



SAHLGRENSKA AKADEMIN

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

355

Undersökning av tal och självupplevd kommunikativ förmåga hos unga vuxna födda med isolerad gomspalt

Therese Andersson
Karin Eriksson

Examensarbete i logopedi,
30 högskolepoäng
Vårterminen 2021

Handledare
Christina Persson
AnnaKarin Larsson

Undersökning av tal och självupplevd kommunikativ förmåga hos unga vuxna födda med isolerad gomspalt

Therese Andersson
Karin Eriksson

Sammanfattning. Föreliggande studie undersökte talet och den självupplevda kommunikativa förmågan hos 40 unga vuxna födda med isolerad gomspalt jämfört med en kontrollgrupp bestående av 41 unga vuxna födda utan spalt. Skillnader avseende talet undersöktes även inom gruppen med isolerad gomspalt beroende på spaltstorlek och förekomst av syndrom/ytterligare medfödda avvikelser. Artikulation bedömdes med SVenskt Artikulations- och Nasalitets-TEst genom fonetisk transkription, velofarynxfunktion skattades av logopederna på en tregradig skala. Förståelighet bedömdes genom ortografisk transkription med SWedish INtelligibility Test, nasalansvärden mättes med Nasometer och självupplevd kommunikativ förmåga skattades med Självsvarsformulär Om Kommunikation. Unga vuxna födda med isolerad gomspalt hade en signifikant sämre artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet men en positivare upplevelse av sitt eget tal jämfört med kontrollgruppen. Syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser tenderade att ha en negativ inverkan på talet. Ytterligare forskning som undersöker talet hos unga vuxna födda med isolerad gomspalt behövs.

Nyckelord: isolerad gomspalt, velofarynxfunktion, artikulation, förståelighet, syndrom

Evaluation of speech outcome and self-reported communicative ability in young adults born with an isolated cleft palate

Abstract. The aim of this study was to evaluate speech and self-reported communicative ability in 40 young adults born with an isolated cleft palate compared with 41 young adults born without a cleft palate. Differences in speech due to cleft size and the presence of a syndrome/additional congenital abnormalities were also examined. Articulation was assessed with SVenskt Artikulations- och Nasalitets-TEst through phonetic transcription. Velopharyngeal function was rated on a three-point scale and nasalance score was obtained with Nasometer. Intelligibility was assessed through orthographic transcription with the SWedish INtelligibility Test. Participants born with an isolated cleft palate had significantly lower results in articulation, velopharyngeal function and intelligibility but a positive attitude towards their own speech compared to the control-group. Syndrome/further congenital anomalies tended to have a negative effect on speech. Further research examining speech in young adults born with a cleft palate is needed.

Key words: isolated cleft palate, velopharynx function, articulation, intelligibility, syndrome

Målet med kommunikation och talat språk är att bli förstådd (Miller, 2013). Möjligheten att kunna göra sig förstådd kan anses vara en viktig komponent för en persons livskvalitet då tal och kommunikation ofta är en förutsättning för att fullt ut kunna vara delaktig i samtal och utföra olika sociala aktiviteter. Personer födda med någon typ utav läpp-, käk- och gomspalt (LKG) kan ha nedsatt förståelighet, vilket ofta beror på avvikande artikulation (Kappen et al, 2017; Whitehill & Chau, 2004). Avvikande artikulation kan i sin tur bero på nedsatt velofarynxfunktion vilket kan uppstå till följd av LKG (Lohmander et al, 2015). Då det finns många studier som undersökt talet hos vuxna personer födda med LKG är dock Becker et al (2000) de enda som undersökt talet hos vuxna personer födda med just isolerad gomspalt (Becker, Svensson, Sarnäs & Jacobsson, 2000). Hädanefter kommer förkortningen 'LKG' användas i föreliggande studie vid resonemang som handlar om alla spalttyper. Vidare kommer förkortningen 'CP' (engelska, *cleft palate*) användas vid resonemang kring isolerad gomspalt.

Under fosterlivets fjärde till och med trettonde vecka sker slutning av läpp, käke och gom (Burg, Chai, Yao, Magee & Figueiredo, 2016). Av ännu okänd anledning sker inte alltid denna slutning på ett fullständigt sätt, varpå någon typ av LKG kvarstår (Mossey, Little, Munger, Dixon & Shaw, 2009; Burg et al, 2016). LKG beskrivs ofta utifrån struktur och kan vara partiell eller total, unilateral eller bilateral. Man delar ofta in de olika spalttyperna i spalt framför respektive bakom foramen incisivum (Mossey et al, 2009; Burg et al, 2016). Isolerad gomspalt är belägen bakom foramen incisivum och kan innefatta endast mjuka gommen eller både mjuka och hårda gommen (Gustafsson, Heliövaara, Leikola & Rautio, 2018). I Sverige utgör isolerad gomspalt 34% av alla orala spalter (LKG-registret, 2020) och är vanligare hos kvinnor än män (Mossey et al, 2009; Burg et al 2016). I Sverige föds 0.6-0.7/1000 invånare med just isolerad gomspalt (Hagberg, Larson & Milerad, 1997) och alla barn som föds med LKG i Sverige följs enligt rutin upp av ett LKG-team (plastikkirurg, logoped, läkare m.fl.) fram till 19 års ålder (LKG-registret, 2020). Rutiner för slutning av gomsalten ser olika ut inom Sverige (LKG-registret, 2020). I Göteborg sker slutningen genom en två-stegsmetod, beroende på spaltens storlek (Persson, Ehlander, Lohmander-Agerskov & Söderpalm, 2002; Klintö et al, 2020). Mjuka gommen sluts vid ca 6 månaders ålder (bakre gomplastik) och en eventuell spalt i hårda gommen sluts vid ca 2 års ålder (restspaltslutning) (Klintö et al, 2020). Trots genomförda operationer kan en fistel kvarstå mellan näs- och munhåla, vilket kan påverka artikulationen (Klintö et al, 2020).

Personer som föds med LKG kan få avvikande tal på grund av den strukturella avvikelserna som spalten orsakar mellan mun- och näshåla (Henningsson et al, 2008). Denna avvikelse kan orsaka nedsatt velofarynxfunktion och leda till velofarynxinsufficiens, som ofta förkortas VPI, vilket innebär en nedsatt förmåga till velofarynxslutning mellan svalg och näshåla (Henningsson et al, 2008; Lohmander et al, 2015). Avvikande artikulation kan förekomma i samband med LKG och delas ofta in i olika typer av artikulatoriska talavvikelser; aktiva eller passiva (Hutters & Brønstedt, 1987). Aktiva talavvikelser är en form av kompensatorisk artikulation då talaren ändrar artikulationsställe för att kompensera för den strukturella avvikelse som spalten orsakar (Hutters & Brønstedt, 1987). Aktiva talavvikelser brukar kategoriseras in i framför respektive bakom velofarynx (Lohmander et al, 2015). Oral tillbakadragen artikulation är en typ av aktiv talavvikelse framför velofarynx som ofta beror på en öppning

(exempelvis oopererad restspalt eller fistel) i gommen mellan näs- och munhåla. Oral tillbakadragen artikulation innebär att artikulationsstället skiftar från dentalt eller bilabialt till palatalt eller velart artikulationsställe. Aktiva talavvikelser bakom velofarynx (icke-oral artikulation) beror på nedsatt velofarynxfunktion och innebär att artikulationen har skiftat från ordinarie artikulationsställe till nasalt, glottalt eller faryngealt artikulationsställe (Lohmander et al, 2015). Aktiva talavvikelser bakom velofarynx kan även förekomma genom glottal dubbelartikulation som innebär att den glottala artikulationen av målljudet förekommer samtidigt som den korrekta artikulationen (Lohmander et al, 2015). Passiva talavvikelser uppstår som följd av nedsatt velofarynxfunktion, och gör att artikulationssättet ändras (Harding & Grunwell, 1998; Chapman & Willadsen, 2011). Passiva talavvikelser karaktäriseras av hypernasalitet, hyponasalitet, nasalt luftläckage, velofaryngeala friktionsljud och trycksvag artikulation (Lohmander et al, 2015).

Nedsatt velofarynxfunktion kan även förekomma hos personer födda utan spalt eller ytterligare medfödda avvikelser i mun- och näshåla. Nedsättningen kan då istället bero på neurologiska orsaker, exempelvis hypotoni (Shprintzen, Goldberg, Young, & Wolford, 1981), cerebral pares, utvecklingsförsening eller som följd av ett syndrom (Goudy, Ingraham & Canady, 2012). Shprintzen (1997) har beskrivit 22q11 deletionssyndrom (22q11DS) som det vanligast förekommande syndromet vid isolerad gomspalt, där spalten kan ingå som ett symptom för syndromet (Shprintzen, 1997). Man har funnit över 400 syndrom där isolerad gomspalt ingår som en del av ett syndrom (Coleman & Sykes, 2001) och man har visat att ca 50% av de som föds med isolerad gomspalt har spalten som en del i ett syndrom eller tillsammans med ytterligare medfödda avvikelser, exempelvis dysmorfa kroppsdelar eller hjärtproblematik (Shprintzen et al, 1985).

Förståelighet kan definieras på olika sätt. En definition där man utgår från den akustiska signalen är *“the degree to which the acoustic signal /.../ is understood by a listener”* (Yorkston, Strand & Kennedy, 1996, s. 55). Definitionen förklarar att förståelighet bestäms utifrån hur väl en lyssnare uppfattar en talare baserat på den akustiska signalen och inte utifrån andra icke-verbala kommunikativa medel eller kontextuella faktorer (Lagerberg et al, 2015). Det pågår diskussioner kring hur man ska bedöma förståelighet på ett sätt som upprätthåller god reliabilitet och validitet (Lagerberg, Hellström, Lundberg & Hartelius, 2019; Miller, 2013). Miller (2013) förklarar att bedömning av förståelighet via skattningsskalor används i kliniska sammanhang då metoden är tidseffektiv och enkel att använda. Dock har validitet och reliabilitet gällande skattningsskalor för bedömning av förståelighet kritiserats (Miller, 2013). För att få ett mer objektiv mått och höja trovärdigheten vid bedömning av förståelighet har ordigenkännings-test ibland använts istället för skattningsskalor (Miller, 2013). Johannisson, Lohmander och Persson (2014) använde sig utav Swedish Intelligibility Test (SWINT) med flervalsoalternativ och ortografisk transkription för bedömning av förståelighet när de undersökte talet hos 10-åringar födda med isolerad gomspalt och/eller 22q11DS, vilket visade på hög reliabilitet. Samma studie visade även på hög validitet vid användning av ortografisk transkription för bedömning av förståelighet (Johannisson et al, 2014). När Becker et al (2000) undersökte förståelighet hos vuxna födda med isolerad gomspalt utifrån en femgradig skattningsskala bedömdes förståeligheten som god hos majoriteten (94%) av deltagarna. Endast Becker et al

(2000) har undersökt förståelighet hos vuxna födda med isolerad gomspalt. Därmed finns det ett behov av ytterligare forskning som använder sig av metoder med högre reliabilitet och validitet vid undersökning av förståelighet hos denna grupp.

