



MEDICINSKA FAKULTETEN
Lunds universitet

Avdelningen för logopedi, foniatri och audiologi
Institutionen för kliniska vetenskaper, Lund

**Utvärdering av tillförlitligheten i taldata införda i
kvalitetsregistret för läpp-käk-gomspalt
– en pilotstudie**

Jan-Olof Malmborn

Logopedutbildningen, 2015
Vetenskapligt arbete, 30 högskolepoäng

Handledare: Kristina Klintö och Magnus Becker

SAMMANFATTNING

Utvärdering av tillförlitligheten i taldata införda i kvalitetsregistret för läpp-käk-gomspalt – en pilotstudie

Inledning: Sedan 1999 har uppgifter om behandlingsresultat förts in i det svenska kvalitetsregistret för läpp, käk och gomspalt (LKG). Syftet med denna studie var att utvärdera tillförlitligheten av taldata i registret.

Metod: Inspelningar av 10 barn analyserades. Barnen hade vid 5 års ålder bedömts och registrerats i det svenska kvalitetsregistret för LKG av författaren mellan år 2006-2008. Författaren och två logopedier från två andra LKG-centra bedömde 2014 på nytt inspelningarna. Talet hos samtliga barn hade undersökts med Svenskt Artikulations- och Nasalitetstest (SVANTE). Variabler som undersöktes var andelen korrekt artikulerade orala konsonanter, andelen talavvikelser framför och bakom velofarynx samt velofarynxfunktion. Överensstämmelse inom och mellan bedömare beräknades med ICC (Intraklasskorrelationskoefficienten) och Kappa.

Resultat: Överensstämmelsen inom och mellan bedömare var god för andelen korrekt artikulerade orala konsonanter och andelen talavvikelser framför och bakom velofarynx. ICC varierade mellan 0,88 – 0,94. Överensstämmelsen var något lägre mellan uppgifter i kvalitetsregistret och författarens nya bedömningar (0,76 – 0,89). Överensstämmelsen avseende velofarynxfunktion varierade från låg till utmärkt (Kappa mellan 0,4 och 1).

Slutsats: Data i kvalitetsregistret för konsonantproduktion tycks vara tillförlitlig, medan tillförlitligheten i uppgifterna för velofarynxfunktion varierar. Resultaten behöver verifieras i en större studie. Möjliga metodologiska variabler som kan ha påverkat resultaten diskuteras, liksom förslag på hur tillförlitligheten i de uppgifter som förs in i registret kan förbättras.

Sökord: talutvärdering, procent korrekt artikulerade orala konsonanter, velofarynxfunktion, tillförlitlighet, kvalitetsregister, LKG

ABSTRACT

Evaluation of reliability of speech data in the Swedish quality register for cleft lip and palate – a pilot study

Introduction: Since 1999, data on treatment results is entered in the Swedish quality register for cleft lip and palate (CLP). The purpose of this study was to evaluate the reliability of the speech data in the register.

Methods: Recordings of 10 children were analysed. The children had been assessed and registered in the Swedish quality register for CLP at 5 years of age, in consecutive order, by the author. The author and two external speech pathologists from two other CLP centres re-assessed the recordings. Outcome measures were percent correct oral consonants, percent errors in front of and behind velofarynx, and velopharyngeal function. Agreement within and between judges was assessed.

Results: The intra and inter agreement was good for percent correct oral consonants and percent errors in front of and behind velofarynx, with intra class correlation coefficients varying from 0.880 to 0.935. For the same outcomes, the agreement was slightly lower between the data entered in the register by the author and the author's assessments based on recordings. The agreement regarding velofaryngeal function with Kappa varied from very good to low (0.4-1). **Conclusion:** The data on consonant production seems to be reliable, whereas the reliability of data on velopharyngeal function varies, but the results need to be verified in a larger study. Possible methodological variables that may have influenced the results are discussed, as well as how to improve the reliability of the data in this register.

Key Words: speech evaluation, percentage correctly articulated consonants, velopharyngeal function, reliability, quality register, CLP

INNEHÅLLSFÖRTECKNING

	Sid
1. INLEDNING.....	1
2. BAKGRUND.....	1
2.1. Läpp-käk-gomspalt (LKG).....	1
2.2. Behandling av barn med LKG.....	2
2.3. Kvalitetsregistret för LKG.....	4
2.4. Tal vid LKG.....	5
2.4.1 Velofarynxfunktionen.....	5
2.4.2 Olika typer av talavvikelser vid LKG.....	6
2.5. Utredning av talavvikelser vid LKG.....	8
2.5.1 Perceptuell bedömning.....	8
2.5.2 Svårigheter med perceptuell bedömning.....	9
2.5.3 Metoder för beräkning av samstämmighet.....	10
3. SYFTE.....	11
4. METOD.....	12
4.1 Deltagare.....	12
4.2 Etiska övervägande.....	12
4.3 Talmaterial.....	13
4.4 Inspelning och redigering.....	13
4.5 Taldata från kvalitetsregistret.....	13
4.6 Perceptuell bedömning och analys.....	14
4.7 Statistisk analys.....	14
5. RESULTAT.....	15
5.1 Andel korrekt artikulerade orala konsonanter.....	15
5.1.1 Intrabedömarreliabilitet.....	15
5.1.2 Interbedömarreliabilitet.....	15
5.2 Andel talavvikelser framför velofarynx.....	16
5.2.1 Intrabedömarreliabilitet.....	16
5.2.2 Interbedömarreliabilitet.....	16
5.3 Velofarynxfunktion.....	17
5.3.1 Intrabedömarreliabilitet.....	17
5.3.2 Interbedömarreliabilitet.....	18
6. DISKUSSION.....	19
6.1 Resultaten i relation till tidigare studier.....	29
6.2 Talmaterialets inverkan på samstämmigheten.....	20
6.3 Metoder för beräkning av samstämmighet.....	20
6.4 Förslag till förbättringar vid framtida datainsamling.....	21
7. TACK.....	22
8. REFERENSER.....	22

APPENDIX: 1. Certifieringsnivåer
2. Speech Protocoll

1. INLEDNING

Varje år föds ca 200 svenska barn med någon typ av läpp-käk-gomspalt (LKG) (Hagberg, Larson, & Milerad, 1998). Sedan 60-talet är behandlingen i Sverige centraliserad till regionala centra. Det finns inte tillräcklig evidens för vilka behandlingsmetoder som fungerar bäst och operationsmetoderna varierar mellan landets olika centra, precis som de gör det internationellt (Lohmander, 2011). Sedan 1999 förs data över kliniska behandlingsresultat in i det nationella kvalitetsregistret för LKG. Kvalitetsregister syftar till att säkerställa en god behandlingskvalitet och möjliggör jämförelser av resultat mellan olika landsting och sjukhus (Riksrevisionen, 2013). Under SwedeCleft-mötet (en riksträff för Sveriges samtliga LKG-team) i Stockholm 2013, lämnades en första rapport om taldata i kvalitetsregistret vid 5 och 10 års ålder (Malmborn, Sporre, Klintö, Svensson & Becker, 2013). Resultatet diskuterades och det framkom tydligt att det fanns ett behov av att utvärdera kvalitetsregistrets taldata. Då uppgifterna är inhämtade inom ramen för den kliniska vardagen, och inte uppfyller normerna för vetenskaplig behandlingsutvärdering, kan tillförlitligheten i resultaten ifrågasättas (Sell, 2005).

2. BAKGRUND

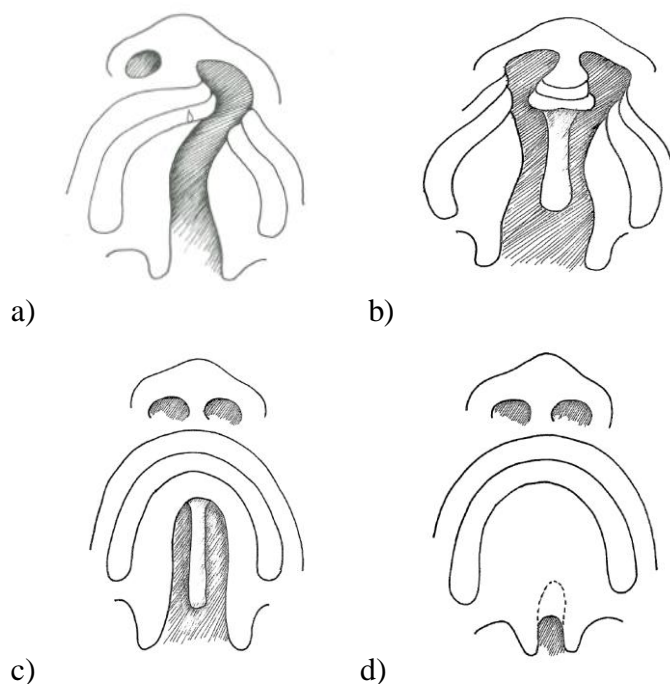
2.1 Läpp-käk-gomspalt (LKG)

LKG är den vanligaste medfödda ansiktsmissbildningen. Incidensen är ca 1,8 per 1000 födda barn (Hagberg et al., 1998; Mossey, 2007). Utöver de ca 200 barn med någon form av spalt som föds i Sverige varje år, tillkommer nyanlända barn med spalt, såväl adopterade barn som barn i invandrande familjer.

LKG är följden av att strukturer i ansikte/munhåla inte sluts under den första trimestern (vecka 4-10) av graviditeten (Mossey, Little, Munger, Dixon, & Shaw, 2009). Det finns olika typer av LKG och en vedertagen indelning är enkel- eller dubbelsidig spalt i läpp och/eller käke, enkel- eller dubbelsidig spalt i läpp, gom och käke (Figur 1a och 1b) och spalt isolerad till gommen med engagemang i mjuka och eventuellt även hårda gommen (Figur 1c och 1d). Spalten i gommen förekommer i ytterligare varianter såsom submukös gomspalt och ockult submukös gomspalt. I de senare är slemhinnan, dvs ytlagret, intakt och spalten finns i muskelvävnaden.

De flesta spalterna är isolerade missbildningar, men i ca 20 % av fallen är de en del i ett syndrom (Shprintzen, Siegel-Sadewitz, Amato & Goldberg, 1985). Uppgifterna gällande hur stor andel av barnen med spalt som även har andra missbildningar och/eller syndrom varierar mellan 22 och 72 % (Persson, 2004). I en litteraturgenomgång från 2012 angavs 21-61,2% av barnen med genomgående LKG (bilateral och unilateral) ha tillkommande missbildningar och/eller syndrom, medan motsvarande siffra för barn med enbart spalt i gommen var 22,2-78,3% (Maarse, Rozendaal, Pajkrt, Vermeij-Keers, Mink van der Molen & van den Boogaard, 2012).

LKG påverkar i olika omfattning tal- och bettutvecklingen och utseendet. Om gommen är involverad kan även örats funktion och hörseln påverkas. I allmänhet är logopedier endast inkopplade i de fall där spalten engagerar gommen, då en spalt i enbart läppen och käken sällan innebär betydande påverkan på talet.



