och meningar jämfört med kontrollgruppen födda utan LKG (ord $p < ,001$; meningar $p < ,01$). Därutöver skilde sig även de födda med BLKG från de födda med ULKG på meningsnivå angående artikulationsavvikelser framför velofarynx ($p < ,05$). Det fanns även en trend mot signifikans på ordnivå mellan dessa grupper ($p = ,06$). Det fanns ingen signifikant skillnad mellan kontrollgrupperna på ord- eller meningsnivå (ord $p = ,46$; meningar $p = ,72$). Gällande artikulationsavvikelser bakom velofarynx syntes en tydlig golveffekt och därför genomfördes ingen statistisk analys.

Kvalitativ analys av artikulationsavvikelser framför och bakom velofarynx. En analys av artikulationsavvikelser framför velofarynx (orala artikulationsavvikelser) genomfördes (tabell 5). Avvikande artikulation förekom på målljuden /s/ och /f/. Vid analys av ord hade 5/13 av deltagarna födda med BLKG någon typ av orala artikulationsavvikelser jämfört med 1/13 av deltagarna födda med ULKG. När meningarna analyserades framkom att 8/13 födda med BLKG hade någon typ av orala artikulationsavvikelser och ur gruppen födda med ULKG hade 2/13 någon typ av orala artikulationsavvikelser.

En deltagare född med BLKG hade tre inslag av avvikelser bakom velofarynx på ordnivå och två hade ett inslag vardera. På meningsnivå hade ingen av de födda med BLKG avvikelser bakom velofarynx, däremot hade en deltagare född med ULKG detta vid sex tillfällen. I samtliga fall rörde sig dessa avvikelser om glottal dubbelartikulation.

Under lyssning och transkription av artikulationstestet noterades att två deltagare hade avvikelser på /l/, ett målljud som inte ingår i SVANTE. Dessa deltagare visade sig båda tillhöra gruppen födda med BLKG. Språkljudet /l/ realiserades genomgående som /n/ av den ena deltagaren medan den andra realiserade /l/ som /m/, /n/, /ŋ/ eller glottalt.

Tabell 4

Medelvärden, standardavvikelser, median samt min-max för studiegruppen födda med bilateral läpp-käk-gomspalt (BLKG) samt kontrollgrupperna födda med unilateral läpp-käk-gomspalt (ULKG) respektive födda utan läpp-käk-gomspalt (Utan LKG). Resultat vid gruppjämförelse för vardera variabel redovisas i högerspalten.

Variabler (%)	BLKG N=13				ULKG N=13				Utan LKG N=13				H	sign.(p)
	M	s	Md	Min-Max	M	s	Md	Min-Max	M	s	Md	Min-Max		
AKOK ord	82,1	16,0	83,1	50,9–100	95,7	5,0	96,6	83,1–100	99,5	1,4	100	94,9–100	16,11	<,001*
AKOK meningar	73,0	22,0	81,3	21,9–100	89,4	10,1	90,6	68,8–100	98,8	2,7	100	90,6–100	18,71	<,001*
PCC ord	95,0	8,1	98,3	76,3–100	99,2	1,1	100	96,6–100	100	0	100	100–100	9,50	<,01*
PCC meningar	95,0	7,9	100	75,0–100	97,6	6,1	100	78,1–100	100	0	100	100–100	7,57	<,05*
Art. framför VF ord	5,6	5,9	3,4	0–17,0	1,2	2,4	0	0–8,5	0	0	0	0–0	14,54	<,01*
Art. framför VF meningar	10,8	10,9	9,4	0–37,5	2,4	5,3	0	0–15,6	0	0	0	0–0	14,69	<,01*
Nasalt luftläckage ord	10,6	13,3	5,1	0–39,0	1,4	3,4	0	0–11,9	0	0	0	0–0	13,15	<,01*
Nasalt luftläckage meningar	18,8	22,4	12,5	0–78,13	3,8	5,9	0	0–15,6	0	0	0	0–0	16,52	<,001*
Tryckred. art. ord	1,2	1,9	0	0–5,1	1,3	1,8	0	0–5,1	0,4	1,4	0	0–5,1	4,19	=,12
Tryckred. art. meningar	1,7	2,1	0	0–6,25	2,9	4,3	3,1	0–15,6	1,2	2,7	0	0–9,4	2,42	=,30
Nasometer™	26,1	13,1	24	7–43	15,5	7,9	13	5–32	13,1	6,2	12	7–27	7,74	<,05*
SWINT ord	89,0	7,0	89,7	77,9–98,5	93,0	5,9	95,6	80,9–100	96,0	3,4	97,1	89,7–100	8,05	<,05*
SWINT meningar	96,0	4,3	97,5	85–100	96,0	3,5	97,5	90–100	97,1	3,7	100	90–100	1,09	=,58

* Signifikant på signifikansnivå $p < ,05$.

Art. framför VF = Artikulationsavvikelse framför velofarynx. Tryckred. art. = Tryckreducerad artikulation.

Tabell 5

Artikulationsavvikelser framför velofarynx på ord och meningar uppdelat i främre och bakre orala artikulationsavvikelser hos deltagarna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt (BLKG), unilateral läpp-käk-gomspalt (ULKG) respektive utan läpp-käk-gomspalt (utan LKG). Förekomst räknades om avvikelsen förekom tre gånger eller fler.

