



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

321

Talproduktion och velofarynxfunktion hos internationellt adopterade femåriga barn födda med bilateral läpp-käk-gomspalt

Lotten Bergmark
Lovisa Bugge

Examensarbete i logopedi
30 högskolepoäng
Vårterminen 2018

Handledare
Christina Persson
AnnaKarin Larsson
Patrik Boivie

Talproduktion och velofarynxfunktion hos internationellt adopterade femåriga barn födda med bilateral läpp-käk-gomspalt

Lotten Bergmark
Lovisa Bugge

Sammanfattning. Föreliggande studie ämnade undersöka talproduktion och velofarynxfunktion hos internationellt adopterade femåriga barn födda med bilateral läpp-käk-gomspalt och jämföra mot en jämnårig svenskfödd kontrollgrupp med bilateral läpp-käk-gomspalt. Utifrån fonetisk transkription av målfonem beräknades artikulationsförmåga i procent korrekt producerade konsonanter, procent korrekt artikulationssätt och procent korrekt artikulationsställe. Artikulationsavvikelser beräknades utifrån förekomst. Velofarynxfunktion bedömdes sammantaget utifrån variablerna hypernasalitet, passiva artikulationsavvikelser och icke-oral artikulatonsavvikelser vilket resulterade i en Velopharyngeal Composite Score. Ingen statistisk signifikans uppmättes för någon av de undersökta variablerna däremot förekom det en trend mot signifikans för artikulationsförmåga i procent korrekt producerade konsonanter. Studiegruppens resultat var genomgående lägre för alla variablerna. Majoriteten av deltagarna från båda grupperna bedömdes ha inkompetent velofarynxfunktion. Ytterligare forskning avseende barn med bilateral läpp-käk-gomspalt och internationellt adopterade barn med bilateral läpp-käk-gomspalt efterfrågas då båda grupperna har svårigheter avseende talproduktion och i stor utsträckning bedöms ha en otillräcklig velofarynxfunktion.

Nyckelord: läpp-käk-gomspalt, internationell adoption, tal, artikulation, velofarynxfunktion

Speech production and velopharyngeal function in internationally adopted 5-year-old children with bilateral cleft lip and palate

Abstract. This study aimed to investigate speech production and velopharyngeal function in internationally adopted 5-year-old children with bilateral cleft lip and palate and compare to a control group of Swedish born peers with bilateral cleft lip and palate. Phonetic transcription was used to measure percent consonants correct, percent correct manners of articulation and percent correct placement. Consonant errors was measured by prevalence. The perceptual assessments of three separate variables; hypernasality, passive- and non-oral errors resulted in a Velopharyngeal Composite Score which determined the velopharyngeal function. Significance was not reached for any variable, though the study group generally performed worse and a trend emerged for the variable percent correct consonants. Both groups have difficulties with speech production and more than half of all participants had an insufficient velopharyngeal function. Further research is therefore required for children with bilateral cleft lip and palate and internationally adopted children with bilateral cleft lip and palate.

Key words: cleft palate, international adoption, speech, articulation, velopharyngeal function

Förekomsten av internationellt adopterade barn med någon form av läpp-käk-gomspalt har under det senaste decenniet ökat (Hansson, Svensson & Becker, 2012). Forskning rörande adopterade barn med läpp-käk-gomspalt (LKG) visar att de uppvisar en högre förekomst av talavvikelser och velofaryngeal insufficiens jämfört med icke-adopterade barn med LKG (Sullivan, Jung & Mulliken, 2014). Det finns en högre förekomst av bilateral läpp-käk-gomspalt (BLKG) hos internationellt adopterade barn från Kina med LKG jämfört med barn födda med LKG i Sverige (Hansson et al., 2012). Studier som undersökt talproduktion och velofarynxfunktion hos gruppen internationellt adopterade barn med BLKG saknas.

LKG är ett samlingsnamn för orofaciala deformiteter orsakade av en ofullständig slutning av läpp, käke och/eller gommen under fosterutvecklingens fjärde till tionde vecka (Mossey, Little, Munger, Dixon, & Shaw, 2009). Spalten kan förekomma i läpp, käke, hårda gommen och mjuka gommen, antingen isolerat eller i olika kombinationer. En partiell spalt berör läppen och/eller käken medan en total spalt innebär att alla strukturer är drabbade. Beroende på om spalten förekommer ensidigt eller på båda sidor benämns den som unilateral läpp-käk-gomspalt (ULKG) respektive BLKG (Mossey et al., 2009). I Sverige föds cirka 2 per 1000 barn med LKG (Socialstyrelsen, 2004; Hagberg, Larson, & Milerad, 1998) Prevalensen varierar internationellt med rapporterade siffror mellan 0,6-2,5 per 1000 födda (Socialstyrelsen, 2004). Gällande förekomsten av BLKG finns det uppgifter som anger att ULKG är cirka 7-9 gånger vanligare än BLKG (Hagberg et al., 1998; Hopper, Cutting & Grayson, 2007). BLKG beskrivs som den svåraste typen av spalt att behandla (Hopper et al., 2007) då den muskulära strukturen är mer anatomiskt avvikande, vilket kan påverka förutsättningarna för velofarynxfunktion (Marrinan, LaBrie & Mulliken, 1998). Barn med LKG är generellt mer utsatta för återkommande episoder med otosalpingit (vätska bakom trumhinnan) jämfört med barn utan LKG (Flynn, Möller, Jönsson & Lohmander, 2009). Hörselnedsättning till följd av upprepade episoder med otosalpingit kan påverka barnets tal- och språkutveckling (Shaffer, Ford, Choi & Jabbour, 2017). I Sverige behandlas barn med LKG på ett regionalt LKG-center av ett multidisciplinärt team. Barnen följs enligt rutinkontroller från födseln tills de fyller 19 år och därefter avslutas vanligen kontakten med LKG-teamet, om inte den unge vuxne önskar fortsatt behandling (Havstam, Lohmander, Dahlgren Sandberg & Elander, 2008). I Sverige finns det sex olika regionala LKG-center där professioner som plastikkirurg, logoped, ortodontist, audiolog och audionom ingår i LKG-teamet (Sahlgrenska Universitetssjukhuset, 2017).

Spalter i gommen kan påverka talutvecklingen, en öppen passage mellan näshåla och munhåla kan leda till hypernasalitet och skapa svårigheter att upprätthålla ett högt intraoralt tryck vilket krävs vid produktion av många konsonanter. Talet kan innehålla passiva och/eller aktiva talavvikelser som anses typiska för LKG (Chapman & Willadsen, 2013; Hutter & Brøndsted, 1987). En oförmåga att sluta tätt mellan näs och munhålan ger passiva talavvikelser i form av hypernasalitet, tryckreducerad artikulation och nasalt luftläckage med oförändrat artikulationsställe (Hutter et al., 1987; Lohmander, Borell, Henningsson, Havstam, Lundeborg & Persson, 2005). Karling, Larson, Leanderson & Henningsson (1993) och Van Lierde, De Bodt, Van Borsel, Wuyts, & Van Cauwenberge (2002) fann ingen skillnad avseende hypernasalering mellan personer med uni- och bilaterala spalttyper. Andra studier har funnit att personer med större spalter oftare har en

otillräcklig velofarynxfunktion med relaterade symtom som hypernasalitet och artikulationsavvikelser (Riski & Delong, 1984; Hardin-Jones & Jones, 2005).

Aktiva talavvikelser är kompensatoriska artikulationsmönster och kan delas in i avvikelser framför velofarynx (oral) och bakom velofarynx (icke-oral). Avvikelser framför velofarynx kan innebära främre artikulationsavvikelser och tillbakadragen oral artikulation, där den senare anses relaterad till förekomst av gomspalt. Icke-oral artikulation omfattar faryngeal eller glottal produktion av klusiler och frikativor, glottal förstärkning samt nasal eller velofaryngeal produktion av frikativor (Hutters et al., 1987; Lohmander et al., 2005). Barn med BLKG kan uppvisa högre frekvens av tillbakadragen oral artikulation och icke-oral artikulation jämfört med barn med ULKG (Karling et al., 1993). Förmåga att producera dentala klusiler och tillgång till ett varierat konsonantinventorium vid 18 månaders ålder förefaller vara gynnsamt för en god artikulatorisk utveckling. En sen talutveckling med ett begränsat konsonantinventorium och få yttranden i tidig ålder verkar korrelera med glottal artikulation hos äldre barn med ULKG (Lohmander & Persson, 2008).

Velofarynxfunktion har visat sig kunna bedömas tillförlitligt genom att summera bedömningar av hypernasalitet, passiva artikulationsavvikelser i form av trycksvaga konsonanter, nasalt luftläckage samt aktiv icke-oral artikulation (Lohmander et al., 2017a; Lohmander et al., 2017c). Bedömning av hypernasalitet hos talaren kan utföras genom en perceptuell skattning av förekomst av hypernasalitet, vilket kan innebära att reliabiliteten påverkas negativt då det är en svår variabel att bedöma samstämmigt (Brunnegård & Lohmander, 2007). En perceptuell bedömning av hypernasalitet kan innebära svårigheter då bedömaren kan påverkas av andra variabler som vokalkvalité (Watterson, Lewis, Allord, Sulprizio & O'Neill, 2007), röstkvalité och artikulatoriska avvikelser (Lee, Whitehill & Ciocca, 2009). Bedömning på en flergradig skala kan innebära svårigheter att särskilja mellan de olika skalstegen, en bedömning av förekomst eller icke förekomst alternativt en tregradig skala kan föredras vid bedömning av hypernasalitet (Lohmander, Willadsen, Persson, Henningsson, Bowden, & Hutters, 2009). En sammantagen bedömning av velofarynxfunktionen som baseras på en bedömning av variablerna hypernasalitet, passiva artikulationsavvikelser och icke-oral artikulationsavvikelser kan räknas samman till en "velopharyngeal composite score" (VPC-sum) vilket innebär ett mått på velofarynxfunktionen (Lohmander et al., 2017c).

Treåriga barn med ULKG uppvisar färre korrekta konsonanter än jämnåriga utan spalt (Klintö & Lohmander, 2017; Lohmander et al., 2008; Klintö, Salameh & Lohmander, 2016) och förmågan till korrekt konsonantproduktion vid tre års ålder korrelerar med konsonantproduktion och fonologisk förmåga vid fem års ålder. Utvecklingsrelaterade avvikelser som exempelvis klusilering förekommer i högre utsträckning hos barn med LKG som slutit hårda gommen vid tre års ålder eller senare (Klintö, 2016). Några variabler som funnits påverka talproduktionen hos barn med LKG är bland annat storlek på spalten, velofarynxfunktion, förekomst av fistlar eller restspalt och kvalité på samt tillgång till olika instanser involverade i behandlingen av LKG (Chapman et al., 2013).