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

2.2 Behandling av barn med LKG

Det finns olika överväganden i behandlingen vid LKG som motiverar ett tätt samarbete mellan olika professioner, t.ex. plastikkirurgernas och ortodontisternas tidpunkter och metoder för behandling och dess inverkan på ansiktstillväxt och utvecklingen av bett, tal och språk. Även hörseln kan tänkas inverka på talutvecklingen (Flynn & Lohmander, 2014; Roberts, Hunter, Gravel, Rosenfeld, Berman, Haggard & Wallace, 2004). Det finns kritiska perioder för tal- och språkutvecklingen som också måste beaktas i planeringen av framför allt plastikkirurgens behandling (Peterson-Falzone, 1996). Yrkeskategorierna värnar och ansvarar för sitt område i de gemensamma beslut om åtgärder som tas i behandlingens olika skeden. Olika yrkeskategorier samarbetar därför i multidisciplinära LKG-team, i vilka plastikkirurg, logoped, ortodontist, öronläkare, kurator och vårdpersonal ingår. Psykolog, barnläkare och genetiker deltar olika grad, både utifrån barnets behov och utifrån hur de olika teamen i Sverige är organiserade. Behandlingen av barn med LKG pågår under många år och patienterna följs enligt det nationella vårdprogrammet upp till 19 års ålder.

Den svenska LKG-vården har sedan 1960-talet varit centraliserad. I Sverige finns sex centra: Umeå, Uppsala-Örebro, Stockholm, Göteborg, Linköping och Malmö. LKG-teamen samarbetar i viss utsträckning med lokala vårdgivare på patienternas hemorter, t.ex. sköts ortodontisk och logopedisk behandling på hemorten, och på flera håll i Sverige finns även samarbete med öronläkare på hemorten.

På Europanivå i nätverket European Collaboration on Craniofacial Anomalies (Eurocran) har man fastställt att uppföljning åtminstone bör ske vid 3, 5, 10, 15-16 och 18-20 års ålder (Shaw, Semb, Nelson, Brattström, Molsted, Prahl-Andersen & Gundlach, 2001). I Sverige följs barnen via LKG-konferenser vid 5, 7, 10, 13, 16 och 19 års ålder,

men 13-årskonferensen är inte obligatorisk på samtliga orter. Nedanstående delar följs av respektive yrkesföreträdare:

- Operationsresultat utifrån estetik och funktion
- Käk- och bettutveckling
- Öron och hörsel
- Tal- och språkutveckling

I det tidiga omhändertagandet ges föräldrainsformation om hur en förmodad utveckling kan se ut för barnet. De nyblivna föräldrarna till barn med LKG kan även behöva stöd för att komma igång med matningen. Om läppen-käken är involverad kan prekirurgisk ortodontisk behandling vara aktuell, för att forma strukturerna så att de kommer i ett bättre läge inför läpp-näs-plastiken, så kallad molding (Barillas, Dec, Warren, Cutting, & Grayson, 2009).

Antalet operationer beror på omfattningen av spalten. Ett barn med en spalt som endast involverar gommen behöver i allmänhet endast en operation (gomplastik), medan barn med genomgående LKG genomgår åtminstone tre operationer (läpp-näsplastik, gomplastik och bentransplantation till käken). Tider för operationer och i viss mån metoder skiljer sig åt mellan centren i Sverige. Gemensamt är att primär läpp- och näsplastik genomförs i en operation mellan 3-6 månaders ålder. Gommen kan däremot slutas i en eller två seanser. I Malmö sker operationen i en seans vid 6 - 12 månaders ålder. Den primära gomplastiken syftar till att skapa tillräcklig längd på mjuka gommen och uppnå god velofaryngal funktion, d v s adekvat tillstängning mellan mjuka gommen (velum) och svalgväggarna (farynx) under tal. Samtidigt är målet att undvika postoperativa fistlar och att tillväxten av mellanansiktet ska påverkas så lite som möjligt. Bentransplantation till käken sker senare, vid 8 -10 års ålder, för att främja överkakens tillväxt.

Ytterligare sekundära plastikoperationer kan tillkomma av skilda orsaker, exempelvis i estetiskt eller talförbättrande syfte. Den talförbättrande operationen finns i olika varianter, men Velofarynxlambåplastiken är den mest förekommande i Sverige. I stora drag tas en vävnadsflik från bakre svalgväggen och fästes i mjuka gommen för att underlätta slutning av den oronasala passagen (Riski, 2011). Ett alternativ till velofarynxlambå är reoperation av gommen, där bakåtflyttning och rekonstruktion av levatormuskeln i mjuka gommen utförs (Sommerlad, 2003). I Malmö tas beslut om talförbättrande operation i samråd mellan plastikkirurg och logoped, efter utredningar hos logoped och röntgenläkare och i en del fall nasofiberskopiundersökning hos fonioter.

Hörseln hos barn födda med gomsplatt följs noga, eftersom barn födda med gomsplatt lättare får vätska stående i mellanörat. Detta beror på att örontrumpeten inte kan tryckutjämna på ett lika effektivt sätt som hos barn utan gomsplatt (Arnold, Nohadani, & Koch, 2005). Förekomsten av otit med vätska i mellanörat och därpå följande mild till måttlig hörselnedsättning har visat sig vara signifikant högre hos barn med enkelsidig LKG än hos jämnåriga utan gomsplatt (Aniansson, Svensson, Becker & Ingvarsson, 2002; Flynn, Moller, Jonsson, & Lohmander, 2009). I och med att hörselnedsättning försämrar perceptionen av tal är det tänkbart att otiter med vätska stående i mellanörat kan inverka negativt på utvecklingen av tal och språk (Roberts et al., 2004).

Logopedens insatser varierar något mellan olika centra, men på senare år har det nationella samarbetet medfört ökad likriktning i rutiner. LKG-centrat i Malmö har södra sjukvårdsregionen (Skåne, Kronoberg, Blekinge och södra delen av Hallands län) som upptagningsområde. I Malmö träffar logopeden barn och förälder om möjligt i samband med

operationerna. Den första rutinmässiga kontrollen av talet sker vid 18-månaders ålder. Nästa kontroll sker vid 3 års ålder tillsammans med LKG-teamets foniater. I de fall där bristande velofarynxfunktion misstänks kan det då bli aktuellt med remiss till röntgenundersökning för att undersöka velofarynxfunktionen under tal. Hos de barn där det tidiga talet och språket inte utvecklas som förväntat, förmedlas kontakt med logoped på hemorten för fortsatt uppföljning och eventuellt behandling. Det finns ingen evidens för att logopedbehandling kan påverka hypernasalitet i rätt riktning (Sweeney, 2011). Det finns heller inget starkt vetenskapligt stöd för någon specifik behandlingsmodell när det gäller språk- och talavvikelse hos barn födda med LKG (Bessell, Sell, Whiting, Roulstone, Albery, Persson & Ness, 2013).

2.3 Kvalitetsregistret för LKG

”De Nationella Kvalitetsregistren används integrerat och aktivt för löpande lärande, förbättring, forskning samt ledning och kunskapsstyrning för att tillsammans med individen skapa bästa möjliga hälsa, vård och omsorg” (Nationella kvalitetsregister, 2014). Syftet med Sveriges kvalitetsregister är att utifrån insamlad data kunna sprida god vårdpraxis med hjälp av de jämförelser mellan olika landsting och sjukhus som kan göras (Nationella kvalitetsregister, 2014).

I Sverige har Sveriges kommuner och landsting (SKL) hand om alla kvalitetsregister via Registercentrum (SKL, 2014). Kvalitetsregistret för LKG startades 1999. Det administrerades i Uppsala på ideell basis fram tills 2009. Därefter övertogs driften av Registercentrum Syd (Registercentrum Syd, 2015).

SKL har en certifieringsskala för register. I Appendix 1 finns definitioner för de olika certifieringsnivåerna. LKG-registret har nått vad man kallar en Registerkandidatnivå (K). Därefter följer nivåerna 3, 2 och 1. Kraven höjs utifrån nivåskillnaderna och 1 är den högsta nivån (SKL, 2014).

I LKG-registret för plastikkirurger, ortodontister och logopeder in data. Logopeder vid Sveriges LKG-centra för in uppgifter om talet vid 5, 10, 16 och 19 års ålder. Då registreringarna startade 1999, innebär det att 16-årsregistreringarna inleds under år 2015. Trots att det är 15 år sedan registret startade, har det inte gett en fullständig bild av behandlingsresultaten ännu. Den kunskap som registret genererar kommer således att växa i takt med att antalet patienter med totalt genomgången behandling ökar.

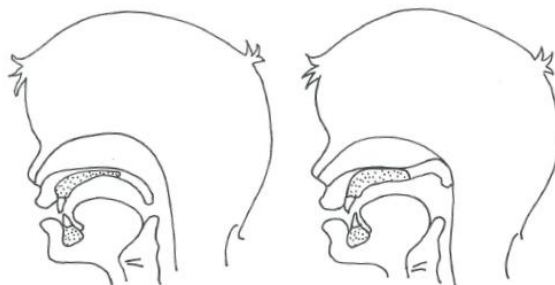
Även i andra länder pågår utveckling av nationella kvalitetsregister för LKG. I Storbritannien försöker man att hitta strukturerade sätt att göra uppföljningar på nationell nivå. Uppgifter ur den brittiska Crane-databasen har behandlats med målet att utveckla nationella rutiner för datainsamling och utvärdering av tal, med fokus på ökad evidens (Britton, Albery, Bowden, Harding-Bell, Phippen & Sell, 2014). I Norge har man nyligen startat ett nationellt kvalitetsregister för LKG (Helse Vest og Helse Sør-Øst, 2014). Nu pågår diskussioner om att anpassa de LKG-register som finns internationellt till den världsomspännande non-profit-organisationen International Consortium for Health Outcomes ramverk. Denna organisation har som mål att samla så många register som möjligt, för att kunna förbättra behandlingseffekten och kostnadseffektiviteten globalt, genom att dra nytta av den datainsamling som redan görs (International Consortium for Health Outcomes, 2014).

2.4 Tal vid LKG

Som en introduktion till tal vid LKG görs först en generell beskrivning av talproduktion. Utandningsluft pressas från lungorna upp till olika resonansrum och hinder, vilka alla bidrar till att forma talet (Lindblom, 2008). I struphuvudet bildas röst (fonation) genom att stämvecken sätts i svängning. Tonen formas sedan vidare på sin väg. I hålrummen, d.v.s. de orala, nasala och faryngala kaviteterna, bildas resonanser som färgar klangen. Språkljuden skapas genom att hinder sätts upp för luftströmmen och högt upp i talapparaten (munhålan) skapas merparten (Lohmander, Borell, Henningsson, Havstam, Lundeborg & Persson, 2015). Vokalerna bildas samtliga med fonation, medan konsonanterna kan delas in i de med fonation och de utan (tonlösa). Talet är muskulärt komplext. Över 80 muskler är engagerade i processen och de ska koordineras i timing och millimeterprecision (Lindblom, 2008). Valfungerande artikulation, d v s rörelser som med tungan, läpparna, gommen och käkarna formar språkljuden, är en förutsättning för en funktionell talproduktion.