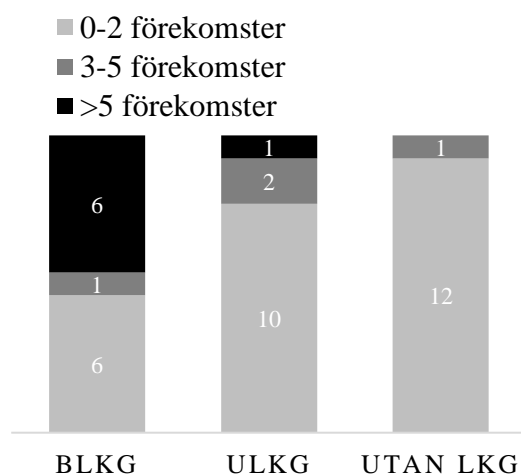
Grupper	Ord	
	Främre orala avvikelser (>2)	Bakre orala avvikelser (>2)
BLKG	3	2
ULKG	1	0
Utan LKG	0	0
	Meningar	
	Främre orala avvikelser (>2)	Bakre orala avvikelser (>2)
BLKG	7	3
ULKG	2	0
Utan LKG	0	0

Velofarynxfunktion

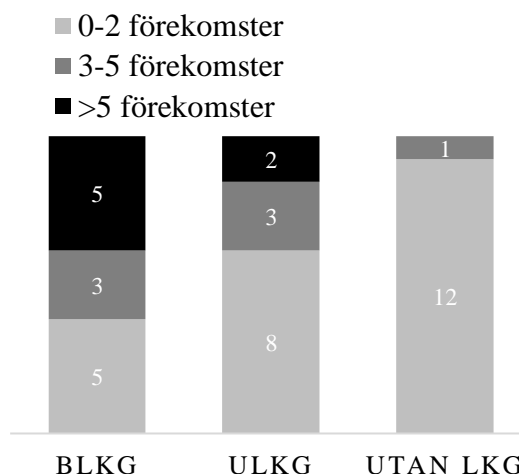
Nasalt luftläckage och tryckreducerad artikulation. Avseende nasalt luftläckage skilde sig deltagarna födda med BLKG signifikant från deltagarna födda utan LKG ($p<,01$) respektive deltagarna födda med ULKG ($p<,05$) på ordnivå. På meningsnivå framkom en signifikant skillnad mellan deltagarna födda med BLKG och deltagarna födda utan LKG ($p<,001$) avseende nasalt luftläckage. Här fanns också en trend mot signifikant skillnad mellan de födda med BLKG och de födda med ULKG ($p=,06$). Gällande tryckreducerad artikulation framkom ingen signifikant skillnad mellan någon av grupperna, varken på ord- eller meningsnivå (ord $p=,12$; meningar $p=,30$).

Kvalitativ analys av symtom på velofarynxinsufficiens. Sammanställning av de tre gruppernas symtom på velofarynxinsufficiens (VPI) utifrån bedömningen i SVANTE gjordes utifrån antalet förekomster av nasalt luftläckage och tryckreducerad artikulation på ordnivå (figur 1) och meningsnivå (figur 2). Av deltagarna födda med BLKG hade nästan hälften fler än fem förekomster av VPI-symtom på både ord- och meningsnivå medan det i gruppen födda med ULKG var en respektive två som hade fler än fem förekomster av VPI-symtom.

Övergripande perceptuell bedömning av velofarynxfunktion. Signifikant skillnad ($\chi^2(2) = 9,58, p<,01$) fanns mellan de födda med BLKG och de utan LKG (figur 3 & tabell 6). Det fanns ingen signifikant skillnad mellan deltagarna födda med BLKG och de födda med ULKG ($p=,11$) och inte heller mellan kontrollgrupperna ($p=,14$).



Figur 1. Deltagarna i grupperna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt (BLKG), unilateral läpp-käk-gomspalt (ULKG) samt utan läpp-käk-gomspalt (utan LKG) uppdelade utifrån antal förekomster av nasala genomslag och tryckreducerad artikulation på ordnivå.



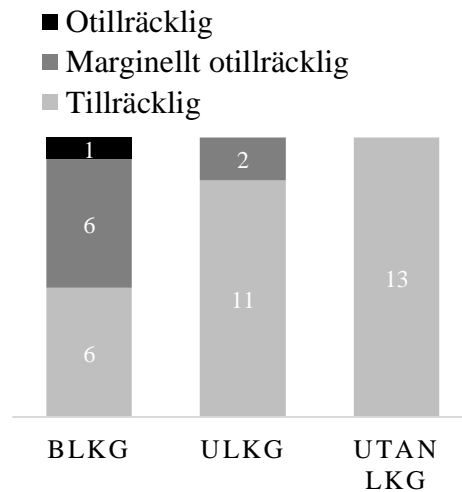
Figur 2. Deltagarna i grupperna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt (BLKG), unilateral läpp-käk-gomspalt (ULKG) samt utan läpp-käk-gomspalt (utan LKG) uppdelade utifrån antal förekomster av nasala genomslag och tryckreducerad artikulation på meningsnivå.

Tabell 6

Jämförelse avseende övergripande perceptuell bedömning av velofarynxfunktion mellan deltagare födda med bilateral läpp-käk-gomspalt (BLKG), unilateral läpp-käk-gomspalt (ULKG) samt utan läpp-käk-gomspalt (utan LKG).

	Chi-2	df	sign. (p)
BLKG-Utan LKG	9,58	2	<,01*
BLKG-ULKG	4,47	2	=,11
ULKG-Utan LKG	2,17	1	=,14

*Signifikant på signifikansnivå $p < ,05$.



Figur 3. Deltagarna i grupperna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt (BLKG), unilateral läpp-käk-gomspalt (ULKG) samt utan läpp-käk-gomspalt (utan LKG) uppdelade utifrån logopeders bedömning av övergripande velofarynxfunktion.