Det finns en mängd olika metoder för bedömning av tal relaterat till LKG vilket ger svårigheter att jämföra resultat mellan studier (Hutters & Henningsson, 2004). För att jämföra artikulationsförmåga och talavvikelser är det fördelaktigt att använda sig av ett

talmaterial som elicerar tryckstarka konsonanter (exempelvis klusiler) och höga vokaler i isolerade ord (Henningsson, Kuehn, Sell, Sweeney, Trost-Cardamone & Whitehill, 2008). Svenskt Artikulations och Nasalitet Test, SVANTE (Lohmander et al, 2005) elicerar den typen av konsonanter och vokaler. För att utvärdera tal med avvikelser relaterade till LKG kan benämning av isolerade ord ge en bra uppfattning av barnets bästa förmåga (Klintö, Salameh, Svensson & Lohmander, 2011). Artikulationsförmåga har i flera nordiska studier (Klintö, Svensson, Elander & Lohmander, 2014; Larsson, Schölin, Mark, Jönsson & Persson, 2017; Lohmander et al., 2008) angetts i måttet procent korrekta konsonanter (Percent Consonants Correct, PCC) (Shriberg & Kwiatkowski, 1982). PCC är ett mått som påverkas av både artikulatoriska och fonologiska avvikelser och är framtaget som ett kvantitativt mått på talförmåga. PCC kan användas vid benämning av isolerade ord (Shriberg, 1993). PCC tar inte hänsyn till åldersrelaterade artikulationsavvikelser och för att få en mer rättvis bild av barnets förmåga kan åldersanpassad procent korrekta konsonanter (Percent Consonants Correct - Adjusted for Age, PCC-A) användas (Klintö et al., 2016; Larsson et al, 2017). Åldersadekvata distorsioner av icke-etablerade fonem bedöms då som korrekta. För att ett fonem skall anses etablerat i det typiska talet hos femåringar krävs att minst 90 % av barnen i den åldersgruppen producerar fonemet i minst 50 % av möjliga tillfällen (Klintö et al., 2016). Fonem som inte anses etablerade i talet hos svenska femåringar är [s] och [r] (Lohmander et al., 2017b). Åldersanpassad procent korrekta konsonanter (PCC-A) för svenska femåringar innebär att åldersadekvata avvikelser av [s] och [r] bedöms som korrekta (Klintö et al., 2016). Procent korrekt artikulationsställe (Percent correct placement, PCP) och procent korrekt artikulationssätt (Percent correct manners, PCM) kan också ge relevant information rörande avvikelser typiska för LKG och utvecklingsrelaterade avvikelser (Larsson et al, 2017; Lohmander et al., 2008). En kartläggning av artikulationsavvikelser ger värdefull information i forskning på barn med LKG (Hutters et al., 1987; Harding & Grunwell, 1998; Larsson et al., 2017; Henningsson et al, 2008; Lohmander et al., 2017b). Artikulationsavvikelser kan grupperas ihop under huvudkategorier som exempelvis utvecklingsrelaterade avvikelser, passiva avvikelser eller icke-oral artikulation (Willadsen et al., 2017; Hutters et al., 1987; Lohmander et al., 2017b).

Det saknas konsensus för vad som anses vara en tidig respektive sen slutning av gommen då detta inom forskning har definierats på många olika sätt (Peterson-Falzone, 2013). En kirurgisk slutning av spalten ämnar skapa förutsättningar för korrekt produktion av alla språkljud. En tidig slutning av gommen (11 månader) har visat sig vara fördelaktigt för talförmågan avseende parametrarna artikulation och resonans (Chapman, Hardin-Jones, Goldstein, Halter, Havlik & Schulte, 2008). Enbart kirurgiska insatser kan leda till en minskning av passiva talavvikelser, aktiva talavvikelser är däremot i högre grad beroende av både kirurgi och talintervention (Harding et al., 1998). Det finns indikationer på att en tidig slutning av mjuka gommen (7,5 månader) bedöms resultera i en perceptuellt förbättrad talfunktion även innan hårda gommen slutits (Lohmander, Friede & Lilja, 2012). Då barnets mjuka gom har slutits uppstår möjligheten att producera klusiler bakom den öppna hårda gommen vilket vanligen resulterar i tillbakaflyttad oral artikulation (Lohmander et al., 2008). Willadsen (2012) argumenterar för att en slutning av hårda gommen inte bör ske senare än vid 12 månaders ålder, då barnets fonologiska utveckling gynnas av denna tidiga slutning. Effekterna av den kirurgiska slutningen är av betydelse för orofacial tillväxt samt tal, då dessa påverkas av tidpunkt för slutning av mjuka och

hårda gommen samt val av kirurgisk teknik (Friede, Lilja, & Lohmander, 2013). Hos barn med BLKG ses vanligen en protruderad premaxilla som inte är sammanbunden med de laterala gomsegmenten via de alveolara utskotten. Detta kan resultera i en kollaps av gomsegmenten, vilket leder till ett mindre utrymme med en förändrad form som är mer utmanande att behandla kirurgiskt (Hopper et al., 2007).

På Sahlgrenska Universitetssjukhuset i Göteborg arbetar man enligt Göteborgsmodellen, som innebär att gommen rekonstrueras enligt ett två-stegsprotokoll. Vid sex månaders ålder utförs läpp-/näsvinge-plastikoperation samt slutning av mjuka gommen. Hårda gommen sluts när barnet är två år (Friede et al., 2013). Målet med kirurgin är att skapa optimala förutsättningar för tal- och språkutveckling och samtidigt säkerställa en god tillväxt av mellanansiktet (Lohmander et al., 2012; Friede, Lilja, & Lohmander, 2012). Vid BLKG genomförs vanligen läppadaption innan läpp-/näsvinge-plastikoperation kan genomföras, detta för att minimera premaxillans protrusion och spaltens bredd. Restspaltslutning (slutning av hårda gommen) utförs ibland i två sessioner vid breda spalter som BLKG (Göteborgs LKG-team Sahlgrenska Universitetssjukhuset, 2011).

Kina står för en stor del av internationella adoptioner och på senare år har det blivit allt vanligare att barn adopterade från Kina har någon form av medicinsk problematik (Hanson et al., 2012; Werker, Molen & Breugem, 2017). Detta beskrivs ibland med termen "special needs adoption" och kan innebära exempelvis olika typer av hjärtfel, LKG eller hand- och fotdeformiteter (Werker et al., 2017). Barn med någon typ av LKG ingår i gruppen barn med speciella behov som adopteras till Sverige från Kina. Barnen är oftast ett år eller äldre då de adopteras (Hansson et al., 2012). Barn som adopteras genomgår ett plötsligt språkbyte då de förlorar tillgång till sitt modersmål för att påbörja den språkliga utvecklingen i sitt nya språk (Glennen, 2005). Barnets ålder vid adoptionen är en viktig faktor. Det har konstaterats att yngre barn, vilka adopterats innan de fyllt två år, oftast kan förvärva det nya språket snabbare än barn som är äldre vid adoptionstillfället (tre till fyra år) (Glennen, 2014). Äldre barn behöver mer tid än yngre för att komma ikapp språkligt men tre år efter adoptionstillfället så är dessa skillnader vanligen utjämnade (Glennen, 2014). Gällande artikulationsförmåga har ålder vid adoptionstillfället inte lika avgörande betydelse, efter ca nio månaders exponering av det nya språket presterar majoriteten av både yngre och äldre adopterade barn inom normalspannet för artikulatorisk förmåga (Glennen, 2014).

Barn med LKG är oftast ett år eller äldre då de adopteras och vanligen har endast läppplastik utförts i Kina (Hansson et al., 2012). Detta kan resultera i utmaningar för LKG-teamet då det kan innebära svårigheter att följa den lokala behandlingsmodellen. Barnen opereras ofta senare än rekommenderat vilket kan få implikationer i form av högre förekomst av velofarynxinsufficiens, talavvikelser och ett ökat behov av ytterligare talförbättrande kirurgi (Sullivan et al., 2014; Morgan, O'Gara, Bellucci, Linde, Albert, Curtis, Patel & Kapp-Simon, 2018). Adopterade barn med LKG har även rapporterats uppvisa högre förekomst av komplikationer i form av gomfistlar (Swanson, Smartt, Salzman, Birgfeld, Hopper, Gruss & Tse, 2014; Hanson et al., 2012). Morgan et al. (2018) fann en högre frekvens av nedsatt artikulationsförmåga och kvarstående artikulationsavvikelser hos adopterade barn med LKG jämfört med barn med LKG som inte adopterats.

En masteruppsats (Gravgaard, 2016) undersökte operativa ingrepp och kirurgiska resultat hos adopterade barn med LKG och fann en signifikant skillnad avseende behovet av och antalet talförbättrande operationer hos de adopterade barnen jämfört med en kontrollgrupp som behandlats på Sahlgrenska sedan födseln. Larsson et al. (2017) har undersökt talproduktionen hos treåriga barn med ULKG som adopterats från Kina till Sverige. Resultaten visade att de adopterade barnen skiljde sig signifikant från en jämnårig svenskfödd kontrollgrupp med ULKG avseende artikulationsförmåga och velofarynxfunktion. De adopterade barnen uppvisade färre antal korrekt producerade konsonanter jämfört med kontrollgruppen. Uteslutning och utbyte av målkonsonant var signifikant vanligare hos de adopterade barnen jämfört med kontrollgruppen. De adopterade barnen bedömdes också i högre utsträckning ha otillräcklig velofarynxfunktion jämfört med kontrollgruppen. I ett examensarbete (Axelsson & Jonasson, 2011) undersöktes talproduktion hos femåriga internationellt adopterade barn med LKG och jämfördes med en matchad kontrollgrupp av barn födda i Sverige med LKG. De fann att det förelåg en signifikant skillnad avseende velofarynxfunktion då fler av de adopterade barnen bedömdes ha en inkompetent velofarynxfunktion.

Sammantaget visar tidigare forskning att det förefaller innebära högre risker för adopterade barn med LKG att utveckla talsvårigheter. De har ofta annorlunda anatomiska förutsättningar relaterade till att den kirurgiska slutningen av gommen skett senare än rekommenderat samt att de även genomgått ett språkbyte (Hansson et al., 2012). Inga tidigare studier har specifikt undersökt gruppen adopterade barn med BLKG även om adopterade barn med BLKG från Kina är en del av den kliniska verkligheten för LKG-teamen i Sverige (Hansson et al., 2012). BLKG är mer utmanande att behandla än ULKG (Hansson et al., 2012; Hopper et al., 2007) och det finns därför ett behov av att utvidga kunskapen kring talutvecklingen hos gruppen adopterade barn med BLKG. Detta borde generera värdefull kunskap om hur en fördröjd gomslutning och ett språkbyte påverkar deras talproduktion då de jämförs med en svenskfödd kontrollgrupp med BLKG. Syftet med examensarbetet var därför att undersöka artikulationsförmåga, förekomst av artikulationsavvikelser och velofarynxfunktion hos adopterade femåriga barn med BLKG och jämföra med barn med samma spalttyp födda i Sverige.