2.4.1 Velofarynxfunktionen

Vid produktion av orala språkljud stängs passagen mellan mun- och näshåla, med hjälp av velum (mjuka gommen) och farynx (svalgväggar) (Figur 2). Under tal är det endast när nasala konsonanter produceras som luft ska strömma genom passagen. Velofarynxfunktionen består av ett komplicerat och automatiserat muskulärt arbete.



Figur 2. Till vänster, velofarynx i viloläge under andning. Till höger, velofarynx vid tillstängning. Illustration av Liisi Raud Westberg.

Om läckage till den nasala kaviteten förekommer under tal (Figur 3), blir klangen hypernasal och kan uppfattas som avvikande av lyssnaren. Vid kraftig hypernasalitet kan talet bli svår-förståeligt. Orsaker till nedsatt velofarynxfunktion kan vara anatomiska/strukturella, t.ex. gomspalt eller för kort mjuk gom i förhållande till svalgdjupet, men även försvagad muskelfunktion och/eller nedsatt styrning/samordning av muskelarbetet (Lohmander et al., 2015). Velofarynxfunktionen kan variera utifrån talmaterial. Exempelvis kan spontantal öka belastningen på artikulationen och velofarynxfunktionen. Hypernasaliteten tycks ofta tillta i spontantal jämfört med vid produktion av enskilda ord (Kummer, 2014).



Figur 3. Ofullständig velofarynxstängning. Illustration av Liisi Raud Westberg.

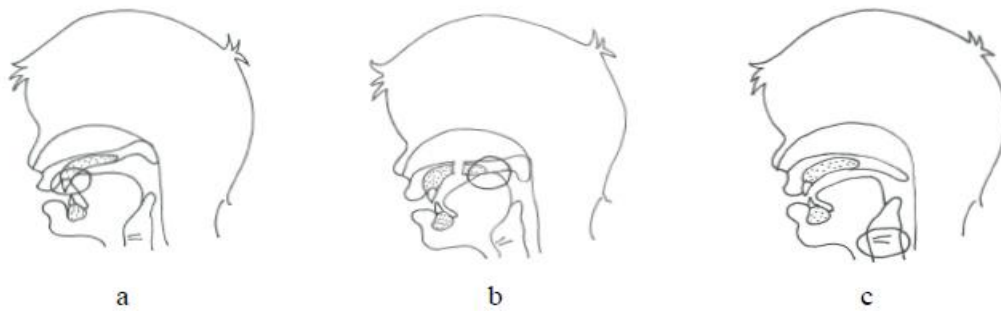
2.4.2 Olika typer av talavvikelser vid LKG

Talavvikelser hos personer födda med gomspalt kan indelas i aktiva och passiva avvikelser. Synsättet utvecklades först av Hutter och Brøndsted (1987) och vidareutvecklades sedan av Harding och Grunwell (1998).

Passiva talavvikelser uppstår då det finns en önskad förbindelse mellan munhålan och näskaviteten under tal. Orsaken kan vara nedsatt velofarynxfunktion, en fistel i operationsområdet eller en restspalt i käken och/eller hårda gommen som avsiktligt har lämnats för att slutas i senare ålder. Talet kan då bli hypernasalt och hörbart nasalt luftläckage kan förekomma. Hörbart nasalt luftläckage kan indelas i velofaryngala friktionsljud (vibrationsljud mellan mjuka gommen och svalgväggen) och nasala genomslag (en hörbar nasal luftström). Om det nasala luftläckaget är stort och talaren inte kan skapa det intraorala tryck som krävs för produktion av tryckstarka orala konsonanter blir artikulationen trycksvag. Konsonanterna blir då diffusa och ibland svåra att identifiera. Vid kraftigt trycksvag artikulation realiserar konsonanterna i det närmaste nasalt.

Då det finns ett önskat luftläckage till näshålan, p.g.a. av velofarynxinsufficiens, en fistel eller en restspalt, kan artikulationen förläggas till ett artikulationsställe bakom det önskade luftläckaget. Detta ses som en aktiv kompensatorisk process, som barnet använder för att undvika läckaget upp till näskaviteten och åstadkomma tryckstark artikulation (Henningsson & Isberg, 1990). De *aktiva* talavvikelserna kan sägas vara en kompensation i artikulationen för oförmågan att sluta tätt till den nasala kaviteten. Talaren ändrar då aktivt sin artikulation för att uppnå bästa möjliga resultat.

I Storbritannien, USA och Sverige klassificeras aktiva artikulationsavvikelser vid gomspalt utifrån lokalisering på olika sätt (Sell, 2005). Olika typerna måste tas i åtanke när internationella jämförelser görs. I det svenska systemet, som används i Svenskt Nasalitets- och Artikulationstest (SVANTE) (Lohmander et al., 2015), delas avvikelserna in i framför och bakom velofarynx. Mer information om SVANTE finns att läsa i metoddelen s 13. Majoriteten av avvikelserna vid LKG sker framför velofarynx (Klintö, Salameh, Olsson, Flynn, Svensson & Lohmander, 2014 a; Klintö, Salameh & Lohmander, 2015). Den vanligaste avvikelsen framför velofarynx är tillbakadragen oral artikulation, där oftast fonem med dentalt artikulationsställe (Figur 4 a) drabbas. Exempel på detta är när ett svenskt dentalt /t/ istället produceras på velart artikulationsställe, som /k/ (Figur 4 b). Andra typer av avvikelser framför velofarynx kan uppstå vid till exempel bettavvikelser som påverkar s-produktionen, men i vissa fall även vid produktion av bilabialer, till exempel när läpparna inte kan slutas på korrekt sätt (Kummer, 2014).



Figur 4. (a) Korrekt dental/alveolar artikulation. (b) Artikulation tillbakadragen till velart artikulationsställe. (c) Artikulation tillbakadragen till stämbandnivå. Illustration av Liisi Raud Westberg.

Avvikelser bakom velofarynx är mindre vanligt förekommande, men de stör förståeligheten på ett mera påtagligt sätt (Lohmander et al., 2015). Exempel på detta är när oral artikulation förläggs till stämbandnivå och artikulationen blir glottal (Figur 4 c). Den glottala artikulationen kan bestå både av klusil och frikativa. En annan avvikelse bakom velofarynx är faryngal artikulation. Fonemet produceras då med hjälp av att svalgets bak- och sidoväggar.

Förutom avvikelser som bedöms som direkt relaterade till spalten har barn födda med gomspalt visat sig ha högre förekomst av fonologiska förenklingsprocesser under förskoleåren än barn utan spalt (Chapman, 1993; Klintö et al., 2014 a; Klintö et al., 2015). Samtliga fonologiska förenklingsprocesser, förutom när en oral konsonant ersätts med /h/, klassificeras som talavvikelser framför velofarynx.

Den vanligaste aktiva talavvikelsen hos svenskspråkiga barn födda med enkelsidig LKG är dentala fonem som produceras vid velart artikulationsställe (Klintö et al., 2014a; Klintö et al., 2015). Bakåtflyttad artikulation kan förekomma hos barn utan spaltproblematik, men är sällsynt hos svenskspråkiga barn utan spalt och ses därför som en atypisk avvikelse (Lohmander, Borell, Henningsson, Havstam, Lundeborg & Persson, 2005). Enligt SVANTE-manualen är tillbakaflyttad oral artikulation sannolikt en artikulationsavvikelse orsakad av spalten, medan en framåtflyttad avvikelse mer troligt rör sig om en fonologisk förenklingsprocess (Lohmander et al., 2005).

I de normeringsstudier som gjorts gällande SVANTE (Lohmander et al., 2015) hade 5-åringar utan spalt och känd talavvikelse i genomsnitt 95.8% (standardavvikelse 4,8 %) i andel korrekt artikulerade orala konsonanter. Det kan jämföras med resultatet i en studie av 29 svenskspråkiga 5-åringar med enkelsidig LKG, där gruppens median för procent korrekt artikulerade orala konsonanter låg nära normmedelvärdet, men spridningen i gruppen var stor och åtta barn hade ett resultat som låg nära eller under 2 standardavvikelser från normmedelvärdet (Klintö et al., 2015).

Således finns det hos barn med LKG en ökad förekomst av problem med utveckling av tal och i viss mån även språk (Vallino-Napoli, 2011), men det är långt ifrån alla barn som får tal- och språkavvikelser. I en brittisk studie som omfattade 1110 inspelningar av tal hos 5-åringar med olika typer av gomspalt uppvisade 48 % ett tal helt utan anmärkning, och 60 % hade inga spaltrelaterade talavvikelser (Britton et al., 2014). I en internationell översikt av 14 studier av tal hos barn med LKG vid 5 års ålder noterades att mellan 45-83 % av barnen helt saknade

artikulatoriska avvikelser som kunde kopplas till spaltproblematiken (Lohmander, 2011). I samma översikt rapporterades 50 till 78 % av barnen ha typisk/normal nasalitet.

2.5 Utredning av talavvikelser vid LKG

Det finns både instrumentella och perceptuella sätt att utreda tal. Logopeden utför såväl en perceptuell bedömning av talet som instrumentell registrering av nasalitetsgraden i procent med nasometer (Key Elemetrics). I de fall där nasalitetsavvikelsen är betydande och talförbättrande operation kan bli aktuell, utförs i Malmö videoradiografisk undersökning av velofarynxfunktionen under tal av röntgenläkare. Genom undersökningen visualiseras velofarynxfunktionen i frontal och lateral projektion. En nasofiberskopiundersökning hos fonioter ger en bild av velofarynxfunktionen ovanifrån och kan komplettera utredningen. Det samlade underlaget diskuteras vid en konferens där röntgenläkare, plastikkirurg, fonioter och logoped deltar, innan beslut om åtgärdsförslag tas. För minderåriga är det därefter föräldrarna som bestämmer om åtgärden ska genomföras eller inte. Logopedens perceptuella bedömning är i fokus i denna uppsats och den kommer därför att beskrivas mer ingående.

2.5.1 Perceptuell bedömning

Den perceptuella bedömningen görs utifrån vad vi kan varsebli och förnimma med våra sinnen, i det här fallet hörseln. Olika variabler kan inverka på den perceptuella bedömningen. Till exempel har lyssnarens tidigare erfarenhet och inre referenser gällande variabeln som bedöms betydelse (Kent, 1996). Tidigare var live-bedömningar vanliga vid talutvärderingar i vetenskapliga arbeten, d.v.s. direkta bedömningar utan inspelningsdokumentation (Lohmander & Olsson, 2004; Sell, 2005). Svagheten med live-bedömning är att tillförlitligheten i bedömningen inte kan kontrolleras i efterhand och bedömningen kan inte heller jämföras med bedömningar av andra lyssnare. Vid live-bedömning kan dessutom andra faktorer inverka, som till exempel föräldrarnas åsikter om barnets tal eller det faktum att patienten är välbekant för bedömaren.