Internationell klassifikation av funktionstillstånd, funktionshinder och hälsa (ICF) är en biopsykosocial modell framtagen av världshälsoorganisationen (WHO) för att beskriva en persons funktionstillstånd, funktionshinder och hälsa (Socialstyrelsen, 2021). Utifrån ICF-klassifikationen kan man kartlägga och utvärdera hur exempelvis en strukturell avvikelse såsom LKG påverkar en persons livskvalitet och därefter planera eventuella vårdinsatser utifrån personens individuella behov (Socialstyrelsen, 2021). Artikulation och velofarynxfunktion är två talvariabler som kan påverkas negativt av LKG och skulle kunna kopplas till ICF-modellens del som handlar om kroppsfunction. Medan förståelighet och den subjektiva upplevelsen av sin egna kommunikation i olika sociala sammanhang skulle kunna kopplas till ICF-modellens delar som berör aktivitet och delaktighet samt person- och omgivningsfaktorer (Olsson & Rutgersson, 2010; Socialstyrelsen, 2015). För att undersöka hur personer med kommunikativa svårigheter upplever sin egen kommunikativa förmåga kan man med fördel använda sig av ett frågeformulär eller självskattningsformulär. Självskattningsformulär Om Kommunikation (SOK) (Hartelius, Elmberg, Holm, Lövberg & Nikolaidis, 2007) är ett formulär som är utformat enligt ICF och består av 4 delar (A-D). Frågorna i Del A tar hänsyn till *funktion*, del B tar hänsyn till *aktivitet och delaktighet* och del C tar hänsyn till *person- och omgivningsfaktorer* (Hartelius et al, 2007; Socialstyrelsen, 2021). SOK är utformat för att undersöka hur personer utan dokumenterade talsvårigheter uppfattar sig själva och sin kommunikation (Ahlberg & Hansson, 2007), Formuläret har använts för personer med LKG i tidigare studier (Hjelm & Larsson, 2009; Olsson & Rutgersson, 2010).

När man undersökt talet hos femåringar födda med isolerad gomspalt har man sett att artikulation relaterat till velofarynxfunktion är signifikant avvikande jämfört med kontrollgrupp utan spalt (Persson et al, 2002). Spaltens storlek samt förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser hade en signifikant negativ påverkan på artikulationen relaterat till velofarynxfunktion (Persson et al, 2002). Även Nyberg, Westberg, Neovius, Larson och Henningsson (2010) har studerat spaltstorlekens påverkan på talet hos barn födda med isolerad gomspalt och konstaterat att en större spalt orsakar signifikant mer avvikande tal. Studien visade att barn födda med isolerad gomspalt som innefattar endast mjuka gommen hade signifikant mindre glottal och trycksvag artikulation än de barn födda med isolerad gomspalt som innefattar både mjuka och hårda gommen (Nyberg et al, 2010). Många som föds med LKG får under uppväxten det vi ofta kallar för ett "normalt" tal (Brunnegård & Lohmander, 2007) och man har sett att talavvikelser hos personer födda med isolerad gomspalt avtar under uppväxten (Persson, Lohmander, Erlander, 2004). Hos vuxna födda med LKG är förekomsten av talavvikelser relativt låg, men vid jämförelse med vuxna utan spalt är talavvikelser relaterade till nedsatt velofarynxfunktion fortfarande signifikant mer förekommande (Helmrot & Klintberg, 2014; Morén, Mani, Lillian, Lindestad & Holmström, 2017).

Becker et al (2000) undersökte talet hos vuxna födda med isolerad gomspalt med fokus på att jämföra olika operationsmetoder. Artikulationen bedömdes som lätt till måttligt

avvikande där glottal artikulation förekom bland 18% av deltagarna, 15% av deltagarna hade avvikande s-ljud (sigmatism) och endast en deltagare hade oral tillbakadragen artikulation. Velofaryngeala friktionsljud förekom hos 30% av deltagarna och den mest framträdande avvikelsen var hypernasalitet som förekom hos 79% av deltagarna, dock var reliabiliteten för bedömningen av hypernasalitet låg. Becker et al (2000) undersökte även deltagarnas subjektiva upplevelse av sitt eget tal, vilket visade att vuxna födda med isolerad gomspalt var relativt nöjda med sitt tal. I studien redovisas att tre deltagare exkluderats på grund av svår kognitiv nedsättning, men huruvida personer födda med syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser har exkluderats eller ej är oklart (Becker et al, 2000). Studier som undersöker talet hos unga vuxna eller vuxna födda med isolerad gomspalt med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser i jämförelse mot kontrollgrupp utan spalt finns inte i dagsläget, enligt författarnas kännedom.

Syftet i föreliggande studie är att undersöka eventuella skillnader hos unga vuxna födda med isolerad gomspalt och unga vuxna födda utan spalt avseende artikulation, velofarynxfunktion, förståelighet och självupplevd kommunikativ förmåga utifrån ett ICF-perspektiv. Studien kommer även att syfta till att undersöka skillnader avseende artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet bland unga vuxna födda med isolerad gomspalt beroende på spaltens storlek och förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser.

Frågeställningar

- Finns det skillnader vid jämförelse av unga vuxna födda med isolerad gomspalt och kontrollgrupp födda utan spalt avseende artikulation, velofarynxfunktion, förståelighet och självupplevd kommunikativ förmåga?
- Finns det skillnader inom gruppen med isolerad gomspalt avseende artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet beroende på spaltstorlek och förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser?

Metod

Deltagare

Unga vuxna födda med isolerad gomspalt

Rekrytering av unga vuxna födda med isolerad gomspalt skedde via Sahlgrenska universitetssjukhuset i Göteborg där alla som fötts med isolerad gomspalt 1989-1993 tillfrågades om att delta i studien i samband med deras åttonde och sista rutinbesök vid 19 års ålder. När deltagarna födda med isolerad gomspalt i föreliggande studie genomgick slutning av spalten utfördes slutning av mjuka gommen (bakre gomplastik) vid ca 6 månaders ålder och slutning av en eventuell spalt i hårda gommen (restspaltslutning) vid ca 4 års ålder (för ytterligare information om operationsmetod, se Elander, Persson, Lilja & Mark, 2017). Samtliga deltagare opererades och följdes av ett LKG-team på Sahlgrenska universitetssjukhuset i Göteborg och vid behov av talträning genomfördes denna på hemorten. Totalt sextiofem deltagare rekryterades varav 24 personer uteblev från kontrollbesöket, hade flyttat eller avböjde att medverka i studien. En person exkluderades på grund av tekniska problem och ytterligare en person

exkluderades då en stor del inspelat talmaterial saknades. Personer med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser inkluderades (tabell 2). Detta resulterade i en grupp på totalt 40 unga vuxna födda med isolerad gomspalt (tabell 1).

Unga vuxna utan spalt

Unga vuxna utan spalt rekryterades främst via gymnasieskolor i Västra Götalandsregionen (Olsson och Rutgersson 2010). Deltagarna rekryterades för att likna gruppen med spalt utifrån ålder, kön, geografiskt upptagningsområde och dialektala skillnader. Totalt 65 deltagare rekryterades, varav de första 41 valdes ut för att användas som kontrollgrupp i föreliggande studie (tabell 1).

Tabell 1

Karaktäristika för unga vuxna födda med isolerad gomspalt (CP) och unga vuxna födda utan spalt (Kontroll). CPS, engelska 'cleft palate soft'. CPH, engelska 'cleft palate hard'. Information om hörselnedsättning och flerspråkighet är rapporterat av deltagarna själva i Del D av Självsvarsformulär Om Kommunikation (SOK).

<i>Karaktäristika</i>	<i>CP (n=40)</i>	<i>Kontroll (n=41)</i>
Medianålder vid testning, år (<i>min-max</i>)	19 (18-20)	18 (17-19)
Kön, män:kvinnor (<i>n</i>)	17:23	20:21
Förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser (<i>n</i>)	23	-
Spaltstorlek, CPS:CPH (<i>n</i>)	23:17	-
Medelålder vid bakre gomplastik, månader (<i>s</i>)	7,5 (2,1)	-
Medelålder vid restspaltslutning, månader (<i>s</i>)	45,1 (8,8)	-
Hörselnedsättning (<i>n</i>)	7	1
Flerspråkighet (<i>n</i>)	5	5

Tabell 2

Förekomst av syndrom och ytterligare medfödda avvikelser bland unga vuxna födda med isolerad gomspalt.

<i>Syndrom och ytterligare medfödda avvikelser</i>	<i>n</i>
Cerebral pares	1
22q11 DS	3
Pierre Robin Sequence	5
Fetal alcohol syndrom	1
Noonans syndrom	1
Larsens syndrom	1
Sprengels syndrom + pierre robin sequence	1
Övriga: ADHD, intellektuell funktionsnedsättning; krikoidstenos; koncentrationssvårigheter, försenad språkutveckling, utvecklingsförsening; uretär reflux, dysmorfa öron/näsa; hjärtproblematik, utvecklingsförsening; liten haka, dysmorft utseende; födoämnesintolerans, opererat ljumskbräck, hypospadi; atypiska nackkotor och underkäke; mikrognati, lågt sittande öron; nedsatt grovmotorik, hydrocephalus, epilepsi; hörselnedsättning, tillväxtförsening, hjärtproblematik	10

22q11DS = 22q11 deletionssyndrom. ADHD = Attention Deficit Hyperactivity Disorder.

Subgrupper inom unga vuxna födda med isolerad gomspalt

För att undersöka eventuell påverkan på talet vid förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser delades de 40 unga vuxna födda med isolerad gomspalt in i fyra subgrupper utifrån spaltens storlek (mjuka gommen eller både mjuka och hårda gommen) samt förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser (tabell 3).

Tabell 3

Karaktäristika för subgrupperna CPS, CPS+, CPH och CPH+. Plustecken indikerar förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser hos samtliga deltagare inom angiven grupp.

Karaktäristika	CPS (n=11)	CPS+ (n=12)	CPH (n=6)	CPH+ (n=11)
Spaltstorlek	Isolerad spalt som innefattar endast mjuka gommen	Isolerad spalt som innefattar endast mjuka gommen	Isolerad spalt som innefattar både mjuka och hårda gommen	Isolerad spalt som innefattar både mjuka och hårda gommen
Syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser	-	+	-	+
Medianålder vid testning, år (min-max)	19 (19-20)	19 (18-19)	19 (18-20)	19 (18-19)
Kön, män:kvinnor (n)	6:5	8:4	2:4	1:10
Hörselnedsättning (n)	2	3	-	2
Flerspråkighet (n)	1	1	1	2

CPS = Unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka gommen. CPS+ = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka gommen med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser. CPH = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka och hårda gommen. CPH+ = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka och hårda gommen med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser.

Etik

Föreliggande studie genomfördes vid institutionen för neurovetenskap och fysiologi, Göteborgs universitet och är godkänd av regionala etikprövningsnämnden i Göteborg med Dnr:R055-99. Samtliga deltagare har fått muntlig och skriftlig information om studien samt gett sitt muntliga och skriftliga godkännande att delta i studien.