Frågeställningar

Finns det skillnader mellan internationellt adopterade och icke-adopterade femåriga barn med BLKG gällande:

- Artikulationsförmåga, bedömd i procent korrekta konsonanter, procent korrekt artikulationssätt och procent korrekt artikulationsställe.
- Förekomst av olika typer av artikulationsavvikelser.
- Velofarynxfunktion, sammantaget bedömd utifrån variablerna hypernasalitet, passiva artikulationsavvikelser och aktiva icke-oral artikulatonsavvikelser.

Metod

Deltagare

Studiegrupp med barn födda med fullständig BLKG adopterade från Kina. Studiegruppen bestod av 14 deltagare, tre flickor och elva pojkar. Tjugotre internationellt adopterade barn födda mellan 2006 och 2010 som behandlades av LKG-teamet på

Sahlgrenska Universitetssjukhuset identifierades i en sökning på Logopedmottagningen, Sahlgrenska Universitetssjukhuset. Två deltagare uteslöts på grund av annat födelseland än Kina. Förfrågan om medverkan i studien skickades ut till målsman för 21 deltagare, 16 gav skriftligt tillstånd. Fullständig BLKG definierades som förekomst av dubbelsidig käkspalt samt gomspalt, partiell läppspalt godtogs. Gipsavgjutningar av deltagarnas gommar samt journalinformation bedömdes tillsammans med erfaren plastikkirurg för att säkerställa spalttyp. Två deltagare bedömdes inte ha fullständig BLKG och exkluderades. Ingen av deltagarna var diagnostiserad med ett syndrom. Medianålder vid adoption var 2:0 år (minimum-maximum 1:0 - 3:2) och medianålder vid inspelningstillfället var 5:1 år. Deltagarna i studiegruppen hade exponerats för svenska i medel 3:2 år (minimum-maximum 1:10-4:2). Uppgifter kring utredning och behandling av hörsel före adoption saknades, men sedan ankomsten hade deras hörsel övervakats och vid behov behandlats kontinuerligt i enlighet med det regionala vårdprogrammet (Göteborgs LKG-team Sahlgrenska Universitetssjukhuset, 2011).

Kontrollgrupp med icke-adopterade barn födda med fullständig BLKG. Kontrollgruppen bestod av tio deltagare, tre flickor och sju pojkar. Tjugonio barn födda mellan 2006 och 2010 som behandlats från födseln av LKG-teamet på Sahlgrenska Universitetssjukhuset identifierades i en sökning på Logopedmottagningen, Sahlgrenska Universitetssjukhuset. Elva deltagare uteslöts vid en tidig journalscreening av erfaren logoped. Av dessa elva barn exkluderades fyra eftersom deras primäroperation inte skett på Sahlgrenska. Fem deltagare uteslöts på grund av att de inte bedömdes ha BLKG. En deltagare uteslöts på grund av oförmåga att medverka i SVANTE-testningen under femårskontrollen och en deltagare uteslöts baserat på förekomst av syndrom. Förfrågan om medverkan i studien skickades ut till målsman för 18 deltagare varav elva gav skriftligt tillstånd. Spalttyp säkerställdes utifrån samma definition och bedömning som studiegruppen tillsammans med erfaren plastikkirurg, en deltagare bedömdes inte ha fullständig BLKG och exkluderades. Medianålder vid inspelningstillfället var 5:1 år. Uppgifter kring deltagarnas hörsel saknades men deras hörsel har övervakats och vid behov behandlats kontinuerligt sedan födseln i enlighet med det regionala vårdprogrammet (Göteborgs LKG-team Sahlgrenska Universitetssjukhuset, 2011).

Ytterligare ett inklusionskriterie var att deltagarna i testningen med SVANTE under sin femårskontroll producerade minst 50 % av målorden för bedömning av artikulation och åtta av nio målord för bedömning av hypernasalitet.

Operationshistorik. I studiegruppen hade fyra deltagare inte genomgått några kirurgiska ingrepp innan de kom till Sverige. Fem deltagare hade genomgått läpp-/näsvingeplastikoperation i Kina, övriga fem hade dessutom genomgått någon typ av gomplastik i Kina. För ett fåtal deltagare fanns det uppgifter om ålder vid ingreppen, för de övriga fanns det ingen information om tidpunkt eller antalet utförda operationer i Kina. Deltagarna i studiegruppen behandlades i enlighet med Göteborgsmodellen (Göteborgs LKG-team Sahlgrenska Universitetssjukhuset, 2011) efter sin ankomst till Sverige. Genomsnittlig ålder för slutning av mjuka gommen var 2:2 år ($s=0:10$) beräknat utifrån de deltagare för vilka det fanns tidsangivelser för slutning av mjuka gommen. Två deltagare behövde genomgå ytterligare en operation av mjuka gommen för att uppnå slutning, medelålder beräknades utifrån den sista slutningen. Fem deltagare hade genomgått restspaltslutning i ett steg, medelålder 3:3 år ($s=0:8$). Fyra deltagare hade

genomgått restspaltslutning i två steg, genomsnittsåldern var 2:9 år ($s=0:9$) och 3:4 år ($s=0:11$) för första respektive andra slutningen. Medianålder för slutning av hårda gommen oavsett operationsmetod var 3:2 år. Sex deltagare i studiegruppen hade genomgått ytterligare kirurgi utöver vårdprogrammet innan femårskontrollen. En översikt över ålder vid gomslutning, ett- eller tvåstegsslutning av hårda gommen, total gomplastik och antal operationer utöver ordinarie vårdprogrammet redovisas i tabell 1.

För deltagarna i kontrollgruppen var genomsnittlig ålder för slutning av mjuka gommen 0:6 år ($s=0,9$ månader). Två deltagare hade genomgått restspaltslutning i ett steg, deras genomsnittsålder var 2:2 år ($s=0,7$ månader). De resterande åtta deltagarnas restspaltslutningar utfördes i två steg, genomsnittlig ålder 2:1 år ($s=0:3$) och 2:7 år ($s=0:5$) för första respektive sista slutningen. Medianålder för slutning av hårda gommen var 2:7 år. Två deltagare i kontrollgruppen hade genomgått ytterligare kirurgi utöver vårdprogrammet innan femårskontrollen. En översikt över ålder vid gomslutning, ett- eller tvåstegsslutning av hårda gommen, och antal operationer utöver ordinarie vårdprogrammet redovisas i tabell 1.

Tabell 1

Översikt över ålder vid gomslutning och antal ytterligare operationer redovisat utifrån deltagare

Deltagare	Operationsålder år : månader				Antal ytterligare operationer	
	Slutning mjuka gommen	Slutning hårda gommen	Total gom plastik	Talförbättrande kirurgi	Fistel slutning	
SG N14 KGN10	Primär slutning	Reoperation	Ett steg	Två steg		
SG 02					1:0*	
SG 03	2:0		2:11			1
SG 04	2:2		2:6	3:2		1
SG 05	1:8		2:3			
SG 06	1:3		1:11	2:4		
SG 08					< 2:8*	
SG 09	1:9	2:7			3:5	1
SG 10	1:9		2:8	3:2		1
SG 11	3:5		3:10	4:8		
SG 12					<2:3*	3
SG 13	2:10	3:6	4:2			
SG 14	2:1		3:1			
SG 15					<2:4*	
SG 16	<2:10*		3:4			2
KG 01	0:6		2:1			
KG 02	0:5		2:1	2:10		
KG 04	0:6		2:6	3:3		
KG 05	0:7		2:3	3:3		
KG 06	0:6		2:3	2:7		
KG 07	0:7		1:8	2:3		1
KG 08	0:5		2:2			2

KG 09	0:6	2:0	2:6	2
KG 10	0:8	2:1	3:2	
KG 11	0:7	1:8	1:11	

SG=studiegrupp KG=kontrollgruppen *operation utförd i Kina, vid okänd ålder används < följt av ålder vid adoption

Etisk hänsyn

Den regionala etikprövningsnämnden i Göteborg beviljade den etiska ansökan 2013-12-12, diarienummer 865-13. Skriftligt tillstånd har erhållits från vårdnadshavare för samtliga deltagare.

Ljudfiler och talmaterial

Ljudfilerna som användes spelades in av logopeders verksamhet på Logopedmottagningen ÖNH, Sahlgrenska Universitetssjukhuset vid deltagarnas rutinkontroll för femåringar under 2011-2015. Inspelningarna gjordes med Tascam HD-P2 och mikrofon Sony ECM-MS957. Under rutinkontrollerna testades barnen med SVANTE (SVenskt Artikulations och Nasalitets TEst) (Lohmander et al., 2005). I SVANTE används ett bildmaterial för att elicitera 59 målord. De eliciterade målorden innehåller 59 målkonsonanter för bedömning av artikulation och velofarynxfunktion. De första nio målorden innehåller en hög vokal ([i] och [u]) och är avsedda för bedömning av hypernasalitet. Målkonsonanterna består av sex olika klusiler [p b t d k g] och två olika frikativor [f s] som förekommer i initial position, i medial position och i final position samt frikativan [ç] som endast förekommer i initial position. Studiegruppen producerade i medeltal 58,5 målord ($s=0,9$) och kontrollgruppen 56,9 målord ($s=3$), skillnaden var inte signifikant $z=-1,82$, $p=,96$ och bör därmed inte påverka resultaten. Författarna editerade alla ljudfiler i programmet PRAAT version 5356 win32 och skapade en ljudfil per målord samt en ihopklippt ljudfil innehållande målorden för bedömning av hypernasalitet. Filerna sparades som wav-filer. Ljudfilerna samlades i två mappar per barn, en med innehåll för fonetisk transkribering som utfördes av båda författarna och en för hypernasalitetsbedömning som bedömdes av utomstående logopeders. För att säkerställa att författarna var blindade för grupptillhörighet vid transkriberingen omkodades och randomiserades ljudfilerna av en utomstående medhjälpare. Inför hypernasalitetsbedömningen omkodades och randomiserades författarna ljudfilerna. Trettio procent av ljudfilerna för fonetisk transkribering samt hypernasalitetsbedömning dubblerades innan omkodning för beräkning av intrabedömarreliabilitet.

