



# De voordelen van logopedie bij personen geboren met een gespleten lip en/of gehemelte?

### Referentie

Sand A, Hagberg E, Lohmander A. On the benefits of speech-language therapy for individuals born with cleft palate: a systematic review and meta-analysis of individual participant data. *J Speech Lang Hear Res* 2022;65:555-73. DOI: 10.1044/2021\_JSLHR-21-00367

### Duiding

Chloé Tonon, logopède  
Geen belangenvermenging met het onderwerp.

## Klinische vraag

Is logopedie werkzaam bij patiënten die geboren zijn met een gespleten lip en/of gehemelte? Bereiken ze hiermee een vergelijkbaar spraakniveau als hun leeftijdsgenoten?

## Achtergrond

Een gespleten lip en/of gehemelte komt voor bij ongeveer één op de 700 geboorten (1). Kinderen met een gespleten lip en/of gehemelte lopen een groot risico van spraak- en/of taalproblemen of -achterstand, vooral op het gebied van klankvorming, articulatie, resonantie en expressief taalgebruik. De helft van de kinderen die reconstructieve heelkunde ondergingen ervaren nog steeds spraakproblemen na de leeftijd van 5 jaar. Regelmatige follow-up door een multidisciplinair team wordt daarom aanbevolen minstens tot de adolescentie, en vooral om de spraakontwikkeling op te volgen (2,3). Een systematische review van 2011 kwam tot het besluit dat de expressieve taalvaardigheid bij kinderen met een gespleten lip en/of gehemelte verbeterde na een vroegtijdige taalinterventie (4). Ook andere studies toonden een verbetering in spraak en taal na spraak- en taaltherapie maar wegens de variabiliteit in effectgrootte is het moeilijk om algemene conclusies te trekken (5). Het voornaamste doel van deze systematische review met meta-analyse was de werkzaamheid van spraak- en taaltherapie te onderzoeken bij personen die geboren zijn met een gespleten lip en/of gehemelte op basis van individuele gegevens van de deelnemers. De interventiestudies waarvan de individuele gegevens van de deelnemers niet beschikbaar waren werden in tweede instantie narratief samengevat (6).

## Samenvatting

### Methodologie

Systematische review met meta-analyses.

### Geraadpleegde bronnen

- Medline, Embase, Cochrane, Web of Science, PsycInfo en CINAHL.

### Geselecteerde studies

- inclusiecriteria:
  - de studie moest (a) een conventionele logopedische interventie onderzoeken; (b) een uitkomst meten met betrekking tot spraakproductie, taalvermogen, verstaanbaarheid of PRO's (patiëntgerapporteerde uitkomsten); en (c) in het Engels geschreven zijn
  - geen restrictie qua type artikel (ook proefschriften, dissertaties, enzovoort)
  - geen restrictie qua publicatiejaar of taal
- exclusiecriteria:

- studies die het gebruik van een stemprothese, continue luchtdruk en een aerodynamische behandeling behandelen
- kinderen geboren met een syndroom geassocieerd met een genetische aandoening
- in totaal includeerde men 34 studies die tussen 1986 en 2020 werden uitgevoerd; 21 studies onderzochten individuele gegevens en voor 13 studies hadden de auteurs geen toegang tot individuele gegevens.

### *Bestudeerde populatie*

- inclusiecriteria
  - geboren met een gespleten lip en/of gehemelte
  - minder goede resultaten dan hun leeftijdsgenoten voor de interventie
- exclusiecriteria
  - malformaties of geassocieerde syndromen
  - velofaryngeale disfuncties niet gerelateerd aan een gespleten lip of gehemelte
  - ouder dan 20 jaar (na het verkrijgen van de gegevens van de deelnemers)
- de auteurs rapporteerden het aantal geïncludeerde patiënten niet; volgens de beschikbare cijfers zouden in totaal 823 patiënten geïncludeerd zijn; we weten echter niet of een patiënt naargelang de onderzochte uitkomstmaten in 2 verschillende groepen was opgenomen.