Utvecklingsarbete pågår för att standardisera rutinerna för talutvärdering vid gomspalt. Flera forskare har betonat vikten av noggranna standardiserade metoder för att talutvärderingen ska vara tillförlitlig. (till exempel Britton et al., 2014; Brunnegård & Lohmander, 2007; Lohmander & Olsson, 2004; Peterson-Falzone, 1996; Sell, 2005, Sommerlad, Mehendale, Birch, Sell, Hattee & Harland, 2002). Exempelvis anses inspelningsbaserade lyssnarbedömningar vara en förutsättning för god metodologi vid talutvärdering vid gomspalt. Bedömningarna bör utföras av flera tränade och erfarna lyssnare (till exempel logopedier eller motsvarande). Taldata bör presenteras avkodat och i randomiserad ordning. Den undersökta deltagargruppen ska vara i ett snävt avgränsat åldersspann, och inkludering och exkludering av de undersökta deltagarna ska rapporteras. Redovisning av intra- och interbedömarreliabilitet ska ingå. Det är också viktigt att en genomtänkt bearbetning av taldata och de parametrar som ingår genomförs.

Den perceptuella bedömningen anses vara det mest betydelsefulla instrumentet när det gäller skattning av resonansavvikelse eller velofaryngal insufficiens (VPI) (Hartelius & Lohmander, 2008), och utgör det viktigaste underlaget för beslut om talförbättrande operationer eller vilket logopediskt omhändertagande som kan vara aktuellt (Kuehn & Moller, 2000). Den ger information om hur kompetent velofarynxfunktionen är. Det är viktigt att ha i åtanke att det

kan finnas andra orsaker till resonansavvikelser som egentligen inte beror på velofarynx-funktionen, som fistlar eller restspalter i gommen (Karling, Larson & Henningsson, 1993b). Grad och frekvens av resonansavvikelser bedöms med hjälp av skattningsskalor som är indelade i intervall med definitioner av skalstegen. Andelen skalsteg i bedömningen av nasalitet har varierat från två till 11 i olika studier (Sweeney & Sell, 2008).

Tidigare användes ofta skalskattning även i bedömningen av aktiva talavvikelser (Lohmander & Olsson, 2004). Numera baseras oftast resultatet på fonetiska transkriptioner som analyseras avseende procent korrekt artikulerade konsonanter, med olika modifikationer (till exempel Chapman & Hardin 1992, Morris & Ozanne, 2003; Chapman, Hardin-Jones, Goldstein, Halter, Havlik & Schulte, 2008; Lohmander & Persson, 2008, Klintö et al., 2014a; Klintö et al., 2015). Måttet procent korrekt artikulerade konsonanter utvecklades ursprungligen av Shriberg och Kwiatkowski (1982).

I kvalitetsregistret för LKG förs data om velofarynxfunktionen in enligt SVANTE (Lohmander et al., 2015) och utgör en samlad bedömning av hypernasalitet, hörbart nasalt luftläckage och tryckreducerad artikulation. Skalan är 3-gradig: 0 = tillräcklig/kompetent, 1 = marginellt inkompetent/otillräcklig och 2 = inkompetent/otillräcklig. Bedömningen baseras på såväl enskilda ord som meningar och spontantal.

Dessutom förs uppgifter om andel korrekt artikulerade orala konsonanter och andel talavvikelser framför och bakom velofarynx in, baserat på SVANTE (Lohmander et al., 2015). I SVANTE transkriberas målkonsonanter i enstaka ord som elicerats genom att barnen får benämna bilder. Transkriptionerna utförs enligt det internationella fonetiska alfabetet (IPA 2005, 2008). Enligt praxis används i Sverige ”halvsnäv” transkription vid bedömning av tal vid gomspalt, vilket innebär att diakritiska tilläggstecken tillämpas för de särdrag som anses typiska för tal vid LKG, d.v.s. velofaryngala friktionsljud, nasala genomslag och trycksvag artikulation. Samtliga finns förtecknade i extIPA (2008).

2.5.2 Svårigheter med perceptuell bedömning

Samstämmigheten inom och mellan bedömare vid talutvärdering är avgörande för resultatens tillförlitlighet och hur användbara de är. När det gäller hypernasalitet är samstämmigheten i bedömningarna ofta låg (McWilliams, Morris & Shelton, 1990; Karling, Larson, Leanderson & Henningsson, 1993a; Keunig, Wieneke & Dejonckere, 1999; Timmons, Wyatt & Murphy, 2001; Lohmander & Persson 2008; Klintö, Svensson, Elander & Lohmander, 2014b). Då fler skalsteg används i bedömningen minskar dessutom möjligheten till en samstämmig bedömning (Whitehill, 2002). En metod som ofta används vid skalskattning är att skapa skalsteg med graderad beskrivning av variabeln. Vanligen skattas variabeln sedan på en intervallskala där varje skalsteg är lika stort, men det förekommer även att VAS-skalar (Visual Analogue Scales) används (Baylis, Chapman & Whitehill, 2014). Enligt Kent (1996) är det inte säkert att en erfaren bedömare lämnar reliabla resultat, och samma logoped kan göra olika bedömningar över tid (Keunig et al., 1999). Bedömningskulturen kan också skilja sig mellan olika centra/mottagningar, eftersom kollegor som arbetar tillsammans har större möjlighet att vara samstämmiga i sin bedömning (Sell, 2005). Det finns även de som anser att logopeder eller erfarna lyssnare är alltför kritiska i sina omdömen, jämfört med otränade, naiva lyssnare (Bagnall & David, 1988).

När det gäller fonetiska transkriptioner tycks det vara svårare att få till en samstämmighet i bedömningarna om barnet har stora artikulatoriska/fonologiska avvikelser i sitt tal än om barnet har mildare/färre avvikelser (Shriberg & Lof, 1991). Samstämmigheten för transkription av talljud som inte förekommer i lyssnarens eget språk har visat sig vara särskilt låg (Santelmann, Sussman & Chapman, 1999), och det är svårt att uppnå god samstämmighet vid transkription av glottal artikulation (Gooch, Hardin-Jones, Chapman, Trost-Cardamone & Sussman, 2001). Erfarna lyssnare som ofta gör bedömningar kan utveckla interna standard-referenser, som bibehålls i långtidsminnet (Kuhn 1982; Sweeney, 2011). Det skulle kunna förklara varför erfarna lyssnare ofta har högre reliabilitet i sina bedömningar än oerfarna lyssnare (Sweeney, 2011, Hayden & Klimacka, 2000). Träningsmaterial för att kalibrera och utveckla bedömare kan vara ett sätt att förbättra samstämmigheten, vilket har utvecklats i Storbritannien (Sell, John, Harding-Bell, Sweeney, Hegarty & Freeman, 2009). Det är ännu inte väl utvärderat hur stor förbättring av samstämmigheten som träningsmaterialen leder till. I en studie (Sell et al., 2009) undersöktes om ett träningsmaterial för bedömning av tal-avvikelser vid LKG kunde förbättra samstämmigheten i bedömningarna. Resultaten varierade utifrån vad som bedömdes. Studien visade positiva tecken på att samstämmigheten kan förbättras med träning, men främre LKG-relaterade talavvikelser och talavvikelser som kunde kopplas till omognad eller avvikande röstkvalitet var svåra att nå samstämmighet om, trots genomförd träning. Andra faktorer som kan inverka på samstämmigheten mellan lyssnare är möjligheten att lyssna på taldata på ett optimalt sätt och att inspelningarna håller en god ljudkvalitet (Sell et al., 2009).

2.5.3 Metoder för beräkning av samstämmighet

Det finns olika metoder att åskådliggöra graden av samstämmighet mellan olika bedömare. Inom skilda ämnesinriktningar har förslag på värdering av resultat diskuterats. Kappa utvecklades av Cohen (1960) och är en metod som jämför två olika bedömningars överensstämmelse vid skattning av kvalitativa data. Den tar även hänsyn till slumpfaktorers inverkan. Landis och Koch (1997) har föreslagit riktvärden för styrkan i Kappa-värden (Tabell 1), som även har publiceras i en valideringshandbok för nationella kvalitetsregister (SKL, 2014).

Tabell 1. Föreslagna riktvärden för styrkan i Kappa-värden (Landis & Koch, 1997)

<i>Kappa</i>	<i>Tolkning av resultat</i>
< 0	Ingen samstämmighet
0,0 – 0,20	Svag samstämmighet
0,21 – 0,40	Lätt samstämmighet
0,41 – 0,60	Måttlig samstämmighet
0,61 – 0,80	Bra/betydande samstämmighet
0,81 – 1,00	Utmärkt/excellent samstämmighet

Intraklasskorrelationskoefficienten (ICC) används för att redovisa överensstämmelse mellan olika bedömare, när det gäller kvantitativa resultat. Den tar hänsyn till såväl slumpmässiga och systematiska fel, till skillnad från allmän korrelation, där endast slumpmässiga mät-avvikelser beaktas. Nedan (Tabell 2) presenteras en senare referens som ger riktlinjer för tolkning av både Kappa och ICC. Värdena fördelar sig mellan 0 – 1 och desto närmare 1 resultatet ligger, desto större är samstämmigheten i bedömningarna.

Tabell 2. Föreslagna riktvärden för styrkan i värden Kappa- och Intraklasskorrelationskoefficient (ICC) (Cicchetti, 2001)

<i>Kappa</i>	<i>ICC</i>	<i>Tolkning avseende klinisk eller praktisk signifikans</i>
< 0,40	< 0,70	Svag
0,40 – 0,59	0,70 - 0,79	Måttlig
0,60 – 0,74	0,80 – 0,89	God
0,75 – 1,0	0,90 – 1,0	Utmärkt

3. SYFTE

Det allmänna syftet med studien var att utvärdera tillförlitligheten i de taldata som registreras i det nationella kvalitetsregistret för LKG, att diskutera hur användbara resultaten avseende talet är samt att ge förslag till förbättringar i framtida datainsamling till kvalitetsregistret.

Följande forskningsfrågor ställdes:

- Hur väl överensstämmer uppgifter i kvalitetsregistret, baserade på kliniska originalbedömningar av andel korrekt artikulerade orala konsonanter, andel talavvikelser framför och bakom velofarynx i procent samt velofarynxfunktion, med samma logopeders bedömningar utifrån ljudinspelningar 7-8 år senare?
- Hur väl överensstämmer tre olika oberoende logopeders bedömningar av andel korrekt artikulerade orala konsonanter, andel talavvikelser framför och bakom velofarynx i procent samt velofarynxfunktion?

4. METOD

Vid planering av studien beaktades de kriterier som anses vara en förutsättning för metodologiskt god bedömning (Britton et al., 2014; Brunnegard & Lohmander, 2007; Lohmander & Olsson, 2004; Peterson-Falzone, 1996; Sell, 2005, Sommerlad et al., 2002). I Tabell 3 redovisas även hur kriterierna hanteras i den ordinarie kliniska verksamheten i Malmö.