Tillvägagångsätt

Författarna tränade fonetisk transkription individuellt och tillsammans under sammanlagt 35,5 timmar varav 4 timmar bestod av handledning av erfaren logoped. Användandet av olika fonetiska symboler och diakritiska tecken diskuterades. En transkriptionsmanual baserad på IPA och ExtIPA (Ball, Howard & Miller, 2017) i linje med de svenska riktlinjerna för transkription av LKG-tal (Lohmander et al., 2005) togs fram under träningen. Transkriptionerna av målkonsonanter var av halvsnäv (semi narrow) fonetisk typ och båda författarna transkriberade var för sig målkonsonanterna i samtliga deltagares ljudfiler. Författarna kunde lyssna på ljudfilerna upprepade gånger. Ett fonetiskt tangentbord framtaget inom Scandleftprojektet (Willadsen et al., 2017) och anpassat för transkription av LKG-tal användes. Transkriptionerna noterades i exceldokument.

Transkriberingen skedde i ett tyst rum, hörlurar av typen Creative HS-720 Headset användes.

Hypernasalbedömningen utfördes av tre yrkesverksamma logopeders med erfarenhet av bedömning av hypernasalt tal. Logopederna fick tillgång till en ljudfil per barn innehållande målord för bedömning av hypernasalitet och ett svarsdokument. Bedömningen gjordes i två steg. Först bedömdes om hypernasalitet förekom eller inte. Om hypernasalitet ansågs förekomma skattades förekomsten som lätt, måttlig eller kraftig. Ljudfilerna kunde repeteras så många gånger logopederna önskade.

Mätmetoder

För samtliga mätmetoder där information inhämtades från fonetiska transkriptioner användes transkriptionsmaterialet från författaren med högst intrabedömarreliabilitet avseende placering och sätt (författare två, F2).

För beräkning av artikulationsförmåga beräknades procent korrekta konsonanter (PCC), åldersanpassad PCC (PCC-A), procent korrekt artikulationssätt (PCM) och procent korrekt artikulationsställe (PCP) av författarna. Variablerna för beräkning av artikulationsförmåga presenteras i tabell 2.

Tabell 2

Översikt över variabler för beräkning av artikulationsförmåga

Artikulationsförmåga				
Variabel	Kriterier för att anses korrekt	Beräkning	Bedömnings-material	Referens
<i>PCC procent korrekta konsonanter</i>	Producerat fonem matchar målkonsonant	Antal korrekta konsonanter delas med antalet	Halvsnav fonetisk transkription	Klintö et al., 2011
<i>PCC-A procent korrekta konsonanter justerad för ålder</i>	Producerat fonem matchar målkonsonant, även åldersadekvata s-distorsioner	producerade målord och multipliceras med 100	erhållen från ljudfiler innehållande eliciterade ord från	Klintö et al., 2016 Lohmander et al., 2017b
<i>PCM procent korrekt artikulationssätt</i>	Producerat artikulationssätt matchar målkonsonantens artikulationssätt	Antal korrekta artikulationssätt delas med antalet målord och multipliceras med 100	orddelen av SVANTE-testet utförd av författaren	Klintö et al., 2011
<i>PCP procent korrekt artikulationsställe</i>	Producerat artikulationsställe matchar målkonsonantens artikulationsställe	Antal korrekta artikulationsställe delas med antalet målord och multipliceras med 100	med högst intrabedömarreliabilitet	Klintö et al., 2011

Artikulationsavvikelser beräknades av författarna utifrån förekomst främst baserat på Willadsen et al. (2017) Ett producerat fonem kunde markeras som flera olika typer av avvikelser, alltså i flera olika kategorier. En artikulationsavvikelse ansågs förekomma då

den markerats vid tre eller fler tillfällen i transkriptionen. Variablerna för beräkning av förekomst av artikulationsavvikelser presenteras i tabell 3.

Tabell 3

Översikt av variabler för beräkning av artikulationsavvikelser

Variabel		Markeras som avvikelse i transkriptionen vid förekomst:	Bedömningsmaterial
Huvudkategori	Underkategori		
Utvecklingsrelaterade		På- och avtoning, klusilering, dentalisering, frikativisering och utbyte mellan /s/ och /f/	
	På- och avtoning	På- och avtoning i form av diakritiskt tecken eller utbyte av fonem	
	Klusilering	Frikativt målfonem realiserar som klusil	
	Dentalisering	Velart eller palatalt artikulationsställe hos målfonemet flyttas fram till alveo-dentalt eller dentalt artikulationsställe	
	Frikativisering	Klusilt målfonem realiserar som frikativa	
	Utbyte mellan /s/ och /f/	Utbyte mellan /s/ och /f/ som målfonem	
	Passiva		Vid nasala genomslag, velofaryngeala friktionsljud, trycksvag artikulation och när nasal ersatt tonande klusil
Nasala genomslag		Nasala genomslag markerat med diakritiskt tecken	
Velofaryngeala friktionsljud		Velofaryngeala friktionsljud markerat med diakritiskt tecken	
Trycksvag artikulation		Trycksvag artikulation markerat med diakritiskt tecken	
Nasal ersätter tonande klusil		Nasal ersätter målfonem i form av tonande klusil	
Tillbakadragen oral artikulation	Dentalt och alveo-dentalt artikulationsställe hos målfonemet flyttas bak till velart eller uvulart artikulationsställe		
Icke-oral		Glottal artikulation och aktiv nasal frikativa ersätter målfonemet	
	Glottal artikulation	Glottal klusil eller frikativa ersätter målfonemet	
	Nasal frikativa	Nasal frikativa ersätter målfonemet	
Uteslutning	Målfonemet utesluts		

Den sammantagna bedömningen av velofarynxfunktion (VPC-sum) bedömdes av författarna utifrån samma kriterier som Lohmander et al. (2017c). Passiva- och icke-oral artikulationsavvikelser inhämtades från de fonetiska transkriptionerna, som erhållits från ljudfiler med eliciterade ord från orddelen av SVANTE-testet. Skattningar av hypernasalitet erhöles från tre utomstående logopeders vilket beskrivs mer utförligt under tillvägagångsätt. Författarna tog fram en medianskattning av hypernasalitet utifrån

logopedernas individuella skattningar. För att beräkna VPC-sum omvandlades talvariablerna till poäng utifrån kriterierna i tabell 4.

Tabell 4

Ingående variabler för sammantagen bedömning av velofarynxfunktion som VPC-sum

Variabler	Definition	Velofarynxfunktion i form av VPC-sum		
		0 poäng	1 poäng	2 poäng
Hypemasalitet	Initialt bedömd som förekommande eller icke. Vid förekomst skattning.	Ingen förekomst	Lätt förekomst	Måttlig till kraftig förekomst
Passiva artikulations avvikelser	Nasala genomslag, velofaryngeala friktionsljud, trycksvaghet och nasal för tonande klusil.	0-2 påverkade konsonanter	3-5 påverkade konsonanter	6 eller fler påverkade konsonanter
Icke-oral artikulation	Glottal artikulation, aktiv nasal frikativa, nasal konsonant för tonlös klusil.	0-2 påverkade konsonanter	3-5 påverkade konsonanter	6 eller fler påverkade konsonanter

Den totala poängsumman beräknades till en VPC-sum som kunde variera mellan 0-6 poäng. En totalpoäng på 0-1 poäng bedömdes som kompetent velofarynxfunktion, 2-3 poäng bedömdes som marginellt inkompetent velofarynxfunktion och 4-6 poäng bedömdes som inkompetent velofarynxfunktion.

Reliabilitet

Interbedömarreliabilitet mellan de två författarna beräknades punkt för punkt på 100 % av transkriptionsmaterialet och intrabedömarreliabilitet beräknades punkt för punkt på 30 % av transkriptionsmaterialet, reliabiliteten anges i procent samstämmighet. Regler för samstämmighet för de fonetiska transkriptionerna baserades främst på Klintö et al. (2011) och Willadsen et al. (2017). Samstämmighet bedömdes som uppnådd om konsonanternas transkriberats likadant utifrån parametrarna placering och sätt. Placering bedömdes utifrån de fyra kategorierna bilabial/labiodental, interdental/dental/alveolar/postalveolar/retroflex, palatal/velar/uvular och glottal. Sätt bedömdes utifrån fem kategorier, klusiler, frikativor (inklusive lateralt s), nasaler, lateral och approximanter. Mindre oenigheter som ansågs som samstämmiga var mellan glottal klusil och glottal förstärkning, glottal klusil och uteslutet målfonem samt mellan det svenska sje-ljudet [ʃ] och tonlös palatal frikativa [ç]. Reliabilitet för transkribering av passiva artikulationsavvikelser beräknades separat, samstämmighet bedömdes utifrån närvaro eller frånvaro av passiva artikulationsavvikelser för varje transkriberat fonem. Passiva artikulationsavvikelser definierades som trycksvaghet, nasala genomslag, velofaryngeala friktionsljud och tonande klusil realiserad som nasal. Inter- och intrabedömarreliabilitet för de fonetiska transkriptionerna presenteras i tabell 5.

Passiva artikulationsavvikelser presenteras i resultatet på två sätt, som förekomst av avvikelse i enlighet med tabell 3 (≥ 3 förekomster) och som antal påverkade konsonanter i enlighet med tabell 4 (0-2, 3-5 och ≥ 6 påverkade konsonanter). Samstämmighet mellan författarna för dessa två resultat beräknades till 97,9 %.

Inter- och intrabedömarreliabilitet mellan de tre utomstående bedömarna av hypernasalitet beräknades som punkt för punkt samstämmighet i procent. En översiktlig presentation av reliabiliteten av hypernasalitetsskattningar finns i tabell 6. Samstämmighet för hypernasalitetsskattningar inom ett skalsteg beräknades mellan logopederna till mellan 93,5-96,7 % och intrabedömarreliabilitet på 100 % för alla tre logopederna.

Tabell 5

Punkt för punkt samstämmighet i procent inter- och intrabedömarreliabilitet för transkriptionsmaterialet för författare ett (F1) och författare två (F2)

	Samstämmighet i procent		
	Inter	Intra	
		F1	F2
Placering och sätt	78	92,8	93,8
Passiva avvikelser	62,4	86,4	81,9

F1=författare ett, F2=författare två

Tabell 6

Samstämmighet i procent, intra- och interbedömarreliabilitet för logoped 1, 2 och 3 vid hypernasalitetsskattning

Bedömare	1	2	3
1	100 %		
2	41,94 %	71,43 %	
3	48,39 %	51,61 %	57,14 %

Statistisk analys. Beräkningarna utfördes i SPSS version 25 för Windows. Eftersom antalet deltagare i respektive grupp var lågt samt att data inte var normalfördelad valdes det icke-parametriska Mann-Whitney U-testet för jämförelser av artikulationsförmåga, antal typer av artikulationsavvikelse, velofarynxfunktion och deltagarinformation. För jämförelser mellan grupperna avseende förekomst av avvikelser användes Chi-2 test där p-värde fastslås med Fishers Exact Test. Signifikansnivån sattes som $p < ,05$ för alla statistiska beräkningar.