Material

Tabell 4

Översiktlig tabell över analyserade variabler, material och vem som har utfört bedömning i enlighet med Internationell klassifikation av funktionstillstånd, funktionshinder och hälsa (ICF). Samtliga bedömningar utfördes under januari-april 2021.

ICF-klassifikation	Variabler	Material	Bedömning
Struktur & Funktion	Artikulation + velofarynxfunktion	SVANTE ord- & meningsnivå	Författarna i föreliggande studie
	Velofarynxfunktion	SVANTE spontantal	Tre yrkesverksamma logoped
	Velofarynxfunktion	Nasometer	Författarna i föreliggande studie
Aktivitet & Delaktighet	Förståelighet	SWINT	Författarna i föreliggande studie
	Självskattad kommunikativ förmåga	SOK	Författarna i föreliggande studie
Person- & Omgivningsfaktorer	Självskattad kommunikativ förmåga	SOK	Författarna i föreliggande studie

Statistiska analyser har genomförts av författarna i föreliggande studie under januari-april 2021.

Datansamling

Materialet från unga vuxna födda med isolerad gomspalt samlades in på mottagningen för logopedi och foniatri vid Sahlgrenska Universitetssjukhuset mellan 2009 och 2013 (tabell 4). Tre erfarna logopeder med specialistkunskap inom LKG spelade in deltagarna. Materialet från kontrollgruppen spelades in i gymnasieskolornas lokaler, Göteborgs universitets lokaler och ett privat hem och samlades in av logopedstudenter inom ramen för en tidigare magisteruppsats under januari till mars 2010 (Olsson & Rutgersson, 2010) (tabell 4). För inspelning av samtliga deltagare i respektive grupp användes en bärbar digital inspelningsenhet (Tascam HD-P2) och en mikrofon (SONY ECM-MS957). Varje deltagare tilldelades en ny kod av författarna som även segmenterade och delade in ljudinspelningarna i fem kategorier för varje deltagare; "SVANTE ord", "SVANTE meningar", "SWINT ord", "SWINT meningar" och "SVANTE spontantal". Ljudfilerna sparades som wav-filer och förseddes med namn utifrån deltagarnas kod och testtyp (ex. SVANTE ord_1.wav). Inför övergripande bedömning av velofarynxfunktion med SVANTE ansåg författarna att mängden spontantal var bristfällig (mindre än 1,50 minuter) för fyra deltagare. Därmed redigerades dessa ljudfiler och förlängdes med ytterligare talmaterial från övrig testning med högläsning av standardiserad text så att det totala talmaterialet uppnådde minst 1,50 minuter.

SVenskt Artikulations- och Nasalitets-TEst

SVenskt Artikulations- och Nasalitets-TEst (SVANTE) är ett svenskt standardiserat test för perceptuell bedömning av artikulationsförmåga och velofarynxfunktion. Testet har utformats för bedömning av personer födda med strukturella avvikelser i munhåla/svalg och neurologiska tillstånd (Lohmander et al., 2015). SVANTE innefattar tre delar; ord, meningar och sammanhängande tal. Orddelen utgjordes av 59 ord där målljuden bestod av sex klusiler (/p/, /b/, /t/, /d/, /k/, /g/) och tre frikativor (/s/, /f/, /ɛ/). Målljuden förekom tre gånger ordinitialt, två gånger medialt och två gånger finalt. Frikativan /ɛ/ förekom endast tre gånger ordinitialt och inte i någon annan position. Meningsdelen bestod av 8 meningar med 4 målljud per mening. Målljuden i meningsdelen bestod av klusiler och frikativor (/p/, /b/, /t/, /d/, /k/, /g/, /s/, /f/). Samtliga målljud förekom meningsinitialt, två gånger ordinitialt följt av vokal och (i alla meningar förutom en) två gånger ordmedialt omgivet av vokal. I föreliggande studie läste testpersonen orden, medan meningarna repeterades efter testledaren. Vid bedömning av artikulation transkriberade (fonetiskt) författarna målljuden ur ord och meningar ur SVANTE. Författarna som utförde transkriberingarna i föreliggande studie gick åttonde terminen på logopedprogrammet och hade under utbildningen fått viss träning i fonetisk transkription för tal vid LKG. Innan transkriberingarna utfördes genomgick författarna samstämmighets-träning och tränade på att lyssna och transkribera tal vid LKG tillsammans med en logoped med erfarenhet inom LKG. Under samstämmighets-träningen utformades en manual för hur den fonetiska transkriberingen skulle gå till. Manualen såg likadan ut för ord respektive meningar och innefattade regler kring arbetstid, pauser, arbetsmiljö, utrustning, programvara samt att följande diakritiska tecken fick användas; velofaryngeala friktionsljud /b̥/; nasalt luftflöde /b̥̃/; trycksvag artikulation /b̥̃/; glottal förstärkning /b̥̃̃/ ; glottal klusil /ʔ/; nasal realisering /b/ → /m/; uteblivet fonem /∅/ och odefinierbart fonem /(\̄)/. Samtliga transkriberingar utfördes enskilt och författarna fick lyssna igenom varje ljudfil obegränsat antal gånger. Transkriberingarna för ord respektive meningar sammanställdes för samtliga deltagare i Excel och bedömdes därefter av författarna i enlighet med anvisningarna i SVANTE-manualen (Lohmander et al, 2015). Andel

korrekta orala konsonanter (AKOK) beräknades för SVANTE ord respektive SVANTE meningar. Målljud bedömdes som korrekta enligt AKOK när de producerades utan anmärkning, alltså med korrekt fonem utan aktiva eller passiva talavvikelser. För att komplettera AKOK användes måttet *percentage consonants correct* (PCC) vilket är ett internationellt mätsystem med god validitet och reliabilitet utformat av Shriberg och Kwiatkowski (1982) för att beräkna andelen korrekta konsonanter. PCC beräknades endast utifrån korrekt artikulationsställe, artikulationssätt och ton. Ett målljud som producerades med passiva talavvikelser räknades således som korrekt i PCC, förutsatt att korrekt fonem yttrades. För analys av AKOK och PCC beräknades andelen förekomster i procent och för respektive deltagare. S-avvikelser bedömdes som ej avvikande eller avvikande där 0-2 förekomster räknades som ej avvikande och fler än 2 förekomster räknades som avvikande (Lundwall & Stenlund, 2017). Genom att exkludera alla målljud med /s/ kunde författarna räkna ut ett nytt PCC värde (PCC utan /s/) och sedan undersöka om det blev någon skillnad i resultatets utfall beroende på s-avvikelser. För analys av PCC utan /s/ beräknades andelen förekomster i procent för respektive deltagare. För kategorisering av talavvikelser utgick författarna från SVANTE-manualen men anpassade kategorierna efter vilka talavvikelser som framkom i de fonetiska transkriptionerna. Aktiva talavvikelser delades in i oralt tillbakadragen artikulation och icke-orala avvikelser. Oralt tillbakadragen artikulation var den enda förekommande avvikelser framför velofarynx som var av intresse för studiens frågeställningar då det är en typisk LKG-relaterad artikulationsavvikelse som kan förekomma hos personer som opererats med två-stegs metoden och haft en restspalt eller fistel (Lohmander et al, 2015). Icke-orala avvikelser innefattade glottal förstärkning, glottal klusil och uteblivet fonem. Övriga avvikelser som förekom framför velofarynx såsom svårigheter med distinktion, tonande/tonlös eller framflyttad artikulation förekom endast hos enstaka deltagare och togs i beaktande vid beräkning av AKOK och PCC, men exkluderades från övriga analyser då de bedömdes som fonologiska processer snarare än LKG-relaterade avvikelser (Lohmander et al., 2015). Oralt tillbakadragen artikulation och icke-orala avvikelser bedömdes som ej avvikande vid 0-2 förekomster eller avvikande vid fler än 2 förekomster (Lundwall & Stenlund, 2017). Passiva talavvikelser bestod av hörbart nasalt luftläckage (velofaryngeala friktionsljud, nasalt luftflöde), trycksvag artikulation och nasal realisering. Nasal realisering av tonande klusiler har kategoriserats som en passiv talavvikelse enligt tidigare studier (Lohmander et al, 2017a). Samtliga passiva avvikelser; hörbart nasalt luftläckage trycksvag artikulation och nasal realisering sammanställdes under kategorin VPI-symtom. VPI-symtom beräknades utifrån andelen förekomster i procent och för respektive deltagare. Denna typ av sammanställning av passiva talavvikelser har genomförts i tidigare studier, där man visat att en sammansatt övergripande bedömning har visat på god validitet samt god korrelation med övergripande bedömning av velofarynxfunktion (Lohmander et al, 2017c). Samtliga variabler; AKOK, PCC, PCC utan /s/, s-avvikelser, orala avvikelser, icke-orala avvikelser och VPI-symtom redovisades separat för ord respektive meningar (Lohmander et al, 2015).

Utifrån inspelningar av sammanhängande tal genomfördes en övergripande bedömning av velofarynxfunktion av tre yrkesverksamma logopedier med erfarenhet inom LKG. Ljudinspelat sammanhängande tal på minst 1.50 minuter från varje deltagare kodades och klipptes av författarna före bedömning. Krypterade USB-minnen med instruktioner, Excel-fil och ljudfiler skickades via post till de tre bedömarna. Logopederna var

blindade för gruppstillhörighet och hade inte deltagit vid datainsamling, eventuell utredning eller behandling som getts. Logopederna skattade grad av velofarynxfunktion för varje deltagare enligt en tregradig skala (0-2) ur SVANTE; (0) tillräcklig (kompetent), (1) marginellt otillräcklig samt (2) otillräcklig (inkompetent) (Lohmander et al, 2015). Skattningarna sammanställdes i ett rutschema i Excel i enlighet med SVANTE-manualen (Lohmander et al, 2015). Därefter erhöles ett medianvärde för respektive deltagare utifrån de tre bedömarens skattningar.

Nasometer™

För att komplettera den perceptuella bedömningen av velofarynxfunktion gjordes mätningar med Nasometer™. Detta är ett akustiskt datorbaserat mätinstrument för att mäta nasalitet och velofarynxinsufficiens (Brunnegård & van Doorn, 2009). Deltagarna läste meningar ur SVANTE medan nasal och oral talsignal spelades in parallellt. Genom analys av fördelningen mellan nasal och oral energi erhöles ett nasalansvärde (%). Deltagarna fick göra proceduren två gånger var, vilket resulterade i två framtagna nasalansvärden. Utifrån de två värdena beräknade författarna ett medelvärde för varje person. I fem av 81 fall fanns endast 1 mätning med Nasometer™, varpå det värdet redovisades istället för medelvärde.