*Nasometer*TM. Studiegruppen födda med BLKG hade signifikant högre nasaleringsvärde än kontrollgruppen utan LKG ($p < ,05$). Det framkom ingen signifikant skillnad mellan deltagarna födda med BLKG och deltagarna födda med ULKG ($p = ,12$), inte heller mellan de två kontrollgrupperna ($p = 1,00$).

Förståelighet

Vid jämförelse av SWINT på ordnivå mellan grupperna framkom signifikant skillnad mellan deltagarna födda med BLKG och kontrollgruppen utan LKG ($p < ,05$). Ingen signifikant skillnad förelåg mellan de födda med BLKG jämfört med kontrollgruppen födda med ULKG ($p = ,47$), inte heller mellan de två kontrollgrupperna ($p = ,47$). Vid jämförelse av förståelighet på meningsnivå framkom inga signifikanta skillnader mellan någon av grupperna ($p = ,58$).

Diskussion

Syftet med föreliggande studie var att beskriva talet hos unga vuxna födda med BLKG samt att jämföra om det skilde sig från unga vuxna födda med ULKG eller unga vuxna födda utan LKG avseende artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet. Resultatet visade att deltagarna födda med BLKG hade signifikant mer talpåverkan inom alla tre parametrar vid jämförelse med kontrollgruppen utan LKG. Inom parametrarna artikulation och velofarynxfunktion framkom även signifikant mer avvikelser hos de födda med BLKG gentemot kontrollgruppen födda med ULKG. Detta resultat stärker uppfattningen ju större spalt desto större talpåverkan (Karling et al., 1993).

Perceptuell bedömning av artikulationen på ord och meningar med AKOK visade på signifikant lägre andel korrekt konsonantartikulation hos deltagarna födda med BLKG jämfört med kontrollgruppen utan LKG. Resultaten kvarstod vid bedömning med det mer renodlade artikulationsmättet PCC där passiva avvikelser som nasalt luftläckage och tryckreducerad artikulation inte var medräknade. Skillnaden förklaras till stor del av att artikulationsavvikelser framför velofarynx var signifikant vanligare hos deltagarna födda med BLKG. På meningsnivå framkom även signifikant skillnad i AKOK mellan kontrollgrupperna, vilket visar att de födda med ULKG hade signifikant lägre andel korrekt konsonantproduktion än de födda utan LKG. Att deltagarna födda med ULKG presterade bättre på ord- än meningsnivå går i linje med resultat från en tidigare studie på 5-åringar födda med ULKG (Klintö, Salameh, Svensson & Lohmander, 2011). Där diskuterades att bättre resultat på ordnivå delvis kan bero på enklare strukturer och att meningarna konstruerats med mer komplexa ord. På meningsnivå hade de födda med BLKG signifikant fler artikulationsavvikelser framför velofarynx än både de födda med ULKG och de födda utan LKG. Generellt visade resultaten i föreliggande studie på en gradskillnad i talet hos unga vuxna födda med LKG. Detta då deltagarna födda med BLKG hade mer artikulationspåverkan än de födda med ULKG och skilde sig från deltagarna utan LKG på både ord- och meningsnivå. Att unga vuxna med BLKG skiljer sig från normvärden avseende artikulation har visats i en tidigare studie (Van Lierde et al., 2003). Samma studie fann ingen signifikant skillnad mellan personer födda med BLKG eller ULKG, vilket däremot Karling et al. (1993) fann och förklarade detta med att personer med BLKG har en större anatomisk avvikelse som påverkar artikulationen. Denna förklaring förefaller stämma överens även med deltagarna i föreliggande studie.

Sell (2005) har föreslagit att transkription borde vara förstahandsvalet vid analys av artikulation hos personer födda med LKG, vilket dessvärre inte alltid har använts. Detta gör att föreliggande studies resultat blir svåra att jämföra med tidigare forskning inom området unga vuxna. I nyare studier på barn med LKG, exempelvis Scandleft-projektet (Lohmander et al., 2017b; Willadsen et al., 2017), används transkription för bedömning av tal. Därför har den kvalitativa analysen av talavvikelser inom artikulation och velofarynxfunktion i studien gjorts utifrån samma klassificering, med tanken att det leder till mer jämförbara resultat i kommande studier. De artikulationsavvikelser som förekom hos deltagarna födda med BLKG var till stor del avvikelser på språkljuden /s/ och /f/, samt enstaka förekomster av palatalisering, velarisering och glottal förstärkning på andra ljud. Dessa enstaka tillfällen räknades inte som avvikelser i den kvalitativa analysen då en avvikelse inte antas vara etablerad om den endast förekommer en eller två gånger (Willadsen et al., 2017). Vid den kvalitativa analysen framkom att /f/ ibland produceras bilabialt. Det är allmänt vedertaget att det är svårt att enbart på akustisk signal avgöra om ett /f/ är korrekt artikulerat eller om det realiseras bilabialt. Visuellt stöd kan underlätta denna bedömning vilket inte fanns att tillgå i föreliggande studie och bedömningarna av bilabiala /f/ bör därför tolkas med viss varsamhet. Att avvikelser på /s/ förekommer hos både barn och vuxna födda med BLKG överensstämmer med tidigare studier (Farzaneh et al., 2009; Laitinen et al., 1998). Korrekt produktion av /s/ kräver stor artikulatorisk precision där kravet av finstämmig motorisk kontroll av tungspetsen gör det till ett av de svåraste språkljuden att åstadkomma (Niemi, Laaksonen, Ojala, Aaltonen & Happonen, 2006). I normalpopulationen finns denna avvikelse hos 15% av svenska 10-åringar där /s/ istället realiseras interdentalt eller palatalt (Lohmander et al., 2017a). Hos 19-åringar har förekomsten minskat till 10% och avvikelse på /s/ produceras enbart interdentalt. I föreliggande studie hade fyra (31%) av deltagarna födda med BLKG avvikelser på /s/. Dock hade tre av dessa tillbakadragen artikulation där /s/ producerades lateralt, palatalt eller velart. Att språkljud som realiseras långt fram i munnen påverkades skulle kunna bero på utbredningen av spalten i käke. Bilateral käkspalt kräver ofta fler och mer omfattande operationer, vilket således kan påverka bett samt premaxillans position. Öppningar mellan mun- och näshåla, så kallade restspalter och fistlar, är också faktorer som kan påverka produktionen av dessa språkljud. Den bakåtflyttade artikulationen skiljer sig mot avvikelsen hos normalpopulationen där /s/ istället flyttas fram till en interdental position.