Resultat

Artikulationsförmåga hos studiegruppen och kontrollgruppen redovisas och jämförs i tabell 7. Studiegruppen hade genomgående lägre medianprocent för de fyra bedömda variablerna av artikulationsförmåga jämfört med kontrollgruppen men skillnaden var inte signifikant. En jämförelse av PCC mellan studiegruppen ($Md=43.57$) och kontrollgruppen ($Md=71.98$), $z=-1.93$ visar en trend mot signifikans $p= .056$.

Tabell 7 Artikulationsförmåga redovisat i medianvärde i procent (minimum-maximum inom parantes) per grupp utifrån olika mätmetoder samt U-, z- och p-värde för jämförelser mellan grupperna

Mätmetod	Medianvärde i procent (min-max)		U-värde	z-värde	p
	Studiegrupp (N=14)	Kontrollgrupp (N=10)			
PCC	43,57 (5,36-77,97)	71,98 (24,45-87,93)	37	-1,93	,056

PCC-A	43,57	(5,36-88,14)	76,53	(27,27-89,66)	44	-1,52	,138
PCM	79,04	(21,43-100)	92,4	(70,18-98,28)	43	-1,55	,122
PCP	52,98	(16,07-86,44)	73,74	(27,27-91,38)	45	-1,46	,154

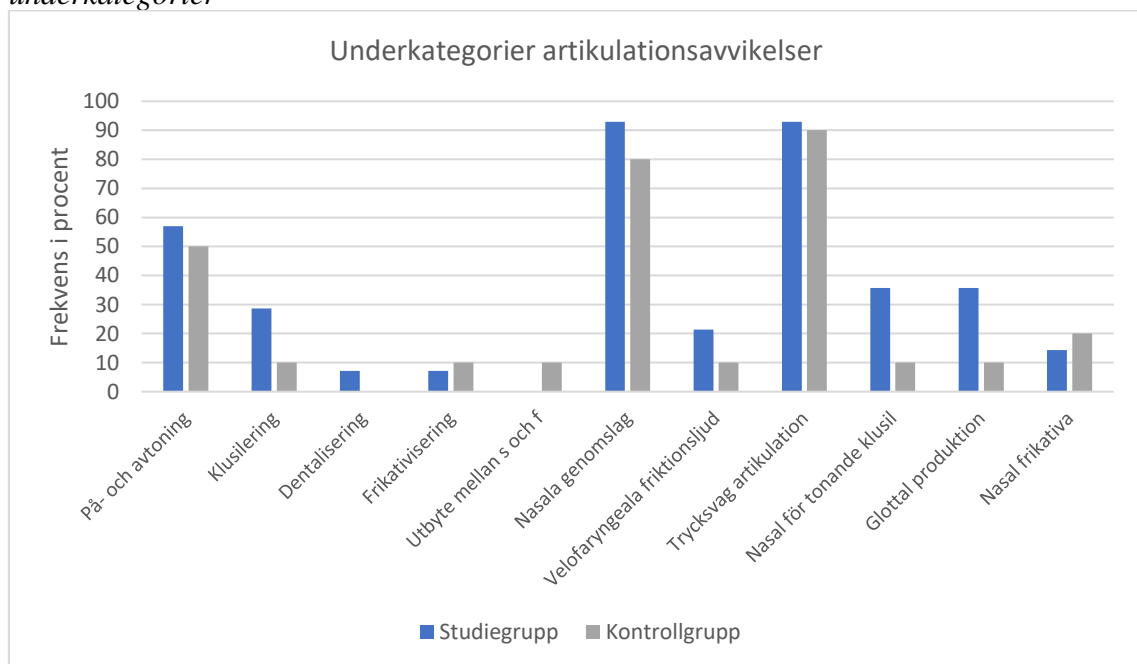
Huvudkategorier av artikulationsavvikelser presenteras deskriptivt i frekvens och jämförs på gruppnivå i tabell 8. Ingen statistisk signifikant skillnad uppmättes mellan grupperna. Samtliga deltagare hade passiva artikulationsavvikelser. Ett barn från respektive grupp uppvisade inga andra avvikelser. Två barn från respektive grupp hade förekomst av samtliga artikulationsavvikelser i huvudkategorierna.

Tabell 8 Skillnader på gruppnivå i förekomst av artikulationsavvikelser inom huvudkategorier

Huvudkategorier artikulationsavvikelser	Förekomst av avvikelse		p
	Studiegrupp (N=14)	Kontrollgrupp (N=10)	
Utvecklingsrelaterade	11	6	0,393
Passiva	14	10	
Tillbakadragen artikulation	7	7	0,421
Aktiva icke-orala	7	3	0,421
Uteslutningar	9	4	0,408

Underkategorier av artikulationsavvikelser presenteras i procent förekomst i figur 1. Skillnaderna mellan studiegruppen och kontrollgruppen var inte signifikanta.

Figur 1 Skillnader på gruppnivå i förekomst av artikulationsavvikelser inom underkategorier



Velofarynxfunktion sammantaget bedömd med VPC-sum redovisas deskriptivt i tabell 9 för båda grupperna. Ingen i studiegruppen bedömdes ha kompetent velofarynxfunktion. Ett barn från kontrollgruppen bedömdes ha en kompetent velofarynxfunktion. Ingen signifikant skillnad uppmättes mellan grupperna $z = -0,94$, $p = ,371$.

Tabell 9

Velofarynxfunktion redovisat i frekvens för SG, KG och båda grupperna tillsammans

VPC-sum	Velofarynxfunktion	Studiegrupp (N=14)	Kontrollgrupp (N=10)	Totalt (N=24)
0-1	Kompetent	0	1	1
2-3	Marginellt inkompetent	4	3	7
4-6	Inkompetent	10	6	16

Diskussion

Föreliggande studies övergripande syfte var att jämföra internationellt adopterade femåriga barn födda med BLKG med jämnåriga barn födda med BLKG som behandlats på Sahlgrenska universitetssjukhuset sedan födseln. Syftet var att undersöka om grupperna skiljde sig åt avseende artikulationsförmåga, förekomst av artikulationsavvikelser och velofarynxfunktion. Inga signifikanta skillnader framkom mellan grupperna för någon av de undersökta variablerna. Studiegruppen uppvisade genomgående lägre värden för artikulationsförmåga och hade en högre frekvens av barn med inkompetent velofarynxfunktion jämfört med kontrollgruppen. Överlag framkommer att båda grupperna hade stora svårigheter inom alla de undersökta områdena vilket kan föreslås vara i linje med tidigare forskning avseende talproduktion vid BLKG.

Artikulationsförmåga bedömdes med PCC, PCC-A, PCM och PCP. Femåriga barn utan LKG har i flertalet studier rapporterats ha medianvärden av procent korrekta konsonanter (PCC) mellan 98-100 % och femåriga barn med ULKG behandlade i Norden uppvisar medianvärden i PCC från strax under 80 % till 86 % (Lohmander et al., 2008; Klintö et al., 2014; Willadsen et al., 2017). Jämfört med detta är både studiegruppens (Md 43,6 %) och kontrollgruppens (Md 71,9 %) resultat i PCC lågt och indikerar stora svårigheter gällande artikulationsförmåga. Skillnaden mellan grupperna kan eventuellt hänvisas till studiegruppens senare slutning av mjuka och hårda gommen eller det plötsliga språkbytet. Majoriteten av studiegruppen har genomgått kirurgi avsevärt senare än kontrollgruppen vilket skulle kunna innebära en försenad fonologisk utveckling på grund av deras anatomiska förutsättningar då deras mjuka gom slutits senare än kontrollgruppens. Morgan et al. (2018) påpekar att en försening av den fonologiska utvecklingen i barnets förstaspråk kan innebära fortsatt försening i tillägnandet av andraspråket och att en felaktig inläring av språkets fonologi kan resultera i bestående artikulatoriska svårigheter. Deltagare i studiegruppen hade exponerats för svenska i genomsnitt 3:2 år (minimum-maximum 1:10-4:2), vilket teoretiskt innebär att skillnader i artikulationsförmåga baserade på enbart språkbytet sannolikt borde upphört. Willadsen et al. (2017) menar på att en slutning av hårda gommen efter tre års ålder påverkar PCC negativt medan skillnader i slutning mellan ett och tre års ålder inte påverkar i lika hög

grad. Medianålder för slutning av hårda gommen var 3:2 år i studiegruppen och i 2:7 år kontrollgruppen. Att även kontrollgruppen presterar lågt avseende PCC jämfört med barn med ULKG skulle kunna tolkas som att BLKG är en svårare typ av spalt som innebär en större påverkan avseende artikulationsförmågan.

Medianvärden i åldersanpassad procent korrekta konsonanter (PCC-A) för femåringar ger i jämförelse med PCC en uppfattning om hur åldersadekvata s-avvikelse påverkar artikulationsförmåga. Studiegruppens medianvärde påverkades inte alls men kontrollgruppens medianvärde ökade något. Det skulle kunna tyda på att kontrollgruppen har fler åldersadekvata s-avvikelse jämfört med studiegruppen, även om resultaten inte var signifikanta. Bägge gruppernas avsaknad av en tydlig skillnad mellan PCC och PCC-A kan indikera att avvikelse vid produktion av s-fonemet skiljer sig från de åldersadekvata s-avvikelse som vanligen ses hos femåringar. Klusilering, glottal produktion och tillbakaflyttning till ett velart/uvulart artikulationsställe är några avvikelse typer som förekommer generellt i båda grupperna och kan påverka även produktionen av s-fonem.

Uppmätta medianvärden för procent korrekt artikulationssätt (PCM) har i tidigare studier varierat mellan 93 % för femåriga barn med ULKG och 98,8-100 % för femåriga barn utan LKG (Klintö et al., 2011; Lohmander et al., 2008). Kontrollgruppens medianvärde på 92,4 % är i linje med resultaten för barn med ULKG. Studiegruppens medianvärde i PCM (Md 79 %) ligger avsevärt lägre men skillnaden är inte signifikant, resultatet kan återigen tyda på att studiegruppen har fler atypiska avvikelse jämfört med kontrollgruppen. Ett ändrat artikulationssätt kan uppfattas som mer avvikande än ett ändrat artikulationsställe och eventuellt leda till större svårigheter med förståelighet. Medianvärden för procent korrekt artikulationsställe (PCP) varierade mellan 84-89,9 % för femåriga barn med ULKG och mellan 98,9-100 % hos jämnåriga barn utan LKG (Klintö et al., 2011; Lohmander et al., 2008). Både studiegruppens (Md 52,9 %) och kontrollgruppens (Md 73,7 %) resultat är låga i jämförelse. Både utvecklings- och spaltrelaterade avvikelse påverkar PCP negativt och kan eventuellt orsaka de låga medianvärdena.