SWedish INtelligibility Test

Den kvantitativa delen ur Swedish Intelligibility Test (SWINT) användes för att bedöma deltagarnas förståelighet på ord- och meningsnivå. Den kvantitativa delen har visat på god validitet och reliabilitet för bedömning av förståelighet i tidigare studier (Johannisson et al, 2014; Lillvik, Allemark, Karlström & Hartelius, 1999). Listor med ord respektive meningar skapades slumpmässigt av ett datorprogram för varje deltagare. Orddelen bestod av totalt 68 ord och baserades på minimala par med 22 olika fonetiska kontraster. Meningsdelen bestod av 10 meningar med fyra huvudord per mening och var uppbyggda grammatiskt korrekt men semantiskt inkorrekt, t.ex. *“Vresig lada lurar kam”* (Lillvik et al, 1999). Meningarna var uppbyggda på detta vis för att lyssnaren inte skulle kunna förutse orden utifrån semantisk kontext. Författarna bedömde varje deltagares förståelighet genom ortografisk transkription på både ord- och meningsnivå. Transkriptionerna gjordes enskilt och med max 2 lyssningar per ord och mening för varje deltagare. En regellista för arbetstid, max 2 lyssningar, utrustning, programvara och arbetsmiljö skapades av författarna innan transkriptionerna genomfördes. Vid bedömning jämfördes sedan transkriptionen med de ursprungliga listorna som lästs av deltagarna. Andel korrekt uppfattade ord representerade ett objektiva mått på förståelighet och beräknades utifrån hur många av orden som lyssnaren uppfattat korrekt. Andel korrekt uppfattade ord på meningsnivå beräknades för varje deltagare utifrån de 10 meningarnas 4 huvudord; totalt 40 ord per deltagare på meningsnivå (Lillvik et al, 1999). Vid sammanställning beräknas andel korrekt uppfattade ord för testets båda delar för varje deltagare.

Självsvarsformulär Om Kommunikation

Självsvarsformulär Om Kommunikation (SOK) användes i föreliggande studie för att undersöka den självupplevda kommunikativa förmågan hos deltagarna. Formuläret bestod av 30 påståenden som poängsattes utifrån fyra olika svarsalternativ för respektive påstående (0-3 poäng); 0) “stämmer inte alls”, (1) “stämmer ibland”, (2) “stämmer för det mesta”, (3) “stämmer precis”. Den maximala poängen för SOK var

totalt 90 poäng. Frågorna var vinklade så att desto mer negativ upplevelse en person hade kring ett visst påstående, desto högre poäng erhöles. Formuläret var uppdelat i fyra delar (A-D); där del A-C bestod av påståenden som skattades och del D bestod av allmänna frågor, där personuppgifter och frågor kring talet fylldes i (Hartelius et al, 2007). Del A bestod av 12 frågor som handlade om uppfattning om egenskaper i det egna talet och språket, del B bestod av 12 frågor om kommunikation (tal och språk i social miljö) och del C bestod av 6 frågor om påverkande person- och omgivningsfaktorer. Varje deltagare skattade påståendena i del A-C genom att kryssa för ett av fyra svarsalternativ. För Del D rapporterade samtliga deltagare kön, sysselsättning, flerspråkighet och hörselnedsättning. Medelpoäng för respektive del (A-C) och den totala medelpoängen sammanställdes och beräknades därefter för varje deltagare. Medelvärden användes för jämförelse mellan CP-gruppen och kontrollgruppen. Exempel på påståenden ur SOK; del A: *“Mitt tal är nasalt”*; del B: *“Det är svårt att tala i en grupp av människor”*; del C: *“Människors sätt att bemöta mig påverkas av mitt sätt att tala”* (Hartelius et al, 2007).

Inter- och intrabedömarreliabilitet

Inter- och intrabedömarreliabilitet för SVANTE och SWINT beräknades utifrån punkt för punkt-analys (*“point-by-point agreement”*). Båda författarna bedömde 100% av talmaterialet + 30% duplicerat talmaterial för respektive test. För beräkning av inter- och intrabedömarreliabilitet gällande fonetisk transkription utformades en regellista för att bestämma godkända och ej godkända olikheter i transkriptionerna (tabell 5). Regellistan baserades på regler utformade i en tidigare studie av Willadsen et al (2017). Interbedömarreliabiliteten för fonetisk transkription resulterade i 86.1% på ordnivå och 88.8% på meningsnivå. Intrabedömarreliabiliteten för fonetisk transkription resulterade i 95.4% på ordnivå och 97,0% på meningsnivå för författare A, samt 92.1% på ordnivå och 93,0% på meningsnivå för författare B. Interbedömarreliabilitet för SWINT beräknades genom andel samstämmiga ord mellan författarna och resulterade i 93.2% på ordnivå och 94.9% på meningsnivå. Intrabedömarreliabiliteten för SWINT resulterade i 96,0% på ordnivå och 98.2% på meningsnivå för författare A, samt 97.7% på ordnivå och 98.1% på meningsnivå för författare B. Huvudbedömaren utsågs utifrån högst beräknad intrabedömarreliabilitet på varje test och delnivå. Därmed utsågs författare A som huvudbedömaren för SVANTE ord och meningar samt SWINT meningar och författare B som huvudbedömaren för SWINT ord. Inter- och intrabedömarreliabilitet beräknades även för de tre externa logopedernas övergripande bedömningar av velofarynxfunktion (tabell 6).

Tabell 5

Regellista för bedömning av transkriptioner med SVenskt Artikulations- och Nasalitets-TEst, baserad på regler utformade av Willadsen et al (2017).

Godkända olikheter	Ej godkända olikheter
Palatal/ velar/ uvular klusil	Alveolar/ palatal klusil
Dental/ alveolar/ retroflex klusil	Tonande/ tonlös klusil
Glottal klusil/ glottal förstärkning, ʔ/ kʔ	Olika s-avvikelser, förutom ʃ/ ç
Nasalt luftläckage/ tryckreducerad artikulation	Nasalt luftläckage/ ej nasalt luftläckage
ø/?	Trycksvag artikulation/ ej trycksvag artikulation
ʃ/ ç	

Tabell 6

Inter- och intrabedömarreliabilitet för externa logopeders övergripande bedömningar av velofarynxfunktion.

<i>Bedömare</i>	1	2	3
1	100%		
2	82,72%	100%	
3	81,48%	88,89%	96%

Statistisk analys

För statistisk analys användes SPSS version 24 för Windows. För att undersöka gruppernas medelvärden, medianvärden, standardavvikelser samt min- och max-värden användes deskriptiv statistik. För att undersöka datans fördelning utfördes ett Kolmogorov-Smirnov-test. Detta visade att majoriteten av data var icke normalfördelad, därmed användes icke-parametrisk testning för samtliga analyser. För beräkning av eventuella skillnader mellan CP-grupp och kontrollgrupp användes det icke-parametriska testet Mann Whitney U. Vid beräkning av eventuella skillnader inom CP-gruppen användes det icke-parametriska testet Kruskal Wallis, när signifikant skillnad framkom genomfördes parvisa jämförelser med Mann Whitney U. ‘*Bonferroni correction for multiple tests*’ användes för att minska risken för typ 1-fel vid signifikantestning mellan subgrupperna, genom korrigering av p-värdet. Samtliga resultat bedömdes som signifikanta om $p < .05$.

Resultat

Jämförelser mellan unga vuxna födda med isolerad gomspalt och kontrollgrupp

Artikulation

Deltagarna födda med isolerad gomspalt (CP) hade signifikant lägre AKOK och PCC både på ord- och meningsnivå jämfört med kontrollgrupp. Vid jämförelse mellan CP-gruppen och kontrollgruppen avseende PCC utan målljudet /s/ förekom även där en signifikant skillnad mellan grupperna, där CP-gruppen hade signifikant lägre andel PCC på både ord- och meningsnivå (tabell 7).

Tabell 7

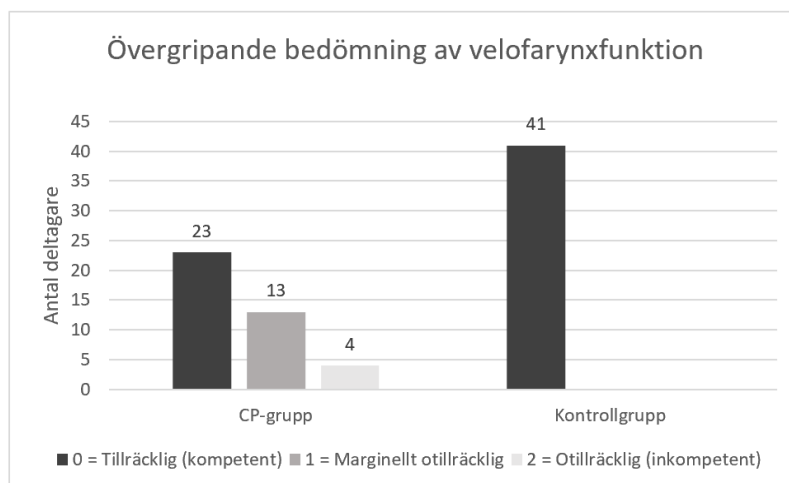
Jämförelser avseende artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet mellan unga vuxna födda med isolerad gomspalt (CP-grupp) och unga vuxna utan spalt (Kontrollgrupp).

	CP-grupp (n=40)		Kontrollgrupp (n=41)		U	sign. (p)
	M	s	M	s		
Artikulation						
	CP-grupp (n=40)		Kontrollgrupp (n=41)			
	Variabler (%)		Variabler (%)			
	M	s	M	s		
	AKOK ord	77,3	16,4	97,9	4,3	74,50 <.05
	AKOK meningar	70,0	29,0	98,0	3,3	168,50 <.05
	PCC ord	96,4	7,4	99,7	1,4	476,50 <.05
	PCC meningar	97,7	7,4	100,0	0,0	656,00 <.05
	PCC utan /s/ ord	97,4	6,9	99,6	1,7	523,50 <.05
	PCC utan /s/ meningar	97,9	7,8	100,0	0,0	697,00 <.05
	VPI-symtom ord	20,0	15,6	1,8	3,4	1524,50 <.05
	VPI-symtom meningar	27,8	28,1	2,0	3,3	1490,00 <.05
Velofarynxfunktion						
	CP-grupp (n=30)		Kontrollgrupp (n=41)			
	Variabler (%)		Variabler (%)			
	M	s	M	s		
	Nasometer	33,9	18,3	14,5	6,2	995,00 <.05
Förståelighet						
	CP-grupp (n=35)		Kontrollgrupp (n=41)			
	Variabler (%)		Variabler (%)			
	M	s	M	s		
	SWINT ord	92,1	6,6	96,2	3,9	428,00 <.05
	SWINT meningar	93,6	5,5	96,7	3,8	486,50 <.05

AKOK = Andel korrekt orala konsonanter. PCC = Percentage consonants correct. VPI-symtom = nasalt luftflöde, velofaryngeala friktionsljud, trycksvag artikulation. SWINT = SWeedish INtelligibility Test.