Tabell 3. Kriterierna för en metodologiskt optimal bedömningsmodell

	<i>Beaktas i den här studien</i>	<i>Beaktas i klinisk verksamhet Malmö</i>
Bedömningar från flera tränade och erfarna lyssnare	Ja	Nej
Inspelad taldata	Ja	Ja
Randomiserad och avkodad taldata	Ja	Nej
Den undersökta deltagargruppen ska vara i ett snävt avgränsat åldersspann	Ja	Ej tillämbart
Inkludering och exkludering av de undersökta deltagarna ska rapporteras	Ja	Ej tillämbart
Redovisning av intra- och interbedömarreliabilitet ska ingå	Delvis	Ej tillämbart
En genomtänkt bearbetning av taldata och parametrarna som ingår ska genomföras	Ja	Ja

4.1 Deltagare

Totalt tio barn, sju pojkar och tre flickor, ingick i studien. Samtliga barn är födda med någon form av gomspalt och följs i Malmö via LKG-konferenser. De hade spelats in vid 5 års ålder av en och samma logoped (Log1) mellan april 2006 och mars 2008, och valdes ut i konsekutiv ordning via kvalitetsregistret. Starten 2006 valdes med tanke på att registreringarna då hade varit igång i två år och det garanterade att bedömningsrutinerna var välbekanta för Log 1. Fyra patienter exkluderades inom tidsperioden, trots att registrering fanns i kvalitetsregistret. I ett fall saknades en inspelning och i ett annat var inspelningen för dålig för att analys skulle vara möjlig. I två fall saknade patienterna bedömbart tal.

Sex deltagare var födda med enkelsidig LKG, två med bilateral LKG, en med spalt i hårda och mjuka gommen och en med spalt i mjuka gommen. Ingen av deltagarna hade diagnostiserad hörselnedsättning. Sex av tio hade språkstörningsdiagnos. Ingen av deltagarna hade genomgått någon form av talförbättrande operation.

4.2 Etiska överväganden

Inom ramen för sjukvårdens inhämtning av material för kvalitetsregister hade föräldrarna godkänt medverkan i register och de uppföljningar som kan bli aktuella utifrån dessa uppgifter. Samtycket till medverkan hade hanterats av plastikkirurger på Plastikkirurgiska kliniken i Malmö. Inspelningarna avidentifierades och kodades med nummer från 1 till 10. Projektet hade godkänts av den Etiska kommittén vid Avdelningen för logopedi, foniatri och audiologi, Institutionen för Kliniska Vetenskaper Lund, Lunds Universitet.

4.3 Talmaterial

Samtliga barn hade testats med SVANTE (Lohmander et al., 2005), som är utvecklat för bedömning av velofarynxfunktion och artikulation. Testet används kliniskt i Sverige av de logopeder som arbetar med LKG och andra svårigheter innefattande artikulations- eller nasalitetsavvikelser. Materialet består bland annat av en bok med 86 enskilda bilder som testpersonerna ska benämna. Fonetisk transkription görs av en målkonsonant i varje ord. De första 59 orden är de som används för att bedöma andel korrekt artikulerade orala konsonanter och andel talavvikelser framför respektive bakom velofarynx. Målfonemen i dessa ord består uteslutande av orala konsonanter. De första nio orden är särskilt utvalda för bedömning av hypernasalitet och velofarynxfunktion. De består av höga, även kallade slutna vokaler (/i/, /u/ och /ʊ/) och konsonanter som kräver ett högt intraoralt tryck (Henningsson et al., 2008; Lohmander et al., 2005). Bilderna 60 till 86 används för bedömning av hyponasalitet och s-förbindelser, och utgör inte underlag vid registrering i kvalitetsregistret. De uteslöts därför i studien. I SVANTE-materialet finns även 13 meningar som ska produceras på eftersägning och en temabild för stimulering av spontantal, som inte heller används i föreliggande studie.

4.4 Inspelning och redigering

Barnen dokumenterades med audioinspelningar i en inspelningsstudio, på Skånes Universitetssjukhus i Malmö. Utrustningen som användes var MiniDisc recorder (Sony MDS-302) samt en bordsmikrofon (Sennheiser MD421-U-5).

Inspelningarna överfördes av författaren från MiniDisc till dator och sparades över till .wav-format i programmet Soundswell (Saven Hitech). Överföring och redigering av inspelningarna gjordes under mars till april 2013. Då målordet i flera fall producerades flera gånger, ibland med olika korrekthet och tydlighet, redigerades inspelningarna i Audacity (Free Software, General Public License GPL), för att säkerställa att samtliga bedömare bedömde samma ord. Den produktion som var tydligast valdes. Den motsvarade alltid barnets bästa realisation av målfonemet. Allt överflödigt tal klipptes bort med målet att endast de enskilda orden skulle kvarstå. Vid behov lades extra paus mellan orden in för att underlätta lyssningen för bedömarna.

4.5 Taldata från kvalitetsregistret för LKG

Oredigerade inspelningar från patienterna hade analyserats av Log 1 enligt SVANTE (Lohmander et al., 2005), i nära anslutning till besöken ca 7-8 år tidigare, och resultaten hade registrerats i kvalitetsregistret. Det formulär som användes för ifyllnad av taldata och som kvalitetsregister-uppgifterna baserades på kan ses i Appendix 2. Taldata hämtades ur kvalitetsregistret för att möjliggöra jämförelse med Log 1:s bedömningar av de redigerade inspelningarna.

4.6 Perceptuell bedömning och analys

I maj till juni 2014 gjordes bedömning och analys enligt SVANTE (Lohmander et al., 2005) av samtliga redigerade inspelningar av Log 1. Dessutom bedömde och analyserade två oberoende logopedkollegor från olika LKG-centra (Log 2 och Log 3) de redigerade inspelningarna. Log 2 och 3 har båda mångårig erfarenhet av arbete vid LKG-centra.

Hösten 2014 utförde Log 1 dessutom en förnyad bedömning och analys av samtliga redigerade inspelningar. Dessförinnan omkodades inspelningarna av en kollega, för att undvika igenkänning.

Enligt anvisningarna skulle bedömningen och analysen genomföras enligt SVANTE (Lohmander et al., 2005). Därutöver fanns inga fasta riktlinjer. I de fall lyssnarna inte kunde uppfatta målordet, vilket kan förekomma när logoped/förälder talar samtidigt som barnet eller då ljudkvaliteten är bristfällig, strök lyssnaren ordet.

4.7 Statistisk analys

Statistiker anlätades för att säkerställa adekvat statistisk analys. Resultaten analyserades med hjälp av SPSS for Windows version 22 (IBM Software).

Värdet för reliabilitet anges med koefficient mellan 0 – 1, där 0 = Ingen samstämmighet och 1 = Perfekt samstämmighet. Samstämmighet inom och emellan bedömare för parametrarna andel korrekt artikulerade orala konsonanter och andel talavvikelser framför velofarynx beräknades med ICC. Samstämmigheten för velofarynxfunktionen analyserades med Cohens Kappa.

5. RESULTAT

I resultatsammanställningen redovisas samstämmighet inom och mellan bedömare för parametrarna andel korrekt artikulerade orala konsonanter, andel talavvikelser framför velofarynx och velofarynxfunktion. Parametern talavvikelser bakom velofarynx redovisas inte eftersom den knappt förekom (endast två representationer i hela materialet). Det medför att samstämmigheten blev utmärkt utan att måttet egentligen prövats.

5.1 Andel korrekt artikulerade orala konsonanter

5.1.1 Intrabedömarreliabilitet

Vid jämförelse mellan uppgifter i kvalitetsregistret baserade på kliniska bedömningar av Log 1 avseende andel korrekt artikulerade orala konsonanter och Log 1:s bedömning i maj-juni 2014 (1a) blev ICC-värdet 0,76 (Tabell 4). I åtta av tio fall låg resultaten inom ett 10-procentigt intervall. Vid jämförelse av Log 1:s bedömningar i maj-juni (1a) och hösten 2014 (1b) var överensstämmelsen mycket god (ICC 0,99).

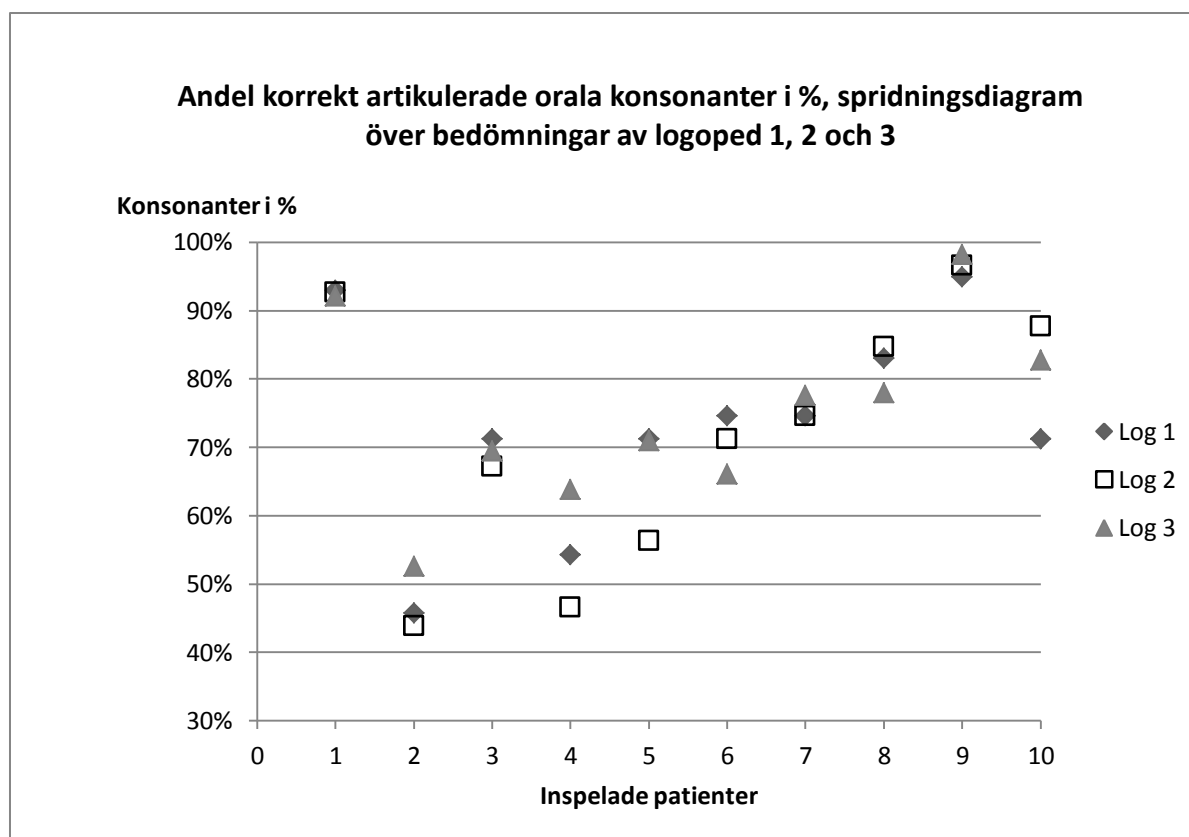
Tabell 4. Resultat för samstämmighet inom och mellan bedömare avseende andel korrekt artikulerade orala konsonanter och andel talavvikelser framför velofarynx

Mått	Bedömning	ICC	95 % konfidensintervall
Andel korrekta orala konsonanter	Kval reg & Log 1a	0,76	0,43 – 0,92
	Log 1a, Log 2 & Log 3	0,89	0,71 – 0,97
	Log 1a & Log 1b	0,99	0,90 – 0,99
Andel talavvikelser framför velofarynx	Kval reg & Log 1a	0,89	0,69 – 0,96
	Log 1a, Log 2 & Log 3	0,94	0,82 – 0,98
	Log 1a & Log 1b	0,99	0,97 – 0,99

ICC = Intraklasskoefficient, Kval reg = uppgift hämtad från kvalitetsregistret baserad på logoped 1:s bedömning, Log 1a = logoped 1:s bedömning från maj-juni 2014, Log 1b = logoped 1:s bedömning från hösten 2014, Log 2 = logoped 2:s bedömning, Log 3 = logoped 3:s bedömning.