Artikulationsavvikelser bakom velofarynx bedömdes bara förekomma hos enstaka personer i denna studie och fler än två förekomster hos en deltagare född med BLKG. Då det vissa gånger rörde sig om så få förekomster gick det inte att dra några slutsatser från detta. Artikulationsavvikelser bakom velofarynx är svårbedömt och därför anses en förekomst lägre än tre gånger inte som tillräckligt säker för att avgöra om personen har en etablerad artikulationsavvikelse (Willadsen et al., 2017). Trots detta var det nedslående att en deltagare med BLKG bedömdes ha etablerad artikulationsavvikelse bakom velofarynx vid 19 års ålder. En annan deltagare född med BLKG noterades också ha glottal förstärkning på /l/, vilket är ett språkljud som inte bedöms formellt i SVANTE och därför inte räknades in i sammanställningen av artikulationsavvikelser bakom velofarynx. Detta förekom flera gånger vid produktion av /l/. Eftersom glottal förstärkning kan ske vid produktion av detta språkljud kan det ses som en brist att detta målljud saknas i SVANTE.

Velofarynxfunktion bedömdes i denna studie på olika sätt, både perceptuellt och akustiskt, i syfte att komplettera varandra. De olika bedömningarna var nästintill eniga om en signifikant sämre velofarynxfunktion hos unga vuxna födda med BLKG jämfört med unga vuxna födda utan LKG. Undantaget gällde tryckreducerad artikulation där ingen signifikant skillnad fanns. Tryckreducerad artikulation förekom också hos de utan LKG vilket kan förklaras med att tryckreducering kan uppkomma rent artikulatoriskt, alltså inte enbart på grund av läckage upp genom velofarynx. Logopedernas bedömning av övergripande velofarynxfunktion visade att cirka hälften av de födda med BLKG hade ”marginellt otillräcklig” eller ”otillräcklig” velofarynxfunktion. Resultatet liknade det från en tidigare studie av Farzaneh et al. (2009) där 53% av deltagarna födda med BLKG bedömdes ha måttlig till kraftig hypernasalitet, vilket utgör en del av den övergripande velofarynxfunktionen. Statistisk signifikant skillnad mellan de födda med BLKG och de födda med ULKG uppstod endast på nasalt luftläckage på ordnivå, vilket var ett både väntat och oväntat resultat. Då grupperna var relativt små krävdes en större skillnad för att få ett signifikant resultat och det uppnåddes inte flertalet gånger. Skillnaden för nasalt luftläckage på ordnivå, och nära signifikans på meningsnivå tyder på viss skillnad i velofarynxfunktion mellan dessa typer av LKG. Denna skillnad bekräftades inte av de andra bedömningsmått. Trots den lilla skillnaden mellan grupperna är det värt att notera att deltagarna födda med BLKG hade signifikant högre förekomst jämfört med deltagarna födda utan LKG på samtliga mått på velofarynxfunktion förutom tryckreducerad artikulation, medan deltagarna födda med ULKG inte skilde sig mot deltagarna utan LKG på något mått. Detta visar på att de födda med BLKG skiljer sig från normalpopulationen vid 19 års ålder medan de födda med ULKG inte gör det, och att velofarynxfunktionen tenderar att vara mer nedsatt hos de födda med BLKG.

I föreliggande studie hade 4/13 (31%) av studiegruppen genomgått talförbättrande kirurgi. Tidigare studier som kartlagt talförbättrande kirurgi hos deltagare födda med BLKG över tio år gamla är Farzaneh et al. (2009) där förekomsten var 13/36 (36%), hos Karling et al. (1993) där förekomsten var 8/19 (42%) och hos de Buys Roessingh, Cherpillod, Trichet-Zbinden och Hohlfeld (2006) med en förekomst på 5/18 (28%). I studier med deltagare födda med ULKG har förekomsten varit något lägre, hos Farzaneh et al. (2008) hade 13/61 (21%) gjort talförbättrande kirurgi och hos Lohmander et al. (2012) var det 6/55 (11%). Detta överensstämmer inte med föreliggande studie där 4/13 (31%) av de födda med ULKG hade genomfört talförbättrande kirurgi, alltså lika många som de födda med BLKG. Detta var ett oväntat resultat då det diskuterats i en tidigare studie att personer födda med BLKG oftare gjort talförbättrande kirurgi med förklaringen att bristen på vävnad är större då spalten är betydligt mer utbredd än vid ULKG (Farzaneh et al., 2009). Hos patienter födda med BLKG saknas oftast fäste mellan gomplattorna och vomer, medan ena gomplattan ofta fäster i vomer hos de födda med ULKG (Marrinan, Labrie & Mulliken, 1998). I studien av Marrinan et al. (1998) gjordes jämförelse mellan de typer av LKG som fäster delvis i vomer och de som inte har något fäste, och de diskuterade att deltagarna utan fäste i vomer oftare har sämre velofarynxfunktion. Detta skulle kunna vara en förklaring till den nedsatta velofarynxfunktionen hos deltagarna födda med BLKG samt varför de skiljer sig något mot de födda med ULKG i föreliggande studie, trots att det gjorts lika mycket talförbättrande kirurgi i båda grupperna. Det är också värt att notera att tre av de fyra deltagarna födda med BLKG som genomgått talförbättrande kirurgi bedömdes ha ”marginellt otillräcklig” velofarynxfunktion. Även i