### **Uitkomstmeting**

- primaire uitkomstmaten:
  - aandeel patiënten met een klinisch relevante verbetering van de spraakproductie
  - aandeel patiënten met een spraakproductie die na de logopedische behandeling op hetzelfde niveau is als die van hun leeftijdsgenoten
- secundaire uitkomstmaten:
  - meting van de spraakproductie: articulatie van de medeklinkers, medeklinkerfouten en articulatorische compensaties
  - meting van de expressie: inventaris van de medeklinkers en andere metingen met betrekking tot fonologie, woordenschat, complexiteit van de zinnen en grammatica
  - meting van de verstaanbaarheid: verstaanbaarheid beoordeeld door verzorgers en therapeuten
  - meting van patiëntgerapporteerde uitkomstmaten (PRO's): deelname aan communicatie en kwaliteit van leven, gerapporteerd door de patiënt of zijn verzorgers
- in beide analyses (met of zonder individuele patiëntgegevens) onderzochten de auteurs met behulp van mixed-effects logistische regressies in welke mate individuele factoren en details van de interventie de spreiding in het effect van de interventie konden verklaren
- voor de secundaire uitkomstmaten wordt de voorkeur gegeven aan een narratieve beschrijving van de resultaten.

### **Resultaten**

- aandeel patiënten met klinisch relevante verbetering op het vlak van spraakproductie (N=19 ; n=343):
  - naargelang de details van de interventie en de studieopzet, verbeterde gemiddeld 75% (met 95% BI van 61% tot 87%) van de personen tijdens de logopedische behandeling
    - de resultaten tonen dat 100% van de kinderen jonger dan 6 jaar verbeterde, tegenover slechts 40% van de kinderen ouder dan 14 jaar
    - de resultaten tonen een kleiner voordeel voor patiënten met een dubbel gespleten gehemelte, maar er is grote onzekerheid over de effectgrootte
- spraakproductie na logopedische behandeling (N=5 ; n=53):
  - gemiddeld zou slechts 21% (met een 95% BI van 10% tot 34%) van de personen na logopedie hetzelfde niveau van spraakproductie bereiken als hun leeftijdsgenoten
    - leeftijd was geen factor die de resultaten beïnvloedde

- kinderen met meer beperkte misvormingen hadden meer kans om hetzelfde niveau van spraakproductie te bereiken als hun leeftijdsgenoten (n=35)
- de duur van de interventie zou eveneens de resultaten verbeteren
- de auteurs geven toe zeer weinig informatie te hebben gevonden voor de secundaire uitkomstmaten inzake verstaanbaarheid (N=8; n=52), spraakproductie, expressieve aspecten en patiëntgerapporteerde uitkomsten (N=1 ; n=15).

### **Besluit van de auteurs**

De auteurs concluderen dat de belangrijkste troef van deze meta-analyse erin bestaat dat men op individueel niveau klinisch relevante pre- en post-interventiegegevens evalueerde en rekening hield met de klinische relevantie. Deze aanpak draagt bij tot het besluit dat heel wat personen baat zullen hebben met spraak- en taaltherapie en dat een verdere evaluatie van spraak- en taaltherapie in deze patiëntengroep noodzakelijk is.

### **Financiering van de studie**

Niet vermeld.