5.1.2 Interbedömarreliabilitet

Vid jämförelser mellan tre logopeders bedömningar från maj-juni 2014 avseende andelen korrekt artikulerade orala konsonanter blev ICC-värdet 0,89 (Tabell 4). I åtta av tio inspelningar låg resultaten för de tre bedömarena inom ett 10-procentigt intervall (Figur 5).



Figur 5. Spridningsdiagram över fördelningen av resultaten av logoped (Log) 1, 2 och 3:s bedömningar avseende andel korrekt artikulerade orala konsonanter.

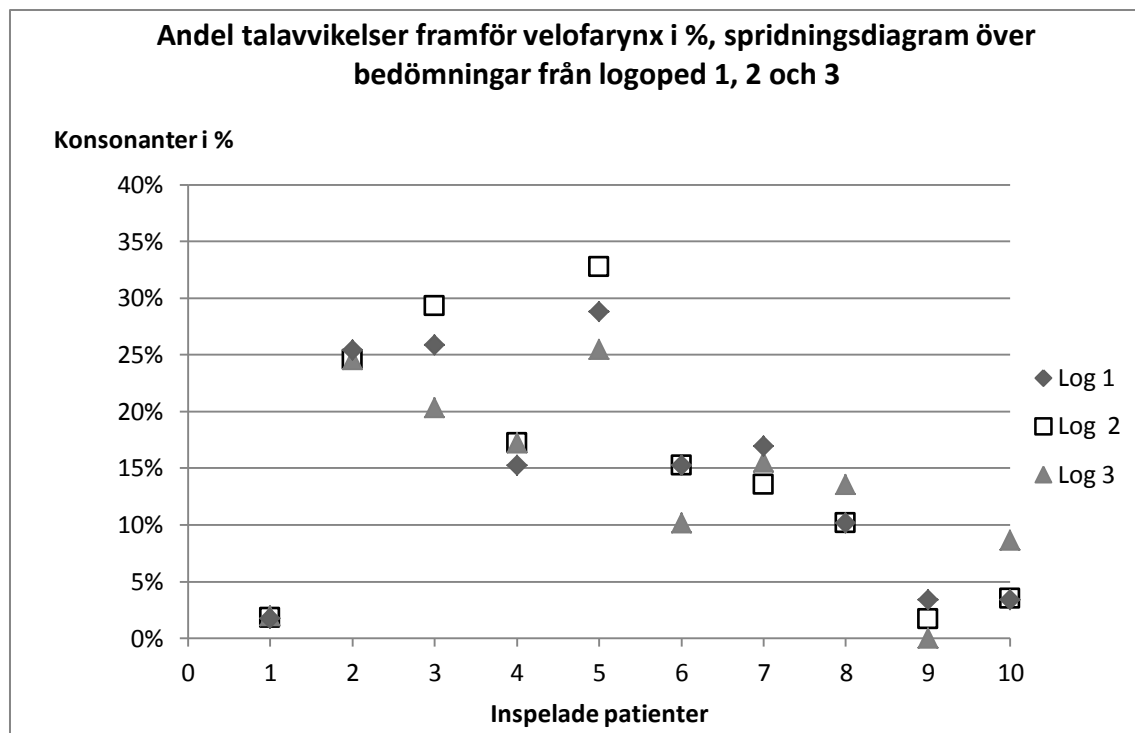
5.2 Andel talavvikelser framför velofarynx

5.2.1 Intrabedömarreliabilitet

Vid jämförelse mellan uppgifter i kvalitetsregistret baserade på kliniska bedömningar av Log 1 avseende andel talavvikelser framför velofarynx och Log 1:s bedömning i maj-juni (1a) blev ICC-värdet nästintill utmärkt 0,89 (Tabell 4). I nio av tio fall låg resultaten inom ett 5-procentigt intervall. Vid jämförelse av Log 1:s bedömningar i maj-juni (1a) och hösten 2014 (1b) var överensstämmelsen mycket god (ICC 0,99).

5.2.2 Interbedömarreliabilitet

Vid jämförelser mellan tre logopeders bedömningar från maj-juni 2014 avseende andelen talavvikelser framför velofarynx blev ICC-värdet utmärkt 0,94. I åtta av 10 fall låg resultaten inom ett 5-procentigt intervall (Figur 6). I övriga två fall låg resultaten inom ett 10-procentigt intervall.



Figur 6. Spridningsdiagram över fördelningen av resultaten av logoped (Log) 1, 2 och 3:s bedömningar avseende andel talavvikelser framför velofarynx.

5.3 Velofarynxfunktion

5.3.1 Intrabedömarreliabilitet

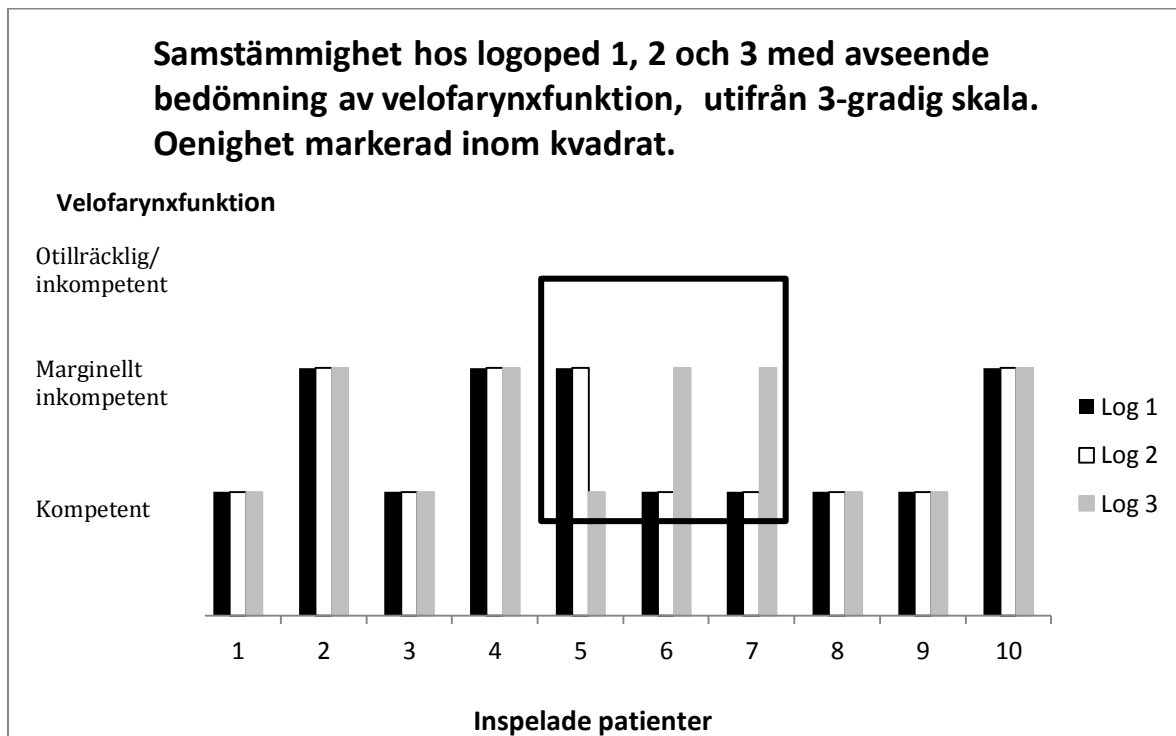
I endast fem av tio fall var resultaten avseende velofarynxfunktion helt samstämmiga när uppgifter i kvalitetsregistret baserade på kliniska bedömningar av Log 1 jämfördes med Log 1:s bedömningar i maj-juni. I samtliga fall där bedömningarna skiljde sig åt, var velofarynxfunktionen enligt uppgifterna i Kvalitetsregistret ett steg sämre. Kappavärdet för bedömningarna av velofarynxfunktionen var lågt (0,17) (Tabell 5). Vid jämförelse av samma logopeds bedömning i maj-juni (Log 1a) och hösten 2014 (Log 1b) var överensstämmelsen fullständig (1,0).

Tabell 5. Resultat för samstämmighet inom och mellan bedömare avseende velofarynxfunktion

Mått	Bedömare	Kappa
Velofarynxfunktion	Kval reg & Log 1a	0,17
	Log 1a & Log 2	1,0
	Log 1a & Log 3	0,4
	Log 2 & Log 3	0,4
	Log 1a & Log 1b	1,0

5.3.2 Interbedömarreliabilitet

Vid jämförelser mellan tre logopeders bedömningar från maj-juni 2014 avseende velofarynxfunktionen var de helt eniga i sju av tio fall (Figur 7). I de resterande tre fallen skilde de sig en av logopederna ett skalsteg i bedömningen, mellan tillräcklig/kompetent och marginellt otillräcklig velofarynxfunktion.



Figur 7. Illustration av samstämmighet/ej samstämmighet mellan logopederna (Log).

Vid jämförelse mellan Log 1 och Log 2 var bedömningen helt samstämmig, vilket gav ett Kappavärde på 1,0 (Tabell 5)(utmärkt samstämmighet). Vid jämförelse med mellan Log 1 och Log 3 respektive Log 2 och Log 3 blev Kappavärdet 0,40 i båda fallen (måttlig samstämmighet).

6. DISKUSSION

Studiens syfte var att utvärdera tillförlitligheten i de taldata som registreras i det nationella kvalitetsregistret för LKG, för att få underlag för diskussion kring hur användbara resultaten avseende talet är samt ge förslag till förbättringar i framtida datainsamling till kvalitetsregistret. Av praktiska skäl fanns endast möjlighet att inkludera en mindre grupp deltagare, men urvalet gjordes i konsekutiv följd och vedertagna kriterier för vad som anses vara god metodologi vid utvärdering av tal vid LKG beaktades. Den föreliggande studien kan ses som en pilotstudie inför större utvärderingar.