Velofarynxfunktion

CP-gruppen hade signifikant högre andel VPI-symtom på både ord- och meningsnivå samt högre nasalansvärde mätt med Nasometer™ vid jämförelse med kontrollgrupp (tabell 7). CP-gruppen skattades även signifikant högre ($Md=0$, $min-max=0-2$) än kontrollgruppen ($Md=0$, $min-max=0-0$), ($U=1168,50$, $p<.05$) vid jämförelse avseende övergripande bedömning av velofarynxfunktion (figur 1).



Figur 1

Stapeldiagram för jämförelser avseende skattad övergripande velofarynxfunktion (0-2) mellan unga vuxna födda med isolerad gomspalt (CP-grupp) och unga vuxna utan spalt (Kontrollgrupp). Y-axeln visar antal deltagare inom grupperna. CP-grupp n=40, Kontrollgrupp n=41.

Förståelighet

Avseende förståelighet med SWINT framkom signifikant skillnad mellan CP-gruppen och kontrollgruppen på både ord- och meningsnivå, där CP-gruppen var signifikant mindre förståelig än kontrollgruppen (tabell 7).

Självskattning av egen kommunikativ förmåga

Vid jämförelse mellan CP-gruppen och kontrollgruppen avseende självskattning av Självsvarfsformulär Om Kommunikation (SOK) framkom signifikanta skillnader för SOK del B (påståenden om tal och språk i social miljö), SOK del C (påståenden om påverkande person- och omgivningsfaktorer) samt det totala antalet frågor i SOK, där CP-gruppen skattade sin egen kommunikativa förmåga som mer positiv än kontrollgruppen. För SOK del A (påståenden om uppfattning om egenskaper i det egna talet och språket) framkom inga signifikanta skillnader mellan grupperna (tabell 8).

Tabell 8

Jämförelse av skattning med Självsvarfsformulär Om Kommunikation (SOK) mellan unga vuxna födda med isolerad gomsplatt (CP-grupp) och unga vuxna födda utan splatt (Kontrollgrupp). Ett lägre medelvärde indikerar en mer positiv upplevelse.

SOK	CP-grupp (n=38)		Kontrollgrupp (n=41)		U	sign. (p)
	M	s	M	s		
Del A	0,5	0,5	0,6	0,3	628,00	=.14
Del B	0,3	0,3	0,4	0,3	512,50	<.05
Del C	0,3	0,4	0,5	0,4	520,00	<.05
Total	0,4	0,3	0,5	0,3	528,00	<.05

Jämförelser inom gruppen unga vuxna födda med isolerad gomsplatt

Artikulation

Vid jämförelse inom CP-gruppen avseende AKOK förelåg en signifikant skillnad på både ord- och meningsnivå (tabell 9). Vid parvis jämförelse mellan subgrupperna och efter korrektion av p-värden med Bonferroni visades att CPS+ och CPH+ hade ett signifikant sämre resultat än CPS och CPH på AKOK ordnivå samt att CPH+ hade ett signifikant sämre resultat än CPH och CPS på AKOK meningsnivå (tabell 10).

Det fanns inga signifikanta skillnader avseende PCC för varken ord- eller meningsnivå vid jämförelse inom CP-gruppen (tabell 9). Jämförelse inom CP-gruppen visade heller ingen signifikant skillnad avseende PCC utan /s/ för varken ord- eller meningsnivå (tabell 9).

Tabell 9

Jämförelser avseende artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet bland unga vuxna födda med isolerad gomsplatt.

	Variabler (%)	CPS		CPS+		CPH		CPH+		H	sign. (p)
		n=11	M s	n=12	M s	n=6	M s	n=11	M s		
Artikulation	AKOK ord	86,8	7,7	69,2	18,7	91,2	8,5	68,9	14,2	17,58	<.05
	AKOK meningar	84,4	14,3	65,6	29,8	91,7	10,2	50,1	32,7	12,42	<.05
	PCC ord	97,5	4,2	93,3	12,2	98,9	2,8	97,4	3,0	2,52	=.47
	PCC meningar	99,2	2,8	94,0	12,8	100,0	0,0	98,9	2,1	4,10	=.26
	PCC utan /s/ ord	98,1	3,0	94,7	12,1	99,3	1,7	98,3	1,8	1,79	=.62
	PCC utan /s/ meningar	99,0	3,3	94,6	13,6	100,0	0,0	99,4	1,5	1,71	=.64
	VPI-symtom ord	11,1	8,8	24,9	15,6	7,6	9,2	30,5	15,4	14,96	<.05
VPI-symtom meningar	14,8	13,7	29,4	29,4	10,9	9,4	48,3	32,9	10,68	<.05	
Velofarynxfunktion	Variabler (%)	n=8	M s	n=8	M s	n=5	M s	n=9	M s	H	sign. (p)
	Nasometer	24,9	16,9	41,6	12,6	20,6	17,6	42,3	18,5	7,96	<.05
Förståelighet	Variabler (%)	n=10	M s	n=9	M s	n=6	M s	n=10	M s	H	sign. (p)
	SWINT ord	95,2	4,5	86,3	8,4	94,1	4,7	93,2	4,5	8,41	<.05
Förståelighet	Variabler (%)	n=11	M s	n=8	M s	n=6	M s	n=10	M s	H	sign. (p)
	SWINT meningar	94,9	3,5	89,8	7,4	93,0	5,4	95,4	4,9	4,53	=.21

CPS = Unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka gommen. CPS+ = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka gommen med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser. CPH = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka och hårda gommen. CPH+ = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka och hårda gommen med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser.

AKOK = Andel korrekt orala konsonanter. PCC = Percentage consonants correct. VPI-symtom = passiva talavvikelser samlade under en term. SWINT = Swedish INtelligibility Test.

Tabell 10

Parvis jämförelse inom gruppen unga vuxna födda med isolerad gomspalt. I tabellen redovisas endast de parvisa gruppjämförelser som var signifikanta. Adj. sig. (p) visar korrigerat p-värde efter Bonferroni-korrektion.

	Variabler	signifikans	CPH-CPS+	CPH-CPH+	CPS-CPS+	CPS-CPH+
Artikulation	AKOK ord	sign. (p)	<.05	<.05	<.05	<.05
		Adj. sig. (p)	<.05	<.05	<.05	<.05
	AKOK meningar	sign. (p)	<.05	<.05		<.05
		Adj. sig. (p)	=.20	<.05		<.05
Velofarynxfunktion	VPI-symtom ord	sign. (p)	<.05	<.05	<.05	<.05
		Adj. sig. (p)	=.08	<.05	=.14	<.05
	VPI-symtom meningar	sign. (p)		<.05		<.05
		Adj. sig. (p)		<.05		<.05
Nasometer		sign. (p)	<.05	<.05	<.05	<.05
		Adj. sig. (p)	=.26	=.28	=.28	=.30
Förståelighet	SWINT ord	sign. (p)			<.05	
		Adj. sig. (p)			<.05	

CPS = Unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka gommen. CPS+ = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka gommen med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser. CPH = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka och hårda gommen. CPH+ = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka och hårda gommen med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser.

AKOK = Andel korrekt orala konsonanter. VPI-symtom = passiva talavvikelser samlade under en term. SWINT = Swedish INtelligibility Test.

Deskriptiv analys av aktiva talavvikelser

Aktiva talavvikelser (oral tillbakadragen artikulation, icke-oral avvikelse och s-avvikelse) förekom i väldigt låg frekvens och endast inom unga vuxna födda med isolerad gomspalt, varpå statistisk analys inte genomfördes. Alla förekomster av oralt tillbakadragen artikulation bestod utav palatalt s-ljud, vilket har redovisats som både oralt tillbakadragen artikulation och som s-avvikelse (tabell 11).

Tabell 11

Deskriptiva data för förekomst av oral tillbakadragen artikulation, icke-orala avvikelser och s-avvikelser bland subgrupperna.

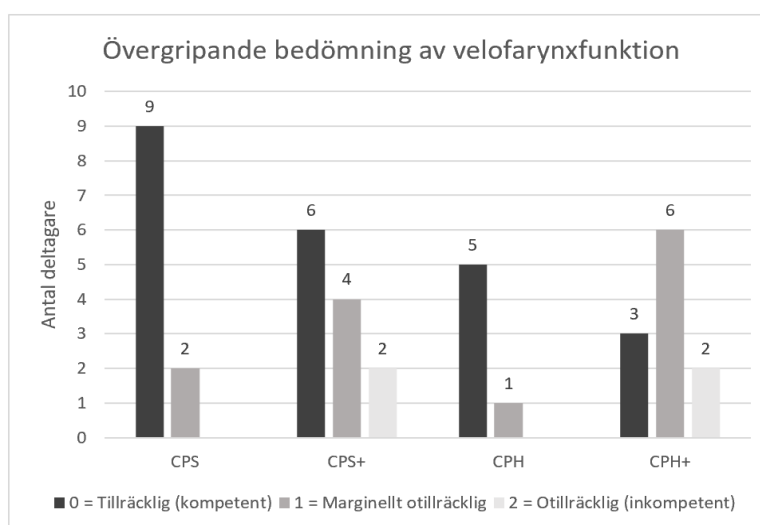
		Aktiva talavvikelser				
Variabler		CPS (n=11)	CPS+ (n=12)	CPH (n=6)	CPH+ (n=11)	Total (n=40)
Ordnivå	Oralt tillbakadragen	1	3	0	0	4
	Icke-orala avvikelser	1	1	0	0	2
	s-avvikelser	2	4	0	2	8
Meningsnivå	Oralt tillbakadragen	0	0	0	0	0
	Icke-orala avvikelser	1	1	0	0	2
	s-avvikelser	0	1	0	0	1

CPS = Unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka gommen. CPS+ = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka gommen med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser. CPH = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka och hårda gommen. CPH+ = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka och hårda gommen med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser.

Velofarynxfunktion

Vid jämförelse inom CP-gruppen avseende andel VPI-symtom framkom signifikanta skillnader på både ord- och meningsnivå (tabell 9). Vid parvis jämförelse inom CP-gruppen och efter korrektion av p-värden framkom det att CPH+ hade en signifikant högre andel VPI-symtom än CPS och CPH på både ord- och meningsnivå (tabell 10).

Avseende nasalansvärde mätt med Nasometer™ framkom inga signifikanta skillnader inom CP-gruppen (tabell 9). Det framkom heller inga signifikanta skillnader inom CP-gruppen avseende övergripande bedömning av velofarynxfunktion, ($H= 7,25$, $p=.06$) (figur 2).



Figur 2

Stapeldiagram för jämförelser inom gruppen med isolerad gomspalt avseende skattad övergripande velofarynxfunktion (0-2). Y-axeln visar antal deltagare inom grupperna.

CPS = Unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka gommen. CPS+ = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka gommen med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser. CPH = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka och hårda gommen. CPH+ = unga vuxna födda med isolerad gomspalt i mjuka och hårda gommen med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser.

Förståelighet

Vid jämförelser inom CP-gruppen avseende förståelighet med SWINT fanns signifikanta skillnader på ordnivå men ej på meningsnivå (tabell 9). Vid parvisa jämförelser och efter korrektion av p-värde avseende SWINT ordnivå framkom det att CPS+ hade signifikant lägre förståelighet än CPS (tabell 10).