Någon jämförelse av PCC, PCC-A, PCM eller PCP med femåriga barn med BLKG har inte varit möjlig då inga tidigare studier undersökt femåriga barn med BLKG specifikt utifrån metoder som ger jämförbara mätvärden. Det är därför svårt att säga om deltagarna generellt har ovanligt låga värden eller om kontrollgruppen är representativ för femåriga barn med BLKG som behandlats i Sverige från födseln. Barn med BLKG har jämfört med barn med andra spalttyper generellt större svårigheter avseende artikulation och velofarynxfunktion (Riski et al., 1984, Hardin-Jones et al., 2005). Det kan möjligtvis föreslås att dessa svårigheter överskuggar de ytterligare svårigheter som en adoption kan medföra. Båda grupperna har en något sen slutning av hela gommen och stora svårigheter med artikulationsförmåga. Morgan et al. (2018) menar att velofarynxkompetens antagligen påverkar artikulationsförmågan mer än exempelvis ålder för slutning då en längre tid med inkompetent velofarynxfunktion kan innebära mer bestående artikulatoriska svårigheter. För att etablera oral produktion av klusiler med ett högt intraoralt tryck krävs tillräcklig velofarynxfunktion. Chapman et al. (2008) och Willadsen et al. (2012) menar att en tidig slutning av gommen (innan 12 månader) är fördelaktig för artikulationsförmågan och fonologisk utveckling. Det finns en stor spridning inom båda

grupperna i föreliggande studie gällande ålder vid slutning av hårda gommen och fistelslutningar. Inom studiegruppen finns också en stor spridning för adoptionsålder och exponering för svenska, ålder vid slutning av mjuka gommen och typ av primärkirurgi. Denna brist på homogenitet speglas eventuellt i den stora spridning som syns i resultaten för artikulationsförmåga hos bägge grupperna.

Vid analysen av artikulationsavvikelser framkom att båda grupperna hade en genomgående stor förekomst av avvikelser och att ingen signifikant skillnad mellan grupperna kunde uppmätas.

Högre förekomst av utvecklingsrelaterade avvikelser ses hos barn som slutit hårda gommen efter tre års ålder jämfört med de som slutit den tidigare (Klintö et al., 2016). Att fler inom studiegruppen uppvisade förekomst av utvecklingsrelaterade avvikelser skulle kunna bero på att majoriteten hade en sen slutning av hårda gommen. Båda grupperna uppvisade en högre frekvens av klusilering (28,6 % i studiegruppen och 10 % i kontrollgruppen) jämfört med <5 % förekomst hos jämnåriga barn med ULKG (Klintö et al., 2016). Den höga förekomsten av utvecklingsrelaterade avvikelser kan eventuellt härröras från en försenad fonologisk utveckling där de anatomiska förutsättningarna inte skapat möjligheter till en typisk utveckling (Morgan et al., 2018).

Passiva artikulationsavvikelser förekom hos samtliga deltagare och en hög frekvens av nasala genomslag och trycksvag artikulation noterades. I ett examensarbete (Axelsson & Jonasson, 2011) som jämförde förekomst av nasalt luftflöde (nasala genomslag, velofaryngeala friktionsljud) mellan femåriga internationellt adopterade barn med LKG och jämnåriga barn med LKG födda i Sverige var frekvensen aningen högre i gruppen av barn som adopterats, 38 % respektive 35 % förekomst. Majoriteten av deltagarna i föregående examensarbete bedömdes ha ULKG, barn med BLKG utgjorde endast 30 % av deltagarna och förekomst av avvikelser presenterades inte utifrån spalttyp. I en studie av Lohmander et al. (2008) förekom nasalt luftläckage och trycksvag artikulation hos 25 % av deltagarna med ULKG. I relation till tidigare nämnda studier uppvisar både studiegruppen och kontrollgruppen en mycket hög frekvens av passiva artikulationsavvikelser. En trolig orsak kan vara att den större spalten och avvikande anatomin hos barn med BLKG ger större risk för fistlar samt ökar svårigheter att uppnå en god velofarynxfunktion (Hopper et al., 2007; Marrinan et al., 1998; Karling et al., 1993). Det finns också en möjlighet att de oopererade käkspalterna kan ha påverkat bedömningen av passiva avvikelser. Sammantaget tyder den höga frekvensen av passiva artikulationsavvikelser på att både studiegruppen och kontrollgruppen har en hög förekomst av velofarynxinsufficiens och/eller fistlar.

Tillbakadragen oral artikulation är en artikulationsavvikelse som vanligen uppkommer hos barn som fått mjuka gommen slutet tidigt med en kvarstående restspalt i hårda gommen. Kontrollgruppen opererades i enlighet med det regionala vårdprogrammet och kan därför förväntas ha en relativt hög förekomst av tillbakadragen oral artikulation. Förekomst av fistlar efter slutning av hårda gommen kan också ge uppkomst till tillbakaflyttad artikulation, sju deltagare hade genomgått fistelslutningsoperation innan femårskontrollen. Frekvensen av tillbakadragen oral artikulation hos femåriga barn med ULKG har angetts till mellan 25-35 % (Lohmander et al., 2008; Klintö et al., 2016). Jämfört med det är 50 % (sju av 14) i studiegruppen och 75 % (sju av tio) i

kontrollgruppen en hög förekomst. Detta går i linje med Karling et al. (1993) som föreslår att barn med BLKG har en högre förekomst av tillbakadragen oral artikulation. Majoriteten av deltagarna i kontrollgruppen slöt sin restspalt i två steg och hade en medianålder över två år vid den sista restspaltslutningen, studiegruppen hade en medianålder på över tre år. Slutning av hårda gommen vid tre års ålder har visat sig vara associerat med en högre förekomst av tillbakaflyttad oral artikulation (Willadsen et al., 2017). Skillnaderna mellan grupperna i den föreliggande studien är inte signifikanta men intressanta eftersom kontrollgruppen har högre förekomst. Det kan eventuellt tyda på att kontrollgruppen haft något bättre velofarynxfunktion som inneburit en möjlighet till tillbakadragen oral artikulation. Att deltagarna i studiegruppen inte i lika hög utsträckning etablerat en tillbakadragen oral artikulation skulle kunna förklaras med att majoriteten var äldre när deras mjuka gom slöts samt att några deltagare i studiegruppen slutit mjuka och hårda gommen i ett steg.

Frekvensen av icke-oral avvikelse var något högre i studiegruppen 50 % (sju av 14) jämfört med kontrollgruppen 30 % (tre av tio). Samtliga deltagare som hade förekomst av aktiv nasal frikativa och/eller glottal artikulation bedömdes ha en inkompetent velofarynxfunktion. Frekvensen av glottal artikulation var i kontrollgruppen 10 % vilket är i linje med de studier som rapporterat siffror mellan 10-15 % för femåriga barn med ULKG (Lohmander et al., 2008; Klintö et al., 2016). För studiegruppen var frekvensen 35,7 % och kan närmast jämföras mot Axelsson & Jonasson (2011) som fann att 19 % av femåriga internationellt adopterade barn med LKG hade förekomst av glottal artikulation. Deltagarna i studiegruppen förefaller jämfört med tidigare nämnda studier uppvisa högre förekomst av glottal artikulation vilket kan ha flera tänkbara förklaringar. En möjlig orsak kan vara att samma bedömningsmetod inte användes. I den föreliggande studien räknades även glottala frikativor som glottal artikulation medan föregående examensarbete enbart godkände glottala klusiler. Även det faktum att deras studiegrupp bestod av flera olika spalttyper innebär svårigheter att jämföra resultaten.

Den högre frekvensen av glottal artikulation i studiegruppen skulle kunna förklaras av att alla deltagare (där uppgifter fanns) hade en sen slutning av mjuka gommen (minimum-maximum=1:9-3:5 år). Att inte kunna uppbringa adekvat tillstängning mellan näs- och munhålan innebär svårigheter att producera klusiler oralt och då kan i vissa fall artikulation flyttas ner till glottal nivå (Hutters et. al., 1987; Lohmander et al., 2005). Den sena slutningen av mjuka gommen kan i sin tur leda till att de därmed haft ett mindre konsantinventorium runt 18 månaders ålder vilket är indikatorer för senare glottal artikulation (Lohmander et al., 2008). Den i jämförelse tidigare slutningen av mjuka gommen i kontrollgruppen kan ha lett till ett större konsonantinventorium med mer tillbakadragen oral artikulation istället för glottal artikulation. Skillnaderna mellan grupperna var inte signifikanta.

Uteslutning av målfonem var relativt frekvent förekommande i båda grupperna, med en frekvens av 64,3 % i studiegruppen respektive 40 % i kontrollgruppen. Larsson et al. (2017) fann att treåriga adopterade barn med ULKG hade signifikant fler uteslutningar (78,6 %) jämfört med jämnåriga svenskfödda barn med ULKG (33,3 %). Klintö et al. (2016) rapporterade en förekomst av <10 % hos femåriga barn med ULKG. Jämfört med föregående studier förefaller uteslutningar vanligare hos barnen med BLKG i den aktuella studien. Uteslutningar kan anses bero på bristande velofarynxfunktion vilket kan anses

troligt då majoriteten av deltagarna med förekomst av uteslutningar bedömdes ha en inkompetent velofarynxfunktion.

Sammantaget antyder analysen av artikulationsavvikelser att alla deltagarna har stora artikulatoriska svårigheter, att studiegruppen eventuellt har något mer atypiska avvikelser och att många av svårigheterna kan relateras till en sen slutning av mjuka och hårda gommen och till en nedsatt velofarynxfunktion. Morgan et al. (2018) föreslår att en längre period av velofarynxinsufficiens kan resultera i fler och mer ihärdiga spaltrelaterade avvikelser. Barnen med BLKG har två käkspalter som vid tidpunkt för inspelningen ännu ej opererats, käkspalten rekonstrueras vanligtvis då barnet är mellan 7-9 år (Göteborgs LKG-team Sahlgrenska Universitetssjukhuset, 2011). Att ha två kvarstående käkspalter skulle till viss del kunna påverka förekomsten av passiva artikulationsavvikelser och tillbakadragen oral artikulation.

Den sammantagna bedömningen av velofarynxfunktionen med VPC-sum baserades på de ingående variablerna hypernasalitet, passiva artikulationsavvikelser och icke-oral artikulation. Hypernasalitetsbedömningen visade att 54,2 % av deltagarna i bägge grupperna (13 av 24) uppvisade måttlig till kraftig förekomst av hypernasalitet. Detta skiljer sig från studien av Lohmander et al., (2008) som rapporterat siffror motsvarande 30 % förekomst av måttlig till kraftig hypernasalitet hos 5-åringar med ULKG. Samma studie rapporterade att ca 60 % inte hade någon förekomst alls av hypernasalitet vilket står i kontrast mot våra deltagare där endast 12,5 % (en från studiegruppen och två från kontrollgruppen) inte bedömdes ha förekomst av hypernasalitet. Resultatet visar att drygt hälften av deltagarna ur båda grupperna, 66,7 % bedömdes ha en inkompetent velofarynxfunktion, endast en deltagare bedömdes ha kompetent velofarynxfunktion. Deltagarna från den aktuella studien skiljer sig mot tidigare studier som använt VPC-sum för att bedöma velofarynxfunktion (Lohmander et al., 2017c) då drygt hälften av femåriga barn med ULKG bedömdes ha en kompetent velofarynxfunktion och mellan 20-30 % bedömdes ha en inkompetent velofarynxfunktion.