6.1 Resultaten i relation till tidigare studier

Svårigheterna med interbedömarreliabilitet vid bedömning av variabler relaterade till velofarynxfunktion är väl dokumenterade i tidigare publicerade studier (McWilliams et al., 1990; Karling et al., 1993a; Keunig et al., 1999; Timmons et al., 2001; Lohmander & Persson, 2008; Klintö et al., 2014b). I föreliggande studie var bedömnarna helt ense sju av tio, i tre fall avvek en bedömare från de andra två. Oenigheterna i bedömningarna var mellan skalstegen normal och marginellt inkompetent/otillräcklig velofarynxfunktion. När symptomen på talavvikelse är begränsade tycks det vara svårt att på den inre bedömningsskalan avgöra var det uppfattade lämnar det normala. Britton et al. (2014) diskuterade hur ett normalt tal ska definieras och vem som ska göra det. Enligt brittiska riktlinjer för bedömning av talavvikelser vid LKG tillåts högst tre tillfällen av hörbart nasalt luftläckage på tryckstarka konsonanter utan att det bedöms som avvikande (Sell et al., 2009). ”Borderline-minimal hypernasality” anses också vara inom det typiska eller icke avvikande när det gäller klangen (Britton et al., 2014). Det är troligt att olikheterna i bedömningen av velofarynxfunktion i föreliggande studie inte skulle ha haft någon klinisk betydelse, då det oftast går att utveckla ett fullt funktionellt tal med en marginellt inkompetent velofarynxfunktion. Det har också diskuterats om logopeder möjligtvis är för kritiska i sin bedömning av barnets tal (Sell, 2005; Havstam & Lohmander, 2011).

Interbedömarreliabiliteten var generellt bättre gällande artikulationen. Bedömnarna var mycket nära nivån utmärkt samstämmighet avseende andelen korrekt artikulerade orala konsonanter (0,89). Samstämmigheten mellan bedömare för andel avvikande artikulation framför velofarynx (0,94) var utmärkt. De olika bedömnarnas resultat för individuella barn befann sig i regel inom ett intervall på 5 eller 10 %. Mot bakgrund av detta, bedöms interbedömarreliabiliteten i denna studie som mycket god gällande andelen korrekt artikulerade orala konsonanter och andelen talavvikelser framför velofarynx. En sak som bör tas i beaktande är att det inte var några barn som bedömdes ha kompensatorisk artikulation eller glottala konsonanter i sitt tal. Det har tidigare konstaterats att sådan artikulation är svårare att vara samstämmig om (Gooch et al., 2001). Således är det sannolikt så att samstämmigheten för både andelen korrekt artikulerade orala konsonanter och andelen talavvikelser framför velofarynx hade varit lägre, om även barn med kompensatorisk artikulation hade ingått i den slumpvis utvalda konsekutiva serien med 5-åringar.

6.2 Talmaterialets inverkan på samstämmigheten

Att olika typer av talmaterial kan inverka på samstämmigheten vid talutvärdering vid LKG är känt, både när bedömare jämförs med sig själva och när olika bedömare jämförs med varandra. I en studie var samstämmigheten mellan bedömare vid transkription av konsonanter hos 5-åringar med gomsplatt god för såväl meningsrepetition som spontantal och benämning av enskilda ord, men den var högst i ordbenämning (Klintö et al., 2011). I artikeln av Klintö et al. (2011) diskuterades även att barnet presterar bättre när enskilda ord används som testmaterial, medan spontantal och meningsrepetition gör att fler avvikelser uppstår. Meningsrepetition föreslogs tidigt vara en "golden standard" vid talutvärdering vid LKG (Van Demark, 1964). Flera forskare har påpekat att det är viktigt att låta talmaterialet innehålla såväl enskilda ord som repetition av meningar och spontantal (Henningsson et al., 2008; Sell, 2005; Lohmander & Olsson, 2004; Sweeney, 2011), men det finns relativt lite publicerad forskning om i vilken grad olika typer av talmaterial påverkar bedömningen av velofarynxfunktionen (Kuehn & Moller, 2000). Nackdelen med meningsrepetition är att en del yngre barn har svårt att repetera meningar, och att de då ändå repeterar ett ord i taget efter undersökningsledaren.

När det gäller velofarynxfunktion var samstämmigheten mellan uppgifterna i kvalitetsregistret och de bedömningar som utfördes av samma logoped utifrån redigerade inspelningar 7-8 år senare låg. I föreliggande studie baserades uppgifterna i kvalitetsregistret på bedömningar utförda i nära anslutning till besöket, då bedömaren också hade tillgång till längre sammanhängande tal. De redigerade inspelningarna innehöll däremot endast enskilda ord från SVANTE (Lohmander et al., 2015). Det kan till viss ha inverkat negativt på samstämmigheten (Kummer, 2014). I fem fall av tio var velofarynxfunktionen enligt uppgiften i kvalitetsregistret ett skalsteg sämre jämfört med den nya bedömningen 7-8 år senare. Det är troligt att samstämmigheten mellan uppgifterna i kvalitetsregistret och den nya bedömningen av samma logoped, 7-8 år senare, hade varit högre om även sammanhängande tal hade tagits med i de inspelningar som de nya bedömningarna baserades på. Sammanhängande tal bör därför ingå i framtida studier. Vid jämförelse av samma logopeds bedömningar från maj-juni och oktober 2014 var samstämmigheten total. Med förbehåll för att materialet i föreliggande studie är litet, skulle detta kunna vara en indikation på att en helhetsbild av patientens tal inverkar på bedömningen, d v s att velofarynxfunktionen upplevs som sämre i spontantal och meningsrepetition. Det kan heller inte uteslutas att bedömningen i samband med kvalitetsregistreringen även färgades av andra variabler, som exempelvis vårdnadshavarens uppfattning av talet och att barnet var känt av bedömaren.

6.3 Metoder för beräkning av samstämmighet

Resultaten för samstämmighet inom och mellan bedömare kan påverkas av vilken metod för beräkning av samstämmighet som används. I den här studien användes ICC och Cohens Kappa för att undersöka inter- och intrabedömarreliabiliteten. I studier baserade på transkriptioner har ofta punkt-mot-punkt-jämförelse av konsonanter använts för beräkning av samstämmighet i bedömningar (till exempel Brunnegård & Lohmander, 2007; Klintö et al., 2011). I föreliggande studie var måtten på konsonanter desamma som utvärderas och rapporteras i kvalitetsregistret, d v s ett summerat resultat av en hel SVANTE-bedömning av orala konsonanter (Lohmander et al., 2015), och punkt mot punkt-jämförelse ansågs därmed inte relevant. Beräkning av ICC bedömdes vara den mest adekvata metoden för att undersöka

samstämmigheten inom och mellan bedömare, då både slumpmässiga och systematiska fel tas med i beräkningen.

Det bör påpekas att i praktiken skulle den valda beräkningsmetoden kunna innebära att två olika bedömare av en inspelning skulle kunna få samma summerade resultat, trots att de har transkriberat målkonsonanter olika. Till exempel skulle en bedömare kunna ha underkänt fyra realisationer av målfonemet /f/, som nästa bedömare godkänner. Istället skulle den senare kunna ha underkänt fyra realisationer av /s/. I en punkt-mot-punkt-jämförelse skulle detta ha lett till åtta fall av oenighet, men i det summerade SVANTE-resultatet skulle bedömarna ha framstått som helt eniga.

6.4 Förslag till förbättringar vid framtida datainsamling

Inspelningskvaliteten kan påverka resultaten för talutvärdering vid LKG (Sweeney, 2011). Även om barnen i den här studien spelades in i en inspelningsstudio, fanns det på en inspelning störande ljud från markanläggningsmaskiner precis utanför. I en annan inspelning var patienten mycket tystlåten och talade med knappt hörbar intensitet, medan det i två inspelningar tvärtom var för kraftig intensitet i barnens tal. Detta kan inverka på resultaten, då det kan vara svårt att skilja distorsionsljud orsakade av nasalt luftläckage från en oral luftström som överbelastar mikrofonen (Moller & Starr, 1984). Även om det kan vara komplicerat att aktivt anpassa inspelningsnivån under pågående inspelning, då både avståndet till mikrofonen och barnets intensitet kan inverka på inspelningskvaliteten, är det viktigt att den som dokumenterar talet har detta i åtanke för att skapa en inspelning med så optimal ljudkvalitet som möjligt. En annan reflektion är att det även vid dokumentation i klinisk verksamhet är av värde att följa de riktlinjer för vetenskaplig dokumentation som finns, till exempel att undvika samtidigt tal som barnet, att logopeden repeterar det ord som barnet sagt för att möjliggöra identifiering av svårtolkade responser (Lohmander et al., 2009) och att undvika konversation med föräldrar under inspelningstiden.

I Sverige finns ingen bestämd och uttalad standard för utrustning och inspelningsmiljö. Då logopedverksamheten bedrivs på olika universitetssjukhus och tillhör olika landsting kan detta i praktiken vara svårt att påverka. Det är ändå möjligt att utarbeta riktlinjer för hur optimal utrustning och inspelningsmiljö bör ordnas. Ett gott exempel på riktlinjer finns på internet-sidan Cleft Palate International Speech Issues (CLIPSI, 2015) där det under rubriken ”Good practice” belyses vad som anses viktigt.

Det finns inga uttalade, fastslagna riktlinjer för perceptuell bedömning i insamlingen av taldata till kvalitetsregistret i Sverige. Det skulle behövas en standardisering, för att säkerställa att lyssning sker på samma sätt vid Sveriges LKG-centra. I föreliggande studie går det inte att utesluta att brist på anvisningar för lyssning och analys kan ha påverkat resultaten, åtminstone marginellt, till exempel om bedömaren ska lyssna med hörlurar eller högtalare. När det gäller de bedömningar som taldata i kvalitetsregistret baseras på, behövs konsensus för i hur nära anslutning till besöket som de ska göras. Det kan vara av värde att analyserna görs inom bestämda tidsramar. En efteranalys endast utifrån inspelning skulle eventuellt i vissa fall kunna leda till en mildare bedömning av barnets tal. Det är svårt att värdera om bedömningar i direkt anslutning till besöket eller i efterhand är de mest adekvata. Informationsmängden som bedömaren ska analysera skiljer sig åt. LKG-registret är ett övervakningsregister som bygger på att uppgifterna regelbundet matas in, för att aktuella

utvärderingar ska kunna göras. Det talar för att den perceptuella talutvärderingen bör göras i nära anslutning till besöket hos logopeden.

En annan motiverad fråga är hur mycket tid som i klinisk vardag kan läggas på analyser av SVANTE-testning, innan uppgifterna läggs in i kvalitetsregistret. Det är troligt att en snabb hantering av uppgiften påverkar noggrannheten i bedömningarna, men det går heller inte att i klinisk praktik lägga hur mycket tid som helst på att analysera inspelningar. Tidsfaktorn, d v s hur mycket tid logopeder har att lägga på analys, är en sak att ha i åtanke, när reliabilitetsnivån i bedömningarna värderas.