Diskussion

Resultatet i föreliggande studie visade att unga vuxna födda med isolerad gomspalt hade ett mer avvikande tal avseende artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet jämfört med kontrollgrupp utan spalt. Det fanns skillnader bland unga vuxna födda med isolerad gomspalt avseende artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet beroende på förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser, men ej beroende på spaltstorlek. Unga vuxna födda med isolerad gomspalt skattade sitt eget tal och sin egen kommunikativa förmåga mer positivt jämfört med unga vuxna födda utan spalt.

Unga vuxna födda med isolerad gomspalt (CP-gruppen) presterade sämre än kontrollgruppen på både AKOK och PCC, men vid jämförelse mellan grupperna avseende AKOK var skillnaden större än vid jämförelse avseende PCC. Skillnaden mellan måtten AKOK och PCC är vad som räknas som korrekt och inkorrekt artikulation. Vid beräkning av PCC räknas artikulationen som korrekt så länge som målfonemet uttalas korrekt (Shriberg & Kwiatkowski, 1982). Vid beräkning av AKOK räknas artikulationen som korrekt när målfonemet uttalas korrekt utan att passiva talavvikelser förekommer (Lohmander et al, 2015). Det lägre AKOK-värdet förklaras därmed sannolikt av högre förekomst av passiva talavvikelser, det vill säga påverkan på gomfunktionen. PCC-värdet är alltså väsentligt högre än AKOK-värdet eftersom PCC inte försämras av passiva talavvikelser i samma utsträckning som AKOK. Passiva talavvikelser kan uppstå till följd av nedsatt velofarynxfunktion (Heningsson et al, 2008). Detta kan förklara den höga förekomsten av passiva talavvikelser och låga AKOK-värdet hos CP-gruppen, då de hade en mer nedsatt velofarynxfunktion än kontrollgruppen. Becker et al (2000) fick liknande resultat där talavvikelser relaterade till velofarynxfunktion var de mest förekommande talavvikelserna hos vuxna födda med isolerad gomspalt; velofaryngeala friktionsljud förekom bland 30% av deltagarna och hypernasalitet förekom bland 79% av deltagarna (Becker et al, 2000). I en tidigare studie har man sett att oral tillbakadragen artikulation förekom hos 46% bland femåringar födda med isolerad gomspalt (Persson et al, 2002). Becker et al (2000) visade att oral tillbakadragen artikulation endast förekom hos 1 av 66 (1,5%) vuxna personer födda med isolerad gomspalt. I föreliggande studie framkom oral tillbakadragen artikulation endast på ordnivå och hos 4 av 40 (10%) unga vuxna födda med isolerad gomspalt. Oral tillbakadragen artikulation uppstår vanligtvis till följd av öppning mellan mun- och näshåla i form utav en fistel eller restspalt (Lohmander et al, 2015). I föreliggande studie har endast personer med spalt i mjuka gommen uppvisat oral tillbakadragen artikulation, vilket låter motsägelsefullt då restspalt eller fistel i regel endast förekommer efter tvåstegsoperation av spalt som innefattar mjuka och hårda gommen (Klintö et al, 2020). Samtliga förekomster av oral tillbakadragen artikulation förekom i form av att fonemet /s/ flyttats bak till palatalt artikulationsställe. Dessa förekomster av oral tillbakadragen artikulation bör inte bero på oförmåga att sluta tätt mellan näs- och munhåla, utan istället tolkas endast som avvikande s-ljud. En anledning

till varför oralt tillbakadragen artikulation har bedömts förekomma hos deltagarna med spalt i mjuka gommen kan bero på att 3 av 4 deltagare hade syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser. Bland grupperna med syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser förekom bland annat språkförsening och utvecklingsförsening vilket kan ha orsakat förekomsten av avvikande s-ljud. Om oralt tillbakadragen artikulation i föreliggande studie istället endast tolkas som s-avvikelser, så förekommer inte oralt tillbakadragen artikulation alls hos någon av de unga vuxna födda med isolerad gomspalt. Denna tolkning av resultatet skulle således stämma mer överens med resultatet från Becker et al (2000). I föreliggande studie förekom s-avvikelser hos 8 av 40 (20%) unga vuxna födda med isolerad gomspalt, vilket stärks av det liknande resultatet från Becker et al (2000) där s-avvikelser (sigmatism) förekom bland 10 av 66 (15%) vuxna födda med isolerad gomspalt. Tidigare forskning har visat att s-avvikelser förekommer hos 10% av 19-åringar utan dokumenterade talsvårigheter (Lohmander, Lundeborg & Persson, 2017b). Utifrån föreliggande studies resultat kan man förvänta sig att s-avvikelser hos personer med isolerad gomspalt förekommer i en större utsträckning än hos personer födda utan spalt. Den deskriptiva analysen i föreliggande studie visade att icke-oral avvikelser förekom hos 2 av 40 (5%) unga vuxna födda med isolerad gomspalt, vilket är mindre än vad som redovisades av Becker et al (2000) där 12 av 66 (18%) vuxna födda med isolerad gomspalt hade glottal artikulation.

Lågt AKOK-värde, hög förekomst av passiva talavvikelser och förekomst av icke-oral avvikelser kan bero på nedsatt velofarynxfunktion (Lohmander et al, 2015). Unga vuxna födda med isolerad gomspalt visade sig ha en mer nedsatt velofarynxfunktion än kontrollgruppen både vid mätning av nasalansvärden mätt med Nasometer samt vid övergripande bedömning av velofarynxfunktion. Hos unga vuxna födda med isolerad gomspalt förekommer således artikulationsavvikelser relaterade till nedsatt velofarynxfunktion i högre grad än hos unga vuxna födda utan spalt. Trots att CP-gruppen presterade sämre jämfört med kontrollgruppen gällande förståelighet så uppnådde CP-gruppen relativt bra resultat med över 92% korrekta ord på både ord och meningsnivå. Detta stärks av tidigare forskning som visat att majoriteten (94%) av vuxna födda med isolerad gomspalt har en god förståelighet, trots att artikulationen bedömts som lätt till måttligt avvikande (Becker et al, 2000). Hos vuxna födda med unilateral och bilateral LKG är förekomsten av talavvikelser relativt låg, men vid jämförelse med vuxna utan spalt är talavvikelser relaterade till nedsatt velofarynxfunktion fortfarande mer förekommande (Helmrot & Klintberg, 2014; Morén et al, 2017). Detta resonemang stämmer överens med föreliggande studies resultat och visar att även om personer födda med isolerad gomspalt genomgår full nödvändig behandling från födsel så kan avvikelser gällande artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet fortfarande förekomma i ung vuxen ålder.

Samtliga subgrupper hade ett medelvärde som var lägre än 96.4% på AKOK ord och meningar vilket är mer än 2 standardavvikelser under normvärden för 19-åringar (Lohmander et al, 2017b). Lågst medelvärdet syntes i grupperna som hade syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser (CPS+, CPH+). Att dessa grupper (CPS+, CPH+) presterade lägre jämfört med grupperna utan syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser (CPS och CPH) är en trend som genomsyrar flera delar av resultatet i föreliggande studie. De låga resultat som subgrupperna fick på AKOK berodde troligen på förekomsterna av passiva talavvikelser (nedsatt velofarynxfunktion) snarare än artikulation då samtliga subgrupper presterade bättre på PCC. Grupperna som

hade syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser (CPS+, CPH+) hade lägre PCC-värde och en högre förekomst av passiva talavvikelser jämfört med övriga subgrupper (CPS, CPH). Den övergripande bedömningen av velofarynxfunktion visade att en tredjedel inom CP-gruppen bedömdes ha marginellt otillräcklig velofarynxfunktion, där majoriteten (10 av 13) var personer födda med syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser (CPS+, CPH+). Det var endast fyra personer inom grupperna som hade syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser (CPS+ n=2, CPH+ n=2) som hade bedömts ha otillräcklig (inkompetent) velofarynxfunktion (velofarynxinsufficiens). Möjligen skulle det kunna vara så att inkompetent velofarynxfunktion hos deltagarna i CPS+ och CPH+ kan bero på neurologiska orsaker snarare än spalten i sig då inkompetent velofarynxfunktion kan förekomma i samband med neurologiska tillstånd (Goudy et al, 2012; Shprintzen et al, 1981). Tidigare forskning har visat att artikulation och velofarynxfunktion påverkas negativt av en större spalt (Lohmander-Agerskov et al, 1993; Nyberg et al, 2010). Det fanns inga avgörande skillnader avseende artikulation, velofarynxfunktion eller förståelighet vid jämförelse mellan grupperna utifrån spaltstorlek (CPH-CPS samt CPS+-CPH+). Att föreliggande studies resultat skiljer sig från tidigare forskning kan bero på att artikulation och velofarynxfunktion i vuxen ålder möjligen påverkas mindre av spaltstorlek än förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser. Föreliggande studies resultat indikerar således att syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser är en mer avgörande faktor för nedsatt artikulationsförmåga och velofarynxfunktion i vuxen ålder än spaltstorlek. Vidare kunde man se att gruppen med spalt i mjuka gommen med förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser (CPS+) hade en sämre förståelighet jämfört med gruppen med spalt i mjuka gommen (CPS) vilket skulle kunna tyda på att förekomsten av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser kan ha en negativ inverkan även på förståeligheten. Detta resultat samstämmer med resultatet i en tidigare studie av Feragen, Aukner, Særvold och Hide (2017) där man undersökte talet och läsförmågan hos 10-åriga barn med total LKG och isolerad gomspalt där deltagarna med syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser hade en mer nedsatt förståelighet, tal- och läsförmåga jämfört med grupperna utan syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser (Feragen et al, 2017). I studien av Feragen et al (2017) fanns inga avgörande skillnader mellan grupperna beroende på spaltstorlek, vilket också stämmer överens med föreliggande studies resultat (Feragen et al, 2017).

Unga vuxna födda med isolerad gomspalt (CP) skattade sig lägre än kontrollgruppen utan spalt på flera delar vid självskattning av kommunikativ förmåga. Detta innebär att CP-gruppen upplever sitt tal och sin kommunikation som mer positiv än kontrollgruppen. CP-gruppen upplevde påståenden ur delarna som berörde aktivitet och delaktighet samt person- och omgivningsfaktorer som mer positiva än kontrollgruppen. Gällande talets och kommunikationens funktion hade båda grupperna lika positiva upplevelser av sitt egna tal och kommunikation. Resultaten från föreliggande studie avseende självskattning av kommunikativ förmåga stämmer överens med tidigare studier där personer födda med LKG hade en mer positiv inställning till den egna kommunikativa förmågan än personer födda utan spalt (Havstam, Lohmander, Dahlgren Sandberg & Elander, 2009; Olsson & Rutgersson, 2010). Denna skillnad skulle eventuellt kunna bero på att deltagarna födda med LKG har haft större tal- och kommunikationssvårigheter som barn och därmed skulle vara mer positivt inställda till sin tal- och kommunikationsförmåga som vuxna, eftersom det eventuellt har skett en

markant förbättring under uppväxten. Delarna som handlade om aktivitet och delaktighet samt person- och omgivningsfaktorer kan eventuellt ha skattats högt av unga vuxna födda utan spalt för att man menar att man exempelvis blir nervös när man talar inför grupp eller liknande. Deltagare födda utan spalt kan på så vis eventuellt ha skattat påståenden utifrån andra faktorer än hur funktionellt talet i sig faktiskt upplevs vara. Utifrån resultatet från samtliga delar i formuläret kan man se att CP-gruppen upplever sig ha ett funktionellt tal och att talet inte upplevs som ett hinder för aktivitet, delaktighet, person- och omgivningsfaktorer eller sociala situationer i vardagen.