Att en majoritet av deltagarna i vår studie bedöms ha en inkompetent velofarynxfunktion oavsett om de fått mjuka gommen slutet tidigt eller avsevärt senare kan eventuellt förklaras med att en BLKG innebär en större anatomisk avvikelse som är mer komplicerad att korrigera kirurgiskt med önskvärt resultat. Resultatet skiljer sig också mot Axelsson & Jonasson (2011) resultat som visade att signifikant fler av de adopterade barnen bedömdes ha inkompetent velofarynxfunktion jämfört med de svenskfödda barnen. I det föregående examensarbetet användes inte samma bedömningsmetod för bedömning av velofarynxfunktion som i den föreliggande studien. Hardin-Jones et al. (2005) föreslår att en bristande motorisk inläring kan vara en orsak till att en adekvat velofarynxfunktion inte uppnås, även efter den kirurgiska slutningen. Det kan vara svårt att bryta etablerade motoriska mönster och använda de muskler som är involverade i den velofaryngeala tillstängningen på adekvat sätt. Morgan et al. (2018) föreslår att den motoriska inläringen också kan påverkas av obehandlade hörselnedsättningar och öka risken för inkompetent velofarynxfunktion men påpekar att lite forskning finns på området. Flertalet studier konstaterar att barn med LKG som adopterats har en senare slutning av mjuka gommen och högre frekvens av velofarynxinsufficiens (Sullivan et. al., 2014; Werker et al., 2017; Morgan et al., 2018). Deltagarna i kontrollgruppen har en tidig slutning av mjuka gommen och deras hörsel har övervakats och behandlats vid behov

sedan födseln. Att samtliga förutom ett barn i kontrollgruppen bedöms ha inkompetent velofarynxfunktion samt marginellt inkompetent velofarynxfunktion blir därmed anmärkningsvärt. Inga barn i studiegruppen bedömdes ha en kompetent velofarynxfunktion vilket är lågt även när olika parametrar som kan påverka velofarynxfunktionen tagits med i bedömningen.

En av studiens svagheter är det låga antalet deltagare, vilket är problematiskt då det medför svårigheter att generalisera resultatet till en större population. Små grupper innebär också att det kan vara svårt att uppnå signifikans vid jämförelse mellan grupperna. Vissa familjer valde att inte delta i studien och orsaken till detta är okänd. Uppgifter om deltagarnas eventuella hörselnedsättning saknades vilket skulle kunna vara en möjlig orsak till deras svårigheter gällande talproduktion. Barnen med BLKG i föreliggande studie utgjorde en heterogen grupp då det förekom en stor variation för tidpunkt och typ av primärkirurgi samt andra kirurgiska ingrepp utöver det ordinarie vårdprogrammet. Sammantaget innebär gruppstorlek, okända uppgifter avseende deltagarna, ålder vid inspelning och deras heterogenitet att möjligheterna till generaliserbara resultat begränsades.

Författarna både editerade och transkriberade ljudfilerna vilket kan ha äventyrat blindningen. Interbedömarreliabiliteten för de fonetiska transkriptionerna av passiva artikulationsavvikelser visade sig vara låg i jämförelse med andra studier som rapporterat interbedömarreliabilitet över 80 % (Klintö et al., 2011; Klintö et al., 2017). En eventuellt bakomliggande orsak till den låga reliabiliteten kan vara otillräcklig träning av transkription av passiva artikulationsavvikelser, både i samträning, handledning och diskussion kring användning av symboler och diakritiska tecken. Träning av transkription skedde med ljudfiler från barn med ULKG och innehöll sannolikt färre passiva avvikelser jämfört med ljudfilerna från deltagarna i studien. Deltagarna i studien hade många typer av avvikelser i talet, ofta samtidigt, vilket sammantaget kan ha påverkat författarna och lett till att passiva artikulationsavvikelser inte alltid uppfattades korrekt. Tröskelvärden för förekomst av passiva artikulationsavvikelser samt poäng för antalet påverkade konsonanter i VPC-sum överstegs kraftigt av nästan alla deltagare. Hypernasalitet är erkänt svårbedömt, vilket också framkom i reliabilitetsberäkningarna för bedömning av hypernasalitet. Den exakta samstämmigheten var oftast låg men skattningarna var oftast inom ett angränsande skalsteg, vilket tyder på att bedömningarna ändå var ganska lika. Förhoppningsvis har den sammantagna bedömningen av velofarynxfunktion med VPC-sum istället för enbart skattning av hypernasalitet eller förekomst av passiva artikulationsavvikelser kompenserat för svårigheter att bedöma hypernasalitet och transkribering av passiva artikulationsavvikelser.

Föreliggande studie har undersökt talproduktion endast utifrån isolerade ord. Utifrån tidigare studier som konstaterat att barn med LKG ofta presterar bättre i benämning av enstaka ord jämfört med meningar (Klintö et al., 2011) är det troligt att barnen i föreliggande studie har en ännu större påverkan avseende förståelighet än vad som framkommit. Det kan anses möjligt att föreliggande studie inte lyckats fånga upp eller mäta eventuella skillnader mellan grupperna som skulle kunna vara följden av försenad primärkirurgi och ett snabbt språkbyte.

För deltagarna i kontrollgruppen fanns kännedom om att de behandlats sedan födseln och därmed haft kontakt med logoped som kunnat erbjuda stöttning och strategier till föräldrar att språkligt stimulera sina barn. Det är möjligt att de adopterade barnen inte fått samma typ av språklig stimulans då detta kanske kan skilja sig åt för barn som bor på en institution eller hos en fosterfamilj. Även det faktum att barnen genomgått ett språkbyte kan i kombination med deras fysiologiska avvikelser ha inneburit möjliga negativa effekter som till viss del kanske kan förklara deras genomgående lägre resultat. Det förekommer stora svårigheter för deltagarna inom båda grupperna i föreliggande studie i jämförelse med resultat för barn med ULKG. Det förefaller troligt att dessa svårigheter även skulle kunna innebära språklig försening som därmed ytterligare ökar risken för bestående svårigheter. Chapman (2011) fann exempelvis att barn med LKG skiljer sig mot barn utan spalt avseende förmågor relaterade till tidig läsinlärning och barn med flest artikulatoriska svårigheter även presterade lägst gällande läsförmåga. Detta är oroväckande med tanke på att barnen i båda grupperna snart ska påbörja sin läs- och skrivinlärning där de riskerar att hamna efter sina jämnåriga utan LKG i ytterligare en färdighet förutom talproduktionen.

I den aktuella studien har talproduktion och velofarynxfunktion undersökts i två grupper barn med BLKG där båda grupperna uppvisade stora artikulatoriska svårigheter, en hög förekomst av artikulatoriska avvikelser och kraftigt nedsatt velofarynxfunktion. Ingen signifikant skillnad mellan grupperna kunde konstateras, det är därför svårt att avgöra om och hur en sen gomslutning och ett snabbt språkbyte kan ha påverkat studiegruppen. En trend mot signifikans förekom för andel korrekta konsonanter då studiegruppens resultat var avsevärt lägre. Detta låg i linje med tidigare forskning som har konstaterat att adopterade barn med LKG till större del har nedsatt artikulationsförmåga jämfört med de barn som behandlats i hemlandet sedan födseln. Avsaknaden av statistiskt signifikanta skillnader mellan grupperna avseende de bedömda variablerna kan anses beaktansvärt då kontrollgruppen behandlats i enlighet med det regionala vårdprogrammet sedan födseln. I dagsläget innebär det svårigheter att jämföra studiegruppen mot kontrollgruppen då det är svårt att veta om kontrollgruppen är representativ för populationen barn med BLKG. Majoriteten av den forskning som utvärderar behandlingsmetoder för barn med LKG har tills nu fokuserat på barn med ULKG. Då båda grupperna i föreliggande studie förefaller ha större påverkan avseende talproduktion och velofarynxfunktion jämfört med studier som undersökt samma variabler hos barn med ULKG framkommer ett behov av att ytterligare utvärdera behandlingsmetoderna för barn med BLKG. En adekvat velofarynxfunktion är en förutsättning för artikulationsförmågan och majoriteten av deltagarna från båda grupperna bedömdes ha en inkompetent velofarynxfunktion vid fem års ålder. Longitudinella studier efterfrågas för att undersöka om de skillnader som framkommit i föreliggande studie fortfarande består eller minskar med tiden. Det vore även önskvärt att i framtida forskning undersöka möjlighet till aktivitet och delaktighet hos barn med BLKG. Även undersökning av variabeln förståelighet efterfrågas. Ytterligare forskning efterfrågas därför för att identifiera kliniska implikationer för både internationellt adopterade barn med BLKG specifikt och även generellt för populationen barn med BLKG.

Referenser

- Axelsson, Jessica, & Jonasson, Åsa. (2011). *Talet Hos Femåriga Barn Med Läpp-käk-gomspalt: En Jämförelse Mellan Internationellt Adopterade Barn Och Svenskfödda Barn.*(Magisteruppsats) Göteborg: Institutionen för neurovetenskap och fysiologi, Göteborgs universitet. Tillgänglig:<https://gupea.ub.gu.se/handle/2077/26925>
- Ball, M. J., Howard, S & Miller, K. (2017). Revisions to the extIPA chart. *Journal of the International Phonetic Association*, 1-10. doi: 10.1017/S0025100317000147
- 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. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 44(1), 33-44. doi: 10.1597/05-164
- Chapman, K. (2011). The Relationship between Early Reading Skills and Speech and Language Performance in Young Children with Cleft Lip and Palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 48(3), 301-311. doi: 10.1597/08-213
- Chapman, K., Hardin-Jones, M., Goldstein, J., Halter, K., Havlik, R., & Schulte, J. (2008). Timing of palatal surgery and speech outcome. *The Cleft Palate-craniofacial Journal: Official Publication of the American Cleft Palate-Craniofacial Association*, 45(3), 297-308. doi: 10.1597/06-244
- Chapman, K. L., & Willadsen, E. (2013). The Development of Speech in Children with Cleft Palate. I Howard, S., & Lohmander, A. (Red.), *Cleft Palate Speech: Assessment and Intervention* (s. 23-40). West Sussex: Wiley Blackwell
- Flynn, Möller, Jönsson, & Lohmander. (2009). The high prevalence of otitis media with effusion in children with cleft lip and palate as compared to children without clefts. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 73(10), 1441-1446. doi: 10.1016/j.ijporl.2009.07.015
- 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. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 49(6), 649-656. <https://doi.org/10.1597/10-252>
- Friede, H., Lilja, J., & Lohmander, A. (2013). Two-stage palatal surgery with early veloplasty and delayed hard palate repair: A balanced view on speech and midfacial growth outcome. I S. Berkowitz (Red.), *Cleft Lip and Palate: Diagnosis and Management* (s. 413-437). Berlin: Springer.
- Glennen, S. (2005). New Arrivals: Speech and Language Assessment for Internationally Adopted Infants and Toddlers within the First Months Home. *Seminars In Speech And Language*, 26(01), 10-21. doi: 10.1055/s-2005-864212
- Glennen, S. (2014). A longitudinal study of language and speech in children who were internationally adopted at different ages. *Language, Speech, and Hearing Services in Schools*, 45(3), 185-203. doi: 10.1044/2014_LSHSS-13-0035
- Gravgaard, K. (2016). *A Comparative Study of the Surgical Outcome of Internationally Adopted versus Swedish Born Children with Cleft Lip And/or Palate.*(Master's thesis) Göteborg:Institutionen för medicin, Göteborgs universitet. Tillgänglig: <https://gupea.ub.gu.se/handle/2077/45219>
- Göteborgs LKG-team Sahlgrenska Universitetssjukhuset. (2011). *Läpp-Käk-Gomspalt: Regionalt vårdprogram Västra Götalandsregionen Sahlgrenska Universitetssjukhuset.* Opublicerat manuskript
- Hagberg, C., Larson, O., & Milerad, J. (1998). Incidence of cleft lip and palate and risks of additional malformations. *The Cleft Palate-craniofacial Journal : Official*