studien av Farzaneh et al. (2009) var förekomsten av hypernasalitet vanlig, vilket tyder på bristande velofarynxfunktion trots att många genomfört talförbättrande kirurgi.

Artikulation och velofarynxfunktion är faktorer som bidrar till god förståelighet. I föreliggande studie definierades förståelighet som hur väl lyssnaren förstår talarens akustiska signal korrekt. Utifrån denna definition framkom att unga vuxna födda med BLKG hade signifikant lägre förståelighet av isolerade ord än unga vuxna födda utan LKG. Resultatet skilde sig jämfört med en tidigare magisteruppsats som jämfört talet hos unga vuxna med LKG och unga vuxna utan LKG (Olsson & Rutgersson, 2010). Dock studerade Olsson och Rutgersson en grupp innehållande personer födda med BLKG, ULKG och isolerad gomspalt där en tendens till signifikant skillnad fanns mellan de födda med BLKG och de födda med isolerad gomspalt. Den stora spridningen mellan deras deltagare födda med LKG samt få deltagare med vardera typ av LKG kan förklara att resultatet skilde sig från föreliggande studie på ordnivå. På meningsnivå framkom inga skillnader mellan grupperna avseende förståelighet i föreliggande studie, vilket tyder på god meningsförståelighet hos samtliga deltagare, där många hade 100% förståelighet. Detta resultat går i linje med magisteruppsatsen av Olsson och Rutgersson (2010). I tidigare studier där skattningsskalor använts för bedömning av förståelighet har det framkommit att deltagare med LKG skiljer sig från normalpopulationen vid förståelighet av sammanhängande tal (Karling et al., 1993; Van Lierde et al., 2003). Detta skiljer sig från föreliggande studies resultat på meningsnivå och kan bero på att olika metoder använts vid bedömningen.

Förståelighetstestet SWINT som användes i denna studie var utformat med både ord och meningar med grundtanken att meningar leder till en mer känslig bedömning och blir ett komplement till orden (Lillvik et al., 1998). Bedömningarna som gjordes i föreliggande studie tydde snarare på motsatsen, det vill säga att ordbedömning framstod som ett känsligare mått än bedömning av meningar. Detta väcker frågan om validiteten i SWINT är hög vid testning av personer med hög grad av förståelighet. För att undvika takeffekt på ordnivå valdes flervalsbedömning bort till förmån för ortografisk transkription. Detta kan ha påverkat så att resultatet skilde sig mot grundtestet. En annan möjlig förklaring till resultatens skillnad på ord- och meningsnivå är att den grammatiska strukturen i meningarna bidrar med ledtrådar, trots att semantisk kontext saknas i SWINT. Då orden baseras på minimala par utan några semantiska eller grammatiska ledtrådar att gå efter blir dessa svårare att tolka korrekt. Meningar liknar mer sammanhängande tal än isolerade ord varpå detta resultat kanske mer speglar deltagarnas förståelighet i vardagen, som då förefaller god.

Testningen med SWINT baserades på läslistor och således kan felläsningar ha påverkat den uppmätta förståeligheten i samtliga grupper. Det kan vara en orsak till att flera deltagare födda utan LKG inte nådde upp till 100% förståelighet på ord- eller meningsnivå. Felläsningar antogs förekomma utifrån att deltagarna ändrade ord eller att lyssnarna skrivit samma felaktiga ord hos deltagarna utan LKG. Påverkan av läsförmåga och felläsningar vid bedömning av förståeligheten med SWINT har visats i en tidigare studie av Johannisson et al. (2014). Studiens deltagare var 10 år men författarna diskuterade att felläsningar även kan påverka förståeligheten hos personer i äldre åldrar. Utöver felläsningar kan en bidragande orsak till att inte alla deltagare utan LKG fick 100% vara att bedömningen gjordes utifrån den akustiska signalen, vilket innebar att

visuella ledtrådar som munrörelser och mimik saknades. Lyssnarens förutsättningar kan också påverka bedömningen, exempelvis förmåga att behålla uppmärksamhet.