## **Bespreking**

### **Beoordeling van de methodologie**

De auteurs van deze systematische review geven blijk van methodologische nauwkeurigheid. De doelstellingen zijn duidelijk geformuleerd en de inclusiecriteria zijn gerapporteerd, evenals de kenmerken van de in de review geïncludeerde studies. De auteurs raadpleegden 6 databanken en gebruikten de ‘PRISMA IPD’-checklist. Hun studieprotocol werd in 2019 geregistreerd in de PROSPERO-databank. Daarnaast werden twee studies geselecteerd met behulp van Rayyan (7). Rayyan is een web- en mobiele app voor systematische reviews. Artikels werden onafhankelijk beoordeeld door twee auteurs; een derde auteur kwam tussenbeide in geval van onenigheid. De auteurs gebruikten de ROBINS-I-tool om het risico van bias in de onderzochte studies te beoordelen. Ze gebruikten twee categorieën van risicobeoordeling: *confounding bias* en *outcome measure bias*. Er zijn echter enkele methodologische tekortkomingen. Zo wordt de zoekstrategie onvoldoende gedetailleerd beschreven waardoor ze niet kan gereproduceerd worden. Omdat men zich voor de resultaten baseerde op de gerapporteerde gegevens in de geïncludeerde studies, hadden de auteurs weinig kennis over de details van de interventies noch over de gebruikte meetinstrumenten. Het was overigens evenmin mogelijk om formele criteria te objectiveren voor een klinisch relevante verbetering of voor uitkomstmaten voor leeftijdsgenoten. Tot slot beschouwde men het risico van bias in de meeste primaire studies als ernstig omdat de beoordelaars op de hoogte waren van de behandelstatus van de patiënten. Daarenboven vertoonden de resultaten van heel wat van de in de meta-analyse opgenomen primaire studies een aanzienlijk risico van bias, vooral voor wat betreft individuele evaluaties. Het is bijgevolg mogelijk dat de voordelen van spraak- en taaltherapie in deze review zijn overschat, met name in de jongere leeftijdsgroepen. Ondanks het grote risico van bias in de studies met mogelijke invloed op de betrouwbaarheid van de waargenomen resultaten, en ondanks de onnauwkeurigheden in veel studies en het gebrek aan consistentie in de implementatie van therapieën tussen de geïncludeerde studies, is deze systematische review vanuit methodologisch oogpunt goed uitgevoerd.

### **Beoordeling van de resultaten**

Er is grote heterogeniteit tussen de studies qua setting, interventieparameters en patiëntengroepen. Sommige studies includeerden bijvoorbeeld alleen kinderen met ernstige articulatieproblemen. Het is dus niet denkbeeldig dat in vergelijking met andere studies deze kinderen minder kans hadden om een vergelijkbare spraakproductie te bekomen als hun leeftijdsgenoten. Bovendien zien we een aanzienlijke variabiliteit qua leeftijd van de deelnemers. De meeste studies rapporteerden het gebruikte revalidatieprotocol niet, noch de frequentie en de duur van de behandeling. Het is daarom moeilijk om op basis van deze studie te bepalen welke logopedieparameters de beste resultaten

opleveren voor patiënten. Er werd nooit vergeleken met placebogroepen. We kunnen dus niet nagaan welke verbeteringen te danken waren aan logopedie op zich. Gezien de multidisciplinaire follow-up van kinderen met een gespleten lip en/of gehemelte vanaf hun geboorte, gebeurt het echter zelden dat kinderen geen behandeling krijgen. Vanuit klinisch oogpunt lijkt een spontaan postoperatief herstel bovendien onwaarschijnlijk. Daarnaast vonden de auteurs weinig literatuur over de impact van logopedie op taalvaardigheid, verstaanbaarheid en patiëntgerapporteerde uitkomsten (PRO's). Dat wordt door de auteurs zelf als problematisch beschouwd, vermits de behandeling net tot doel heeft om de communicatie en actieve deelname aan het dagelijkse leven te verbeteren. Om de werkzaamheid van logopedie te beoordelen, zijn valide ecologische metingen van de verstaanbaarheid, communicatieve attitudes en communicatieve participatie in alledaagse contexten nodig. Ondanks al deze tekortkomingen concluderen de auteurs dat logopedie positieve effecten lijkt te hebben bij heel wat, zo niet de meeste patiënten die logopedie krijgen. Ook al kan men de therapieparameters die garant staan voor de beste resultaten niet identificeren.