- Publication of the American Cleft Palate-Craniofacial Association*, 35(1), 40-5. doi: 10.1597/1545-1569_1998_035_0040_ioclap_2.3.co_2
- Hansson, Emma, Svensson, Henry, & Becker, Magnus. (2012). Adopted children with cleft lip or palate, or both, require special needs cleft surgery. *Journal Of Plastic Surgery And Hand Surgery*, 46(2), 75-79. doi: 10.3109/2000656X.2012.668774
- Harding, A. and Grunwell, P. (1998), Active versus passive cleft-type speech characteristics. *International Journal of Language & Communication Disorders*, 33: 329–352. doi:10.1080/136828298247776
- Hardin-Jones, M., & Jones, D. (2005). Speech Production of Preschoolers with Cleft Palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 42(1), 7-13. doi: 10.1597/03-134.1
- 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*, 2008, Vol.42(4), P.182-189, 42(4), 182-189. doi:10.1080/02844310802055102
- Henningsson, G., Kuehn, D., Sell, D., Sweeney, T., Trost-Cardamone, J., & Whitehill, T. (2008). Universal Parameters for Reporting Speech Outcomes in Individuals with Cleft Palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 45(1), 1-17. doi: 10.1597/06-086.1
- Hopper, R.A. Cutting, C & Grayson, B (2007). Cleft Lip and Palate. In CH.Thorne, RW. Beasley, SJ. Aston, SP. Bartlett, GC. Gurtner, SL. Spear (Ed.), *Grabb and Smith's Plastic Surgery, 6th Edition* (s. 203-208x). Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins
- Hutters, B., & Brøndsted, K. (1987). Strategies in cleft palate speech--with special reference to Danish. *The Cleft Palate Journal*, 24(2), 126-36.
- Hutters, B, & Henningsson, G. (2004). Speech outcome following treatment in cross-linguistic cleft palate studies: Methodological implications. *Cleft Palate-Craniofacial Journal : Official Publication Of The American Cleft Palate-Craniofacial Association*, 41(5), 544-549. doi: 10.1597/02-164.1
- Karling, J., Larson, O., Leanderson, R., & Henningsson, G. (1993). Speech in unilateral and bilateral cleft palate patients from Stockholm. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 30(1), 73-77. doi: 10.1597/1545-1569_1993_030_0073_siuabc_2.3.co_2
- Klintö, K., & Lohmander, A. (2017). Phonology in Swedish-speaking 3-year-olds born with unilateral cleft lip and palate treated with palatal closure in one or two stages. *Journal of Plastic Surgery and Hand Surgery*, 51(2), 112-117. doi: 10.1080/2000656X.2016.1194280
- Klintö, K., Salameh, E.-K., Svensson, H. and 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: 348–360. doi:10.3109/13682822.2010.507615
- Klintö, K., Salameh, E., & 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. doi: 10.3109/17549507.2015.1081287
- Klintö, K., Svensson, H., Elander, A., & Lohmander, A. (2014). Speech and Phonology in Swedish-Speaking 3-Year-Olds with Unilateral Complete Cleft Lip and Palate following Different Methods for Primary Palatal Surgery. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 51(3), 274-282. doi: 10.1597/12-299
- Larsson, A., Schölin, J., Mark, H., Jönsson, R., & Persson, C. (2017). Speech production in 3-year-old internationally adopted children with unilateral cleft lip and palate.

- International Journal of Language & Communication Disorders*, 52(5), 626-636. doi: 10.1111/1460-6984.12307
- Lee, A., Whitehill, T., & Ciocca, V. (2009). Effect of listener training on perceptual judgement of hypernasality. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 23(5), 319-334. doi: 10.1080/02699200802688596
- Lohmander, A., Borell, E., Henningsson, G., Havstam, C., Lundeborg & Persson, C. (2005). *SVANTE - SVenskt Artikulations och Nasalitets TEst. Manual*. Malmö: 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. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 49(6), 657-671. <https://doi.org/10.1597/11-085>
- Lohmander, A., Hagberg, E., Persson, C., Willadsen, E., Lundeborg, I., Davies, J., ... Nyberg, J. (2017a). Validity of auditory perceptual assessment of velopharyngeal function and dysfunction – the VPC-Sum and the VPC-Rate. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 31(7-9), 589-597. doi: 10.1080/02699206.2017.1302510
- Lohmander, A., Lundeborg, I., & Persson, C. (2017b). 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. doi: 10.1080/02699206.2016.1205666
- 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., Persson, C., Willadsen, E., Lundeborg, I., Alaluusua, S., Aukner, R., ... Semb, G. (2017c). Scandleft 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. doi:10.1080/2000656X.2016.1254645
- Lohmander, A., Willadsen, E., Persson, C., Henningsson, G., Bowden, M., & Hutters, B. (2009). Methodology for Speech Assessment in the Scandleft Project-An International Randomized Clinical Trial on Palatal Surgery: Experiences From a Pilot Study. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 46(4), 347-362. doi:10.1597/08-039.1
- Marrinan, E., Labrie, R., & Mulliken, J. (1998). Velopharyngeal function in nonsyndromic cleft palate: Relevance of surgical technique, age at repair, and cleft type. *The Cleft Palate-craniofacial Journal : Official Publication of the American Cleft Palate-Craniofacial Association*, 35(2), 95-100. doi: 10.1597/1545-1569_1998_035_0095_vfincp_2.3.co_2
- Morgan, A., O'Gara, M., Bellucci, C., Linde, S., Albert, M., Curtis, A., . . . Kapp-Simon, K. (2018). Speech Production Skills in Children With Cleft Palate Who Were Internationally Adopted. *The Cleft Palate-craniofacial Journal : Official Publication of the American Cleft Palate-Craniofacial Association*, 1055665618765780. doi: 10.1177/1055665618765780
- 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. doi:10.1016/S0140-6736(09)60695-4
- Peterson-Falzone, S. J. (2013). Optimal age for palatoplasty to facilitate normal speech development: What is the evidence? In S. Berkowitz (Ed.) *Cleft Lip and Palate: Diagnosis and Management* (pp. 787-802). Springer-Verlag Berlin Heidelberg.

- Riski, J., & DeLong, E. (1984). Articulation development in children with cleft lip/palate. *The Cleft Palate Journal*, 21(2), 57-64.
- Sahlgrenska Universitetssjukhuset. (2017). Läpp-käk-gomspalt (LKG). Hämtad 2017-11-02, från <https://www.sahlgrenska.se/w/1/lapp-kak-gomspalt-lkg/>
- Shaffer, A., Ford, M., Choi, S., & Jabbour, N. (2017). The Impact of Tympanostomy Tubes on Speech and Language Development in Children with Cleft Palate. *Otolaryngology-Head and Neck Surgery*, 157(3), 504-514. doi:10.1177/0194599817703926
- Shriberg, L., & Kwiatkowski, J. (1982). Phonological Disorders III: A Procedure for Assessing Severity of Involvement. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 47(3), 256-270
- Shriberg, L. D., 1993, Four new speech and prosody-voice measures for genetics research and other studies in developmental phonological disorders. *Journal of Speech and Hearing Research*, 36(1), 105–140.
- Socialstyrelsen. (2004). *Förekomsten av medfödda missbildningar i Sverige En utvärdering av Missbildningsregistrets kvalitet*. Stockholm: Epidemiologiskt centrum Socialstyrelsen
- Sullivan, S. R., Jung, Y. B., & Mulliken, J. (2014). Outcomes of Cleft Palatal Repair for Internationally Adopted Children. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 133(6), 1445-1452. doi:10.1097/PRS.0000000000000224
- Swanson, J. W., Smartt, J. M., Saltzman, B. S., Birgfeld, C. B., Hopper, R. A., Gruss, J., & Tse, R. (2014). Adopted Children with Cleft Lip and/or Palate: A Unique and Growing Population. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 134(2), 283e-293e. doi:10.1097/PRS.0000000000000391
- Van Lierde, K., De Bodt, M., Van Borsel, J., Wuyts, F., & 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.ezproxy.ub.gu.se/10.1159/000063411>
- Watterson, Lewis, Allord, Sulprizio, & O’neill. (2007). Effect of vowel type on reliability of nasality ratings. *Journal of Communication Disorders*, 40(6), 503-512. <https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2007.02.002>
- Werker, C., De Wilde, H., Mink van Der Molen, A., & Breugem, C. (2017). Internationally adopted children with cleft lip and/or palate: A retrospective cohort study. *Journal of Plastic, Reconstructive & Aesthetic Surgery*, Journal of Plastic, Reconstructive & Aesthetic Surgery, 4/2017. <https://doi.org/10.1016/j.bjps.2017.04.011>
- Willadsen, E. (2012). Influence of timing of hard palate repair in a two-stage procedure on early speech development in Danish children with cleft palate. *The Cleft Palate-craniofacial Journal : Official Publication of the American Cleft Palate-Craniofacial Association*, 49(5), 574-95. <https://doi-org.ezproxy.ub.gu.se/10.1597/09-120>
- Willadsen, E., Lohmander, A., Persson, C., Lundeborg, I., Alaluusua, S., Aukner, R., . . . 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. doi:10.1080/2000656X.2016.1254647