Deltagargrupperna i denna studie var små vilket dessvärre är ett vanligt problem då personer födda med LKG är en relativt liten patientgrupp, speciellt personer födda med BLKG. Deltagarna födda med BLKG var en relativt heterogen grupp vilket bland annat berodde på det lilla urvalet, att adopterade inkluderades, att deltagarna opererades i olika åldrar samt hade olika kön. Eventuell hörselnedsättning hos deltagarna var också okänd. Detta gör det svårt att veta om gruppen representerar populationen på ett trovärdigt sätt eftersom litet urval leder till att personlig variation får större påverkan på resultatet. Det blir således en begränsning vid generalisering av resultat. Matchningen som gjordes mellan de födda med BLKG och de födda med ULKG på variablerna adoption, ålder vid operationer och kön bör dock ha minskat denna påverkan vid jämförelse mellan grupperna och kan ses som en styrka. Ytterligare begränsning kan vara bortfallet av deltagare. Procentuellt fler födda med BLKG (19%) tackade nej till att delta i studien jämfört med de födda med ULKG (5%). Detta kan ha påverkat resultatet i studien om de som hade extra svårt med talet valde att inte delta, alternativt att de som var nöjda med sitt tal kände sig omotiverade att delta. Flera av deltagarna födda med LKG kom inte på sin 19-årskontroll då studiens testmaterial samlades in, vilket innebär att studien kan ha missat deltagare som exempelvis upplevde sig mer nöjda med sitt tal. Vidare bestod urvalet i föreliggande studie av unga vuxna födda med LKG mellan 1989-1993. Tiden för slutning av hårda gommen var innan 1996 vid åtta års ålder vilket sedan successivt ändrades efter 1996 då målet var att slutning av hårda gommen skulle ske vid tre års ålder. Det har länge diskuterats och gjorts studier på vilken tidpunkt som är den optimala för slutning av gommen (Lohmander et al., 2012). En studie av Lohmander et al. (2012) såg att patienter med öppen restspalt i hårda gommen hade påverkad artikulation ända upp i sjuårsåldern. Då deltagarna i föreliggande studie fick hårda gommen slutet i olika åldrar (3;2-8;9 år) kan det ha haft en inverkan på artikulationsresultaten. Ingen sambandsanalys över detta gjordes. I dagsläget har operationstekniken i Göteborg ytterligare reviderats och slutning av hårda gommen görs vid två års ålder (P. Boivie, personlig kommunikation, 18 maj, 2017). Då operationstidpunkt för slutning av hårda gommen varierat och i dagsläget görs tidigare ses det som en begränsning till att resultaten ska kunna tillämpas på patienter som fötts senare än deltagarna i föreliggande studie. Sammanfattningsvis var begränsningarna avseende deltagarna deras heterogenitet, gruppstorlek och bortfall, vilket tillsammans med operationstidpunkt försämrar studiens generaliserbarhet.

Kontrollgruppen utan LKG samlades in i samband med ett examensarbete av Olsson och Rutgerström (2010) där författarna bland annat reflekterat över ljudinspelningarnas kvalitet. De ansåg inte att ljudinspelningarnas varierande kvalitet jämfört med inspelningarna som gjorts på unga vuxna med LKG hade något inflytande på bedömningen. Inte heller i denna studie upplevdes det som att ljudkvaliteten hindrade bedömare från att utföra en fullgod bedömning. Enda kommentaren om bakgrundsljud gjordes av en logoped som noterade att skrapet av en blyertspenna påminde om nasalt luftläckage. Ljudkvaliteten skilde sig dock så pass mycket att det var möjligt att urskilja deltagarna utan LKG från inspelningarna av de födda med LKG. Därmed hade bedömare en indikation på vilka som tillhörde gruppen utan LKG när bedömningen genomfördes och var således inte helt blindade för grupptillhörighet. Däremot gick det inte att urskilja om deltagarna födda med LKG hade BLKG eller ULKG eftersom dessa inspelningar

gjorts av samma logopeders och under liknande förhållanden. Bedömarna var alltså helt blindade för typ av LKG.

Författarna kan anses vara tränade lyssnare och bedömare av tal vid LKG då de i sin utbildning fått erfarenhet av att lyssna på avvikande tal samt genomförde träning av transkription och bedömning innan bedömningen startade. Hög intrabedömarreliabilitet hos bedömaren kan stärka trovärdigheten i resultatet. Det kan dock ses som en begränsning att författarna inte är specialister inom området, vilket ofta ses som optimalt (Sell, 2005).

Om svårigheterna som visat sig för gruppen födda med BLKG får någon påverkan i vardagen är individuellt. Det är viktigt att i bedömning samt utformning av intervention se till individens eget intresse och utifrån både aktivitet och delaktighet kartlägga påverkan. Studier har tidigare undersökt självskattning hos de födda med LKG vilket är ett viktigt komplement till instrumentell och perceptuell bedömning. I en självskattningsstudie av Oosterkamp et al. (2007) förelåg ingen skillnad mellan de födda med BLKG jämfört med kontrollgrupp utan LKG avseende tal. Däremot framkom i kvalitativa frågor att visst bekymmer kring bland annat tal kvarstod. Det är alltså svårt att veta exakt hur personer födda med BLKG själva upplever sitt tal. Dessutom har egen taluppfattning vid LKG inte alltid visat sig korrelera med logopeders bedömning, utan logopeden bedömer talet som mer avvikande än vad personen själv gör (Havstam et al., 2008). Behov av insatser bör alltså baseras på individens egen upplevelse av eventuella talsvårigheter.

Resultatet i denna studie tyder på att de födda med BLKG har större svårigheter än de utan LKG avseende artikulation och velofarynxfunktion, vilket de födda med ULKG inte har. Mer forskning behövs för att styrka detta resultat samt studier med större deltagargrupper för att kunna generalisera resultatet. Det behövs även mer forskning som kartlägger talet hos unga vuxna födda med BLKG och jämför detta med deltagarnas egen uppfattning. Önskvärt är också att fler studier använder sig av transkription som metod för analys av tal (Sell, 2005).