We moeten opmerken dat in ons huidige gezondheidszorgsysteem logopedie nu reeds wordt aangeboden bij een gespleten lip en/of gehemelte als behandeling voor een eventuele velofaryngeale insufficiëntie door de misvorming. Kinderen worden doorgaans gevolgd door een multidisciplinair team in een centrum voor schisis en hebben recht op terugbetaling van de logopediesessies tot de leeftijd van 19 jaar.

### **Wat zeggen de richtlijnen voor de klinische praktijk?**

De klinische praktijkrichtlijn van het Royal College of Speech & Language Therapists van 2005 benadrukt dat een vroegtijdige interventie helpt om de ontwikkeling van atypische spraakpatronen bij het brabbelen en de vroege spraak te voorkomen (8). Tot 60% van de kinderen met een gespleten gehemelte heeft logopedie nodig tijdens de spraakverwerving. Intensieve therapie wordt eveneens aanbevolen om nieuwe articulatiebewegingen te leren en de precisie van medeklinkers te verbeteren. Een andere klinische praktijkrichtlijn uit 2018 beklemtoont het belang van logopedie vóór secundaire chirurgie van gespleten lip en/of gehemelte (2). Ten slotte beveelt de klinische praktijkgids van ASHA (American Speech-Language-Hearing Association) van 2015 een uitgebreide beoordeling aan op maat van elk individu, met behandeling van de articulatie, de fonologie of beide. Het doel van de behandeling is om de normale of zelfs een aangepaste articulatie te herstellen (9).

## **Besluit van Minerva**

Deze systematische review met meta-analyse besluit dat na logopedie bij 75% van de personen met een gespleten lip en/of gehemelte de spraak verbetert. Deze systematische review heeft echter een aantal beperkingen, waaronder een significante heterogeniteit tussen de studies, kleine steekproefgroottes, gebrekkige methodologische nauwkeurigheid van de geïncludeerde studies en een matig tot ernstig risico van bias, afhankelijk van de studie. De resultaten moeten daarom met voorzichtigheid worden geïnterpreteerd. Toekomstige klinische studies met een grotere steekproefgrootte en een betere methodologische kwaliteit zijn nodig.

### **Referenties**

1. Mossey PA, Modell B. Epidemiology of oral clefts 2012: an international perspective. *Front Oral Biol* 2012;16:1-18. DOI: 10.1159/000337464
2. Parameters for evaluation and treatment of patients with cleft lip/palate or other craniofacial differences. *Cleft Palate Craniofac J* 2018;55:137-56. DOI: 10.1177/1055665617739564
3. Pocket book of hospital care for children: guidelines for the management of common childhood illnesses. 2nd ed. World Health Organization; 2013.
4. Meinus M, Romonath R. Early language intervention for children with cleft lip and/or palate : a systematic review. *Evid Based Commun Assess Interv* 2011;5:197-215. DOI: 10.1080/17489539.2012.678093

5. Bessell A, Sell D, Whiting P, et al. Speech and language therapy interventions for children with cleft palate: a systematic review. *Cleft Palate Craniofac J* 2013;50:e1-e17. DOI: 10.1597/11-202
6. Sand A, Hagberg E, Lohmander A. On the benefits of speech-language therapy for individuals born with cleft palate: a systematic review and meta-analysis of individual participant data. *J Speech Lang Hear Res* 2022;65:555-73. DOI: 10.1044/2021\_JSLHR-21-00367
7. Ouzzani M, Hammady H, Fedorowicz Z, Elmagarmid A. Rayyan - a web and mobile app for systematic reviews. *Syst Rev* 2016;5:210. DOI: 10.1186/s13643-016-0384-4
8. Royal College of Speech & Language Therapists: Clinical guidelines. 2nd ed. Routledge; 2005.
9. American Speech-Language-Hearing Association (n.d.) Speech-language pathology medical review guidelines. (Practice Portal). Retrieved March 21, 2024, from <https://www.asha.org/practice/reimbursement/SLP-medical-review-guidelines/>