Föreliggande studie utgjordes av 40 unga vuxna födda med isolerad gomspalt och 41 deltagare utan spalt med jämn fördelning avseende ålder och kön. Studien redovisar detaljerade bedömningar av artikulation, velofarynxfunktion och förståelighet utifrån fonetisk transkription (bedömning av artikulation), ortografisk transkription (bedömning av förståelighet), bedömning av gomfunktion, nasalansvärden mätt med Nasometer och självskattning av kommunikativ förmåga. Samtliga bedömningsmetoder har visat på hög validitet och reliabilitet. Flera mått på artikulation har tagits fram vilket stärker resultatens trovärdighet och gör det möjligt att jämföra resultatet med övrig forskning inom området, såväl nationellt som internationellt. När unga vuxna födda med isolerad gomspalt skulle delas in i subgrupperna CPS, CPS+, CPH och CPH+, utifrån spaltstorlek och förekomst av syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser, fördes en diskussion kring vad som skulle räknas som en medfödd avvikelse för att ingå i +-grupperna. Författarna drog medvetet en något hård gränsdragning som innebar att nästan samtliga deltagare med ytterligare medfödda avvikelser ingick i någon utav +-grupperna. Motiveringen till detta var att de eventuella talavvikelserna inom subgrupperna CPS och CPH endast skulle bero på den isolerade gomspalten. Ytterligare medfödda avvikelser som förekom enskilt hos deltagare och som inte ingick i +-grupperna var exempelvis hörselnedsättning eller synnedsättning. Subgrupperna inom unga vuxna födda med isolerad gomspalt hade få deltagare ($n=6-12$) och relativt ojämn könsfördelning. Detta ses som en av studiens svagheter då resultaten vid dessa jämförelser är svåra att generalisera till en större population. Detta är ett svårlöst problem inom forskningsområdet då personer födda med LKG är en relativt liten patientgrupp. Vidare saknades det uppgifter om hur många inom CP-gruppen som hade genomgått logopedisk behandling eller talförbättrande kirurgi (ex. svalglambå). Detta hade varit intressant information att ta i beaktning vid analys av talavvikelser bland unga vuxna födda med isolerad gomspalt för att kunna få en tydligare bild av vilka faktorer som påverkar talet hos denna grupp. Resultaten från föreliggande studie bör därmed tolkas med försiktighet. Några deltagare ur kontrollgruppen bedömdes som svårförståeliga trots att det inte fanns några dokumenterade talsvårigheter. Möjligen kan lässvårigheter hos deltagarna inom både CP-gruppen och kontrollgruppen ha påverkat deltagarnas prestation vid bedömning av förståelighet. Hörselnedsättning kan eventuellt ha påverkat deltagarnas prestation på SVANTE meningar då deltagarna sa meningarna på eftersägning. Även flerspråkighet är en faktor som kan ha påverkat lyssnarnas bedömningar vid fonetisk transkription då fonem kan produceras på olika sätt i olika språk.

Författarna kan ses som erfarna lyssnare avseende avvikande tal, då viss träning har skett under utbildningen på logopedprogrammet, men för att öka studiens trovärdighet genomgick författarna samstämmighetsträning och övade på fonetisk transkription med

en erfaren logoped innan transkriberingarna påbörjades. Detta ser författarna som en styrka med studien som bekräftas av den relativt höga inter- och intra-bedömarreliabiliteten som framkom mellan författarna. Logopeder med erfarenhet inom området har bidragit med sina bedömningar gällande övergripande velofarynxfunktion, vilket stärker resultatens reliabilitet ytterligare. Inspelningarnas ljudkvalitet varierade mellan deltagarna och bakgrundsljud kan möjligen ha påverkat bedömningarna i en mindre utsträckning. Författarna anser att ljudkvaliteten inte hade någon större inverkan vid bedömning av förståelighet men att det möjligen påverkat bedömningen av artikulation då en del bakgrundsljud och biljud från mikrofonen stundvis var svårt att särskilja från passiva talavvikelser. Detta i kombination med att några deltagare var förkylda vid testning kan vara en förklaring till varför passiva talavvikelser bedömdes förekomma hos enstaka deltagare i kontrollgruppen. Det förekom även ledtrådar i inspelningens bakgrundsljud som gav en indikation på gruppstillhörighet. Om författarna inte hade vetat om att datainsamlingen för kontrollgruppen skett via gymnasieskolor så hade bakgrundsljudet möjligen inte varit lika informativt.

Vid testning av förståelighet och vid mätningar av nasalansvärden med nasometer förekom bortfall, endast inom CP-gruppen. Tre av 5 bortfall på förståelighet respektive 7 av 10 bortfall på mätningar med nasometer var personer födda med syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser. Detta kan påverka resultatets tillförlitlighet och eventuellt problematisera möjligheten att generalisera resultatet till en större population. Föreliggande studie visade att nedsatt velofarynxfunktion kan vara den största anledningen till avvikande artikulation och nedsatt förståelighet bland unga vuxna födda med isolerad gomspalt vid jämförelse med unga vuxna födda utan spalt. Nedsatt velofarynxfunktion var därtill mer förekommande hos personer födda med syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser, vilket gör att denna grupp förefaller ha större risk för avvikande tal i vuxen ålder. Föreliggande studie stärks av tidigare forskning där man undersökt talet hos personer födda med isolerad gomspalt (Becker et al, 2000; Johannisson et al, 2014; Persson et al, 2002). Dock finns det relativt stora skillnader avseende studiernas utformning såsom testgruppens ålder, användning av kontrollgrupp utan spalt och val av bedömningsmetoder. Becker et al (2000) bedömde samtliga variabler utifrån skattningsskalor medan författarna i föreliggande studie använde sig utav mer valida och reliabla metoder, såsom exempelvis transkription vid bedömning av artikulation och förståelighet.

Utifrån ett ICF-perspektiv visade resultatet på att deltagarna födda med isolerad gomspalt hade påverkad kroppsfunktion vad gäller artikulation och framförallt velofarynxfunktion, men trots detta så upplevde dem inte det som ett hinder för att delta i sociala situationer eller aktiviteter och de upplevde inte heller att kroppsfunktionen hade en negativ påverkan på hur andra människor bemötte dem.

Föreliggande studie har utifrån ett ICF-perspektiv tillfört en detaljerad beskrivning av hur talet fungerar och upplevs av unga vuxna födda med isolerad gomspalt med respektive utan syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser samt gett en indikation på hur prognosen för denna patientgrupp kan se ut. Föreliggande studie kan således ha betydelse både för forskare och kliniker samt personer som är födda med isolerad gomspalt och deras anhöriga. Författarna i föreliggande studie understryker behovet av vidare forskning kring vuxna personer födda med isolerad gomspalt där information om talträning, talförbättrande kirurgi, syndrom eller ytterligare medfödda avvikelser och

spaltstorlek redovisas och inkluderas samt att bedömningsmetoder som visar hög validitet och reliabilitet används. Naiva lyssnare skulle även med fördel kunna inkluderas för bedömning av förståelighet i framtida studier för att få en tydligare bild av hur förståeligheten uppfattas av oerfarna lyssnare i det vardagliga livet. Vidare studier är viktigt för att kunna nå en tydligare konsensus kring hur talförmågan hos personer födda med isolerad gomspalt utvecklas och för att kunna erbjuda dem bästa möjliga vård avseende tal och kommunikation.

Referenser

- Ahlberg, E., & Hansson, J. (2007). *Undersökning av kommunikativ funktion, aktivitet och delaktighet hos vuxna utan förvärvade talsvårigheter*. Opublicerad magisteruppsats i logopedi, Göteborgs universitet: Institutionen för neurovetenskap och fysiologi, Göteborg.
- Becker, M.M., Svensson, H., Sarnäs, K-V, Jacobsson, S. (2000). Von Langenbeck or Wardill procedures for primary palatal repair in patients with isolated cleft palate - Speech results. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive Surgery and Hand Surgery*, 34 (1), 27-32. <https://doi-org.ezproxy.ub.gu.se/10.1080/02844310050160141>
- Brunnegård, K., & Van Doorn, J. (2009). Normative data on nasalance scores for Swedish as measured on the Nasometer: Influence of dialect, gender, and age. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 23(1), 58-69. <https://doi.org/10.1080/02699200802491074>
- Brunnegård, K., & Lohmander, A. (2007) A Cross-Sectional Study of Speech in 10-Year-Old Children With Cleft Palate: Results and Issues of Rater Reliability. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, January, Vol. 44 No. 1. <https://doi.org/10.1597%2F05-164>
- Burg, M., Chai, Y., Yao, C., Magee, W., & Figueiredo, J. (2016). Epidemiology, Etiology, and Treatment of Isolated Cleft Palate. *Frontiers in Physiology*, 7, 67. <https://dx.doi.org/10.3389%2Ffphys.2016.00067>
- Chapman, K. & Willadsen, E. (2011). The development of speech in children with cleft palate. In Howard S, & Lohmander, A. (Red.). *Cleft palate speech: Assessment and Intervention*. Wiley Publ, UK.
- Coleman, JR. & Sykes, JM. (2001). The embryologi, classification, epidemiology and genetics of facial clefting. *Facial Plastic Surgery Clin North Am* 9, 1-13. PMID: 11464997
- Elander, A., Persson, C., Lilja, J., & Mark, H. (2017). Isolated cleft palate requires different surgical protocols depending on cleft type. *Journal of Plastic Surgery and Hand Surgery*, 51(4), 228-234. <https://doi-org.ezproxy.ub.gu.se/10.1080/2000656X.2016.1235579>
- Feragen, K., Aukner, R., Særvold, T., & Hide, Ø. (2017). Speech, language, and reading skills in 10-year-old children with palatal clefts: The impact of additional conditions. *Journal of Communication Disorders*, 66, 1-12. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jcomdis.2017.03.001>
- Goudy, S., Ingraham C., & Canady J. (2012). Noncleft Velopharyngeal Insufficiency: Etiology and Need For Surgical Treatment. *International Journal of Otolaryngology*, 2012, 88-90. <https://doi.org/10.1155/2012/296073>
- Gustafsson C., Heliövaara A., Leikola J. & Rautio J. (2018). Incidence of Speech-Correcting Surgery in Children With Isolated Cleft Palate. *The Cleft Palate -*