Referenser

- Brunnegård, K., & van Doorn, J. (2009). Normative data on nasalance scores for Swedish as measured on the Nasometer: influence of dialect, gender, and age. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 23(1), 58–69. <https://doi.org/10.1080/02699200802491074>
- de Buys Roessingh, A. S., Cherpillod, J., Trichet-Zbinden, C. & Hohlfeld, J. (2006) Speech outcome after cranial-based pharyngeal flap in children born with total cleft, cleft palate, or primary velopharyngeal insufficiency. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 64(12), 1737-1742. <https://doi.org/10.1016/j.joms.2005.11.103>
- Dalston, R. M., Warren, D. W., & Dalston, E. T. (1992). A preliminary study of nasal airway patency and its potential effect on speech performance. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 29(4), 330–335.
- Farzaneh, F., Becker, M., Peterson, A.-M., & Svensson, H. (2008). Speech results in adult Swedish patients born with unilateral complete cleft lip and palate. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive Surgery and Hand Surgery / Nordisk Plastikkirurgisk Forening [and] Nordisk Klubb for Handkirurgi*, 42(1), 7–13. <https://doi.org/10.1080/02844310701694522>
- Farzaneh, F., Becker, M., Peterson, A.-M., & Svensson, H. (2009). Speech results in adult Swedish patients born with bilateral complete cleft lip and palate. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive Surgery and Hand Surgery*, 43(4), 207–213. <https://doi.org/10.1080/02844310903040722>
- 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. [https://doi.org/10.1597/1545-1569\(1998\)035<0040:IOCLAP>2.3.CO;2](https://doi.org/10.1597/1545-1569(1998)035<0040:IOCLAP>2.3.CO;2)
- Harding, A., & Grunwell, P. (1998). Notes and Discussion Active versus passive cleft-type speech characteristics. *Int. J. Language & Communication Disorders*, 33(3), 329–352. <https://doi.org/10.1080/136828298247776>
- Havstam, C., Lohmander, A., Dahlgren Sandberg, A., & Elander, A. (2008). Speech and satisfaction with outcome of treatment in young adults with unilateral or bilateral complete clefts. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive Surgery and Hand Surgery / Nordisk Plastikkirurgisk Forening [and] Nordisk Klubb for Handkirurgi*, 42(4), 182–189. <https://doi.org/10.1080/02844310802055102>
- Henningsson, G., Kuehn, D. P., Sell, D., Sweeney, T., Trost-Cardamone, J. E., & Whitehill, T. L. (2008). Universal parameters for reporting speech outcomes in individuals with cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 45(1), 1–17. <https://doi.org/10.1597/06-086.1>
- Hutters, B., & Brønstedt, K. (1987). Strategies in cleft palate speech with special reference to Danish. *Cleft Palate Journal*, 24(2), 126-136.
- Johannisson, T. B., Lohmander, A., & Persson, C. (2014). Assessing intelligibility by single words, sentences and spontaneous speech: A methodological study of the speech production of 10-year-olds. *Logopedics Phoniatrics Vocology*, 39(January), 159–168. <https://doi.org/10.3109/14015439.2013.820487>
- Karling, J., Larson, O., Leanderson, R., & Henningsson, G. (1993). Speech in unilateral cleft palate patients from Stockholm. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 30(1), 73–77.
- Kent, R. D., Weismer, G., Kent, J. F., & Rosenbek, J. C. (1989). Toward phonetic intelligibility testing in dysarthria. *The Journal of Speech and Hearing Disorders*, 54(4), 482–499. <https://doi.org/10.1044/jshd.5404.482>
- 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 / Royal College of Speech & Language Therapists*, 46(3), 348–60.
<https://doi.org/10.3109/13682822.2010.507615>
- Lagerberg, T. B. (2013). *Assessment of intelligibility in children*. (Doktorsavhandling, Institutionen för neurovetenskap och fysiologi, Sahlgrenska Akademin). Göteborg: Ineko. Tillgänglig: <http://hdl.handle.net/2077/34074>
- Laitinen, J., Haapanen, M. L., Paaso, M., Pulkkinen, J., Heliovaara, A., & Ranta, R. (1998). Occurrence of dental consonant misarticulations in different cleft types. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 50(2), 92–100. <https://doi.org/fpl50092> [pii]
- Lillvik, M., Allemark, E., Karlström, P., & Hartelius, L. (1998). Intelligibility of dysarthric speech in words and sentences : development of a computerised assessment procedure in Swedish. *Log Phon Vocol*, 24(14), 107–119.
<https://doi.org/10.1080/140154399435057>
- Lohmander-Agerskov, A. (1998). Speech Outcome after Cleft Palate Surgery with the Göteborg Regimen Including Delayed Hard Palate Closure. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive Surgery and Hand Surgery*, 32(1), 63–80.
<https://doi.org/10.1080/02844319850158958>
- Lohmander, A., Borell, E., Henningsson, G., Havstam, C., Lundeborg, I., & Persson, C. (2005). *SVANTE Svenskt artikulations- och nasalitets-test (I)*. 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), 657–671. <https://doi.org/10.1597/11-085>
- Lohmander, A., Lundeborg, I., & Persson, C. (2017a). SVANTE – The Swedish Articulation and Nasality Test – Normative data and a minimum standard set for cross-linguistic comparison. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 31(2), 137–154.
<https://doi.org/10.1080/02699206.2016.1205666>
- Lohmander, A., Persson, C., Willadsen, E., Lundeborg, I., Alaluusua, S., Aukner, R., Bau, A., Boers, M., Bowden, M., Davies, J., Emborg, B., Havstam, C., Hayden, C., Henningsson, G., Holmefjord, A., Hölttä, E., Kisling-Møller, M., Kjöll, L., Lundberg, M., McAleer, E., Nyberg, J., Paaso, M., Pedersen, N. H., Rasmussen, T., Reisæter, S., Søggaard Andersen, H., Schöps, A., Tørdal, I.-B. & Semb, G. (2017b). Scandcleft randomised trials of primary surgery for unilateral cleft lip and palate: 4. Speech outcomes in 5-year-olds - velopharyngeal competency and hypernasality. *Journal of Plastic Surgery and Hand Surgery*, 51(1), 27–37.
<https://doi.org/10.1080/2000656X.2016.1254645>
- Marcusson, A., Akerlind, I., & Paulin, G. (2001). Quality of life in adults with repaired complete cleft lip and palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal : Official Publication of the American Cleft Palate-Craniofacial Association*, 38(4), 379–385.
[https://doi.org/10.1597/1545-1569\(2001\)038<0379:QOLIAW>2.0.CO;2](https://doi.org/10.1597/1545-1569(2001)038<0379:QOLIAW>2.0.CO;2)
- Marrinan, E. M., Labrie, R. A., & Mulliken, J. B. (1998). Velopharyngeal function in nonsyndromic cleft palate: Relevance of surgical technique, age at repair, and cleft type. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 35(2), 95–100. [https://doi.org/10.1597/1545-1569\(1998\)035<0095:VFINCP>2.3.CO;2](https://doi.org/10.1597/1545-1569(1998)035<0095:VFINCP>2.3.CO;2)
- Mayr, S., Burkhardt, K., Schuster, M., Rogler, K., Maier, A., & Iro, H. (2010). The use of automatic speech recognition showing the influence of nasality on speech intelligibility. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology*, 267(11), 1719–1725.

- <https://doi.org/10.1007/s00405-010-1256-5>
- Mossey, P. A., Little, J., Munger, R. G., Dixon, M. J., & Shaw, W. C. (2009). Cleft lip and palate. *The Lancet*, 374(9703), 1773–1785. [https://doi.org/10.1016/S0140-6736\(09\)60695-4](https://doi.org/10.1016/S0140-6736(09)60695-4)
- Niemi, M., Laaksonen, J. P., Ojala, S., Aaltonen, O., & Happonen, R. P. (2006). Effects of transitory lingual nerve impairment on speech: an acoustic study of sibilant sound /s/. *International Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 35(10), 920–923. <https://doi.org/10.1016/j.ijom.2006.06.002>
- Olsson, C., & Rutgersson, J. (2011). *Förståelighet och självskattad kommunikativ förmåga hos unga vuxna födda med och utan läpp-käk-gomspalt* (Magisteruppsats). Göteborg: Institutionen för neurovetenskap och fysiologi, Göteborgs universitet. Tillgänglig: <http://gupea.ub.gu.se/handle/2077/26916>
- Peterson-Falzone, S. J. (1995). Speech Outcomes in Adolescents with Cleft Lip and Palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 32(2), 125–128.
- Schuster, M., Maier, A., Bocklet, T., Nkenke, E., Holst, A., Eysholdt, U., & Stelzle, F. (2012). Automatically evaluated degree of intelligibility of children with different cleft type from preschool and elementary school measured by automatic speech recognition. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 76(3), 362–369. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2011.12.010>
- Schuster, M., Maier, A., Haderlein, T., Nkenke, E., Wohlleben, U., Rosanowski, F., Eysholdt, U. & Nöth, E. (2006). Evaluation of speech intelligibility for children with cleft lip and palate by means of automatic speech recognition. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 70(10), 1741–1747. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2006.05.016>
- Sell, D. (2005). Issues in perceptual speech analysis in cleft palate and related disorders: a review. *International Journal of Language & Communication Disorders*, 40(2), 103–121. <https://doi.org/10.1080/13682820400016522>
- Van Lierde, K. M., De Bodt, M., Baetens, I., Schrauwen, V., & Van Cauwenberge, P. (2003). Outcome of treatment regarding articulation, resonance and voice in Flemish adults with unilateral and bilateral cleft palate. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 55(2), 80–90. <https://doi.org/10.1159/000070090>
- Van Lierde, K. M., De Bodt, M., Van Borsel, J., Wuyts, F. L., & Van Cauwenberge, P. (2002). Effect of cleft type on overall speech intelligibility and resonance. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 54(3), 158–168. <https://doi.org/10.1159/000063411>
- Whitehill, T. L. (2002). Assessing intelligibility in speakers with cleft palate: A critical review of the literature. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 39(1), 50–58. [https://doi.org/10.1597/1545-1569\(2002\)039<0050:AIISWC>2.0.CO;2](https://doi.org/10.1597/1545-1569(2002)039<0050:AIISWC>2.0.CO;2)
- Willadsen, E., Lohmander, A., Persson, C., Lundeborg, I., Alaluusua, S., Aukner, R., Bau, A., Boers, M., Bowden, M., Davies, J., Emborg, B., Havstam, C., Hayden, C., Henningsson, G., Holmefjord, A., Hölttä, E., Kisling-Møller, M., Kjöll, L., Lundberg, M., McAleer, E., Nyberg, J., Paaso, M., Pedersen, N. H., Rasmussen, T., Reisæter, S., Søgård Andersen, H., Schöps, A., Tørdal, I.-B., & Semb, G. (2017). Scandcleft randomised trials of primary surgery for unilateral cleft lip and palate: 5. Speech outcomes in 5-year-olds - consonant proficiency and errors. *Journal of Plastic Surgery and Hand Surgery*, 51(1), 38–51. <https://doi.org/10.1080/2000656X.2016.1254647>
- Yorkston, K. M., Strand, E. A., & Kennedy, M. R. T. (1996). Comprehensibility of Dysarthric Speech: Implications for Assessment and Treatment Planning. *American Journal of Speech Language Pathology*, 5(1), 55–66.