- Craniofacial Journal*, 55(8), 1115-1121. <https://doi.org.ezproxy.ub.gu.se/10.1177/1055665618760889>
- Hagberg, C., Larson, O. & Milerad, J. (1997). Incidence of Cleft Lip and Palate and Risks of Additional Malformations. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 35 (1), 40-45. [https://doi.org/10.1597/1545-1569\(1998\)035%3C0040:ioclap%3E2.3.co;2](https://doi.org/10.1597/1545-1569(1998)035%3C0040:ioclap%3E2.3.co;2)
- Harding, A., & Grunwell, P. (1998). Notes and Discussion Active versus passive cleft-type speech characteristics. *Int. J. Language & Communication Disorders*, 33(3), 329–352. <https://doi.org/10.1080/136828298247776>
- Hartelius, L., Elmberg, M., Holm, R., Lövberg, A-S., & Nikolaidis, S. (2007). Living with dysarthria: evaluation of a self-report questionnaire [elektronisk version]. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 60, 11-19. <https://doi.org/10.1159/000111799>
- 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*, 42(4), 182-189. <http://dx.doi.org/10.1080/02844310802055102>
- Helmrot, M. & Klintberg, S. (2014). *Undersökning av artikulation, nasalitet och förståelighet hos 16- och 19-åringar födda med isolerad gomspalt*. [Magisteruppsats, Göteborgs universitet]. Gothenburg University Publications Electronic Archive. Hämtad från <https://gupea.ub.gu.se/handle/2077/39910>
- Henningsson, G, Kuehn, DP, Sell, D, Sweeney, T, Trost-Cardamone, JE, & Whitehill, TL. (2008). Universal parameters for reporting speech outcomes in individuals with cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal : Official Publication Of The American Cleft Palate-Craniofacial Association*, 45(1), 1-17. <https://doi.org.ezproxy.ub.gu.se/10.1597%2F06-086.1>
- Hjelm, E., & Larsson, E. (2009). *Unga vuxna med unilateral läpp-, käk- och gomspalt – perceptuell bedömning och självskatning av tal och kommunikation*. Opublicerad magisteruppsats i logopedi, Göteborgs universitet: Institutionen för neurovetenskap och fysiologi, Göteborg. <http://hdl.handle.net/2077/26891>
- Hutters, B., & Brønstedt, K. (1987). Strategies in cleft palate speech with special reference to Danish. *Cleft Palate Journal*, 24(2), 126-136. ISSN: 0009-8701. PMID: 3472687 Version:1.
- Johannisson, T. B., Lohmander A. & Persson C. (2014) Assessing intelligibility by single words, sentences and spontaneous speech: A methodological study of the speech production of 10-year-olds. *Logopedics Phoniatrics Vocology*, 39 (4), 159-168, <https://doi.org/10.3109/14015439.2013.820487>
- Lagerberg, T., Hartelius, L., Johnels, J., Ahlman, A., Börjesson, A., & Persson, C. (2015). Swedish Test of Intelligibility for Children (STI-CH) - Validity and reliability of a computer-mediated single word intelligibility test for children. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 29(3), 201-215. <https://doi.org/10.3109/02699206.2014.987925>
- Lagerberg, T., Hellström, A., Lundberg, E., & Hartelius, L. (2019). An Investigation of the Clinical Use of a Single-Word Procedure to Assess Intelligibility (Swedish Test of Intelligibility for Children) and an Evaluation of the Validity and Reliability of the Intelligibility in Context Scale. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research : JSLHR*, 62(3), 668-681, https://doi.org/10.1044/2018_JSLHR-S-18-0018
- Lillvik M., Allemark E., Karlström P. & Hartelius L. (1999). Intelligibility of dysarthric speech in words and sentences: development of a computerised assessment procedure in Swedish. *Logopedics Phoniatrics Vocology*, 24 (3), 107-119. <https://doi.org/10.1080/140154399435057>

- LKG-registret. (21 September 2020). *Det nationella vårdprogrammet för LKG*. <https://lkg-registret.se/patientinformation/det-nationella-varldprogrammet-for-lkg>
- Lundwall, O., & Stenlund, R. (2017). *Talet hos unga vuxna födda med bilateral läpp-käk-gomspalt - En beskrivande och jämförande studie*. [Magisteruppsats, Göteborgs universitet]. Gothenburg University Publications Electronic Archive. <http://hdl.handle.net/2077/52636>
- Lohmander-Agerskov A., Havstam, C., Söderpalm E., Elander A., Lilja J., Friede H. & Persson E-C. (1993). Assessment of Speech in Children After Repair of Isolated Cleft Palate. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive Surgery and Hand Surgery*, 27 (4), 307-310. <https://doi.org/10.1080/02844311.1993.12005645>
- Lohmander A., Borell, E., Henningsson, G., Havstam, C., Lundeberg, I. & Persson, C. (2015). *SVANTE SVenskt Artikulations- och Nasalitets-TEst Manual*. Pedagogisk design.
- Lohmander, A., Hagberg, Persson, Willadsen, Lundeberg, Davies, . . . Nyberg. (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. <http://dx.doi.org/10.1080/02699206.2017.1302510>
- Lohmander A., Lundeberg 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, <https://doi.org/10.1080/02699206.2016.1205666>
- Lohmander, A., Persson, C., Willadsen, E., Lundeberg, I., Alaluusua, S., Aukner, R.,...Semb, G. (2017c). Scandcleft randomised trials of primary surgery for unilateral cleft lip and palate: 4. Speech outcomes in 5-year-olds - velopharyngeal competency and hypernasality. *Journal of Plastic Surgery and Hand Surgery*, 51(1), 27–37. <https://doi.org/10.1080/2000656X.2016.1254645>
- Kappen, I. F. P. M., Bittermann, D., Janssen, L., Bittermann, G. K. P., Boonacker, C., Haverkamp, S., . . . Mink van Der Molen, A. B. (2017). Long-Term Follow-Up Study of Young Adults Treated for Unilateral Complete Cleft Lip, Alveolus, and Palate by a Treatment Protocol Including Two-Stage Palatoplasty: Speech Outcomes. *Archives of Plastic Surgery*, 44(3), 202-209. <https://doi.org/10.5999/aps.2017.44.3.202>
- Klintö, Karsten, Marcusson, Paganini, Rizell, Cajander, . . . Becker (2020). Coverage, reporting degree and design of the Swedish quality registry for patients born with cleft lip and/or palate. *BMC Health Services Research*, 20(1), 528. <http://dx.doi.org/10.1186/s12913-020-05389-x>
- Marcusson, A., Åkerlind, I., & Paulin, G. (2001). Quality of life in adults with repaired complete cleft lip and palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 38(4), 379-385. [https://doi.org/10.1597/1545-1569\(2001\)038%3C0379:QOLIAW%3E2.0.CO;2](https://doi.org/10.1597/1545-1569(2001)038%3C0379:QOLIAW%3E2.0.CO;2)
- Miller, N. (2013). Measuring up to speech intelligibility. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 48(6), 601-612. <https://doi.org.ezproxy.ub.gu.se/10.1111/1460-6984.12061>
- Morén, S., Mani, M., Lilian, S., Lindestad, P., & Holmström, M. (2017). Speech in Adults Treated for Unilateral Cleft Lip and Palate: Long-Term Follow-Up After One- or Two-Stage Palate Repair. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 54(6), 639-649. <https://doi.org.ezproxy.ub.gu.se/10.1597%2F15-037>
- Mossey, P., Little, J., Munger, R., Dixon, M., & Shaw, W. (2009). Cleft lip and palate. *The Lancet (British Edition)*, 374(9703), 1773-1785. [https://doi.org/10.1016/s0140-6736\(09\)60695-4](https://doi.org/10.1016/s0140-6736(09)60695-4)

- Nyberg, J., Westberg L. R., Neovius, E., Larson, O., & Henningsson G., (2010). Speech Results After One-Stage Palatoplasty With or Without Muscle Reconstruction for Isolated Cleft Palate. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, January, Vol. 47 No. 1. <https://doi.org/10.1597/08-222.1>
- Olsson, C., & Rutgersson, J. (2010). *Förståelighet och självskattad kommunikativ förmåga hos unga vuxna födda med och utan läpp-käk-gomspalt*. [Magisteruppsats, Göteborgs universitet]. Gothenburg University Publications Electronic Archive. Hämtad från: <https://gupea.ub.gu.se/handle/2077/26916>
- Persson, C., Elander, A., Lohmander-Agerskov, A., & Söderpalm, E. (2002). Speech outcomes in isolated cleft palate: Impact of cleft extent and additional malformations. *Cleft Palate-Craniofacial Journal : Official Publication Of The American Cleft Palate-Craniofacial Association*, 39(4), 397-408. <https://doi.org/10.1597/1545-1569.2002.039.0397.soicp.2.0.co.2>
- Persson, C., Lohmander, A., & Elander, A. (2004). Speech in children with an isolated cleft palate: A longitudinal perspective. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 43(3), 295-309. <http://dx.doi.org/10.1597/04-071>
- Shprintzen, R.J. (1997). *Genetics, Syndromes and Communication Disorders*: Singular Publishing Group, Inc. ISBN : 1565936205
- Shprintzen, R., Goldberg, R., Young, D., & Wolford, L. (1981). The velo-cardio-facial syndrome: A clinical and genetic analysis. *Pediatrics*, 67(2), 167-172. ISSN: 0031-4005. PMID: 7243439 Version:1.
- Shprintzen, R., Siegel-Sadewitz, V., Amato, J., Goldberg, R., Opitz, J., & Reynolds, J. (1985). Anomalies associated with cleft lip, cleft palate, or both. *American Journal of Medical Genetics*, 20(4), 585-595. doi: 10.1002/ajmg.1320200404
- Shriberg LD & Kwiatkowski J. (1982). Phonological disorders III: a procedure for assessing severity of involvement. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 47. 256–70. <https://doi.org/10.1044/jshd.4703.256>
- Socialstyrelsen (2021). Klassifikation av funktionstillstånd, funktionshinder och hälsa. Tillgänglig vid: <https://www.socialstyrelsen.se/utveckla-verksamhet/e-halsa/klassificering-och-koder/icf/>
- Whitehill, T., & Chau, C. (2004). Single-word intelligibility in speakers with repaired cleft palate. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 18(4-5), 341-355. <https://doi.org/10.1080/02699200410001663344>
- Willadsen, E., Lohmander, A., Persson, C., Lundeborg, I., Alaluusua, S., Aukner, R., Bau, A.,... Semb, G. (2017). Scandicleft randomised trials of primary surgery for unilateral cleft lip and palate: 5. Speech outcomes in 5-year-olds-consonant proficiency and errors, *Journal of Plastic Surgery and Hand Surgery*, 51:1, 38-51, <https://doi.org/10.1080/2000656X.2016.1254647>
- Yorkston, K. M., Strand, E. A., & Kennedy, M. R. T. (1996). Comprehensibility of dysarthric speech: implications for assessment and treatment planning. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 5, 55-66. <https://doi.org/10.1044/1058-0360.0501.55>