I Storbritannien har ett ambitiöst arbete med att utvärdera talet hos 1110 barn med LKG vid 5 års ålder genomförts under tre års tid (Britton et al., 2014). Tre specialiserade logopeder utförde konsensuslyssning (logopederna lyssnar gemensamt och enas om bedömning), vilket medförde en tidsåtgång på 235 arbetsdagar. I Storbritannien finns även ambitioner att bedömningar av taldata ska göras i konsensuslyssningar om minst två logopeder, samt att 25 % av patienterna ska bedömas av logoped från annat center (Britton et al., 2014), det senare för att balansera skillnader i bedömningssätt mellan olika centra. Sådana rutiner kräver resurser som inte finns inom den svenska sjukvården. Däremot skulle det kunna vara genomförbart och intressant att i Sverige byta ett visst antal inspelningar per år mellan olika centra, för jämförelse med kvalitetsregisterbedömning. Detta för att upprätta/behålla en nationell samstämmighet vad gäller perceptuell bedömning och undvika eventuella lokala skillnader. Ett förslag är att varje center slumpvis väljer ut ett begränsat antal inspelningar per år för konsensuslyssningar. Detta för att kalibrera logopedgruppen lokalt och senare gentemot en riksstandard. Det krävs återkommande lyssningsträning för att upprätthålla samstämmigheten. Dessutom tillkommer ständigt nya logopeder och tjänstgör, som också behöver kalibrera sig med sina kollegor. En fastslagen rutin på nationell nivå kring lyssningsträning, skulle kunna skapa förutsättningar för mer samstämmiga bedömningar.

Uppgifterna om talet som matas in i kvalitetsregistret är ofullständiga. Det finns till exempel än så länge ingen uppgift om hur patient/förälder/omgivning anser att talet fungerar. Det finns en risk att det som en logoped tar upp som avvikande tal, ses som helt normalt av såväl kompisar som övrig omgivning. Avsaknaden av uppgifter om omgivningens uppfattning av barnets tal har även uppmärksammats som ett problem i en rad artiklar (Brunnegård, van Doorn & Lohmander, 2009; Havstam, Sandberg & Lohmander, 2011). Det finns en konsensus hos Sveriges LKG-logopeder gällande vikten av att lägga till dessa uppgifter i kvalitetsregistret i framtiden. Efter beslut i logopedgruppen kommer uppgifter från Intelligibility Context Scale (McLeod, Harrison & McCormack, 2012) att användas för ändamålet, och börja matas in i registret, troligen under 2015. Med Intelligibility Context Scale skattas föräldrarnas uppfattning av barnets tal, med fokus på förståelighet.

Sammanfattningsvis är kvalitetsregistret för LKG en unik kunskapskälla. För närvarande är omkring 2500 patienter registrerade i Sverige (Registercentrum Syd, 2015). Det går snabbt att kontrollera stora grupper, och även om taldata inte alltid har insamlats och bedömts på ett optimalt sätt, går det att se tendenser i behandlingsresultat och hur väl behandlingsmetoderna fungerar (Sell, 2005; John, Sell, Sweeney, Harding-Bell & Williams, 2006). Utifrån det kan följdfrågor ställas, som i sin tur kan besvaras med vetenskapligt kvalitetssäkrad metod. I många av dagens studier exkluderas en hel del patienter p.g.a. tilläggsdiagnoser, flerspråkighet eller adoption, då tillkommande oberoende variabler kan försvåra tolkningen vid gruppjämförelser. I kvalitetsregistret är intentionen att samtliga patienter ska inkluderas. Kvalitetsregistret kan därför ge en översiktsbild över vårdtyngd och resursbehov för logopedinsatser

gällande talet för samtliga patientgrupper. Då föreliggande studie baserades på ett litet material behöver resultaten verifieras i en större studie, gärna under medverkan av fler av Sveriges LKG-centra.

7. TACK

Ett stort tack riktas till handledarna Kristina Klintö och Magnus Becker för god vägledning i denna något senkomna ansats mot magisterexamen. Tack även till kvalitetsregistret. Andra kollegor som bidragit ska inte heller glömmas såsom Eva-Kristina Salameh och Maria Sporre Dessutom skickas tacksamhet till Liisi Raud Westbergs för fina illustrationer. I arbetet har även logopederna från Göteborg och Linköping bidragit i form av de bedömningar som uppsatsen vilar på, tack till er också! Sist men inte minst ska även Ritwa Liljeblad, logopedmottagningens chef tackas för att ha beviljat sökta ledigheter och peppat till detta projekt.

8. REFERENSER

- Aniansson, G., Svensson, H., Becker, M. & Ingvarsson, L. (2002). Otitis media and feeding with breast milk of children with cleft palate. *Scandinavian Journal of Plastic Surgery*, 36 (1). doi:10.1080/028443102753478318.
- Arnold, W. H., Nohadani, N., & Koch, K. H. (2005). Morphology of the auditory tube and palatal muscles in a case of bilateral cleft palate. *Cleft Palate Cranio-facial Journal*, 42(2), 197-201. doi: 10.1597/03-138.1
- Bagnall, A. D., & David, D. J. (1988). Speech results of cleft palate surgery: two methods of assessment. *British Journal of Plastic Surgery*, 41(5), 488-495. doi:10.1016/0007-1226(88)90005-7
- Barillas, I., Dec, W., Warren, S. M., Cutting, C. B., & Grayson, B. H. (2009). Nasoalveolar molding improves long-term nasal symmetry in complete unilateral cleft lip-cleft palate patients. *Plastic Reconstructive Surgery*, 123(3), 1002-1006. doi:10.1097/PRS.0b013e318199f46e
- Baylis, A., Chapman, K., & Whitehill, T. (2014). Validity and reliability of visual analog scaling for assessment of hypernasality and audible nasal emission in children with repaired cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 52(3), Online ahead of print.
- Bessell, A., Sell, D., Whiting, P., Roulstone, S., Albery, L., Persson, M., & Ness, A. R. (2013). Speech and language therapy interventions for children with cleft palate: a systematic review. *Cleft Palate Craniofacial Journal*, 50(1). doi: 10.1597/11-202
- Britton, L., Albery, L., Bowden, M., Harding-Bell, A., Phippen, G., & Sell, D. (2014). A cross-sectional cohort study of speech in five-year-olds with cleft palate +/- lip to support development of national audit standards: benchmarking speech standards in the United Kingdom. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 51(4), 431-451. doi: 10.1597/13-121
- Brunnegard, K., & Lohmander, A. (2007). A cross-sectional study of speech in 10-year-old children with cleft palate: results and issues of rater reliability. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 44(1), 33-44. doi: 10.1597/05-164
- Brunnegard K., Lohmander A. & Van Doorn, J. (2009). Untrained listeners' ratings of speech disorders in a group with cleft palate: a comparison with speech and language pathologists' ratings. *International Journal of Language and Communication Disorders*. 44 (5). doi: 10.1080/13682820802295203

- Chapman, K. L., Hardin, M. A. (1992). Phonetic and Phonologic Skills of Two-Year-Olds with Cleft Palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 29(5), 435-443. doi:10.1597/1545-1569(1992)029%3C0435:PAPSOT%3E2.3.CO;2
- Chapman, K. L. (1993). Phonologic processes in children with cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 30(1), 64-72. doi: 10.1597/1545-1569(1993)030<0064:PPICWC>2.3.CO;2
- Chapman, K. L., Hardin-Jones, M. A., Goldstein, J. A., Halter, K. A., Havlik, R. J. & Schulte, J. (2008). Timing of Palatal Surgery and Speech Outcome. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 45 (3), 297-308. doi:10.1597/06-244.
- Cicchetti D.V. (2001). Methodological commentary. The precision of reliability and validity estimates re-visited: Distinguishing between clinical and statistical significance of sample size requirements. *Journal of Clinical and Experimental Neuropsychology*, 23 (5). doi: 10.1076/jcen.23.5.695.1249
- Cleft Palate International Speech Issues (CLIPSI) (2015). (Online) <http://clipsi.org> (Accessed 150218).
- Cohen, J. (1960). A coefficient of agreement for nominal scales. *Educational and Psychological Measurement*, 20, s 37-46.
- Flynn, T., & Lohmander, A. (2014). A Longitudinal Study of Hearing and Middle Ear Status in Individuals With UCLP. *Otology & Neurotology*, 35(6), 989-996. doi: 10.1097/MAO.0000000000000429
- Flynn, T., Moller, C., Jonsson, R., & Lohmander, A. (2009). The high prevalence of otitis media with effusion in children with cleft lip and palate as compared to children without clefts. *International Journal of Pediatrics and Otorhinolaryngology*, 73(10), 1441-1446. doi: 10.1016/j.ijporl.2009.07.015
- Gooch, L. J., Hardin-Jones M., Chapman, L. K., Trost-Cardamone, E. J. & Sussman, J. (2001). Reliability of Listener Transcriptions of Compensatory Articulations. *Cleft Palate-Craniofacial Journal* 38, (1), doi:10.1597/1545-1569(2001)038%3C0059:ROLTOC%3E2.0.CO;2
- Hagberg, C., Larson, O., & Milerad, J. (1998). Incidence of cleft lip and palate and risks of additional malformations. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 35(1), 40-45. doi: 10.1597/1545-1569(1998)035<0040:IOCLAP>2.3.CO;2
- Harding, A., & Grunwell, P. (1998). Active versus passive cleft-type speech characteristics. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 33(3), 329-352. doi:10.1080/136828298247776
- Hartelius, L. & Lohmander, A. (2008). Talstörningar – allmän del. L. Hartelius, U. Nettelbladt & B. Hammarberg (Red.), Logopedi (s. 357-374). Lund: Studentlitteratur. ISBN 978-91-44-038886-5
- Havstam, C. & Lohmander, A. (2011). Communicative Participation. S. Howard & A. Lohmander (Eds.), *Cleft palate speech: assessment and intervention* (ss 305-316). Chichester: Wiley-Blackwell.
- Havstam C., Sandberg A. D., Lohmander A. (2011). Communication attitude and speech in 10-year-old children with cleft (lip and) palate: an ICF perspective. *International Journal of Speech and Language Pathology*, 13 (2). doi:10.3109/17549507.2011.514946.
- Hayden, C. and Klimacka, L. (2000). Inter-rater reliability in cleft palate speech assessment. *Journal of Clinical Excellence*, 2, 169–173
- Helse Vest og Helse Sør-Øst (2014). Online <http://www.helsebergen.no/no/OmOss/Avdelinger/kvalitetsregister-leppe-kjeveganespalte/Sider/default.aspx> (Accessed 141211)

- Henningsson, G., & Isberg, A. (1990). Oronasal fistulae and speech production. In J. Bardach & H. Morris (Eds.), *Multidisciplinary Management of Cleft Lip and Palate* (pp. 787–792). Philadelphia: WB Saunders.
- Henningsson, G., Kuehn D. P., Sell, D., Sweeney, T., Trost-Cardamone, J. E & Whitehill, T. L. (2008). Universal Parameters for Reporting Speech Outcomes in Individuals With Cleft Palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 45 (1). doi: <http://dx.doi.org/10.1597/06-086.1>
- Hutters, B., & Brøndsted, K. (1987). Strategies in cleft palate speech--with special reference to Danish. *Cleft Palate Journal*, 24(2), 126-136.
- International Consortium for Health Outcome Measurement (2014). Online <http://www.ichom.org/why-we-do-it/> (Accessed 141204).
- IPA. (2005). The International Phonetic Alphabet. http://www.langsci.ucl.ac.uk/ipa/IPA_chart_%28C%292005.pdf (Accessed 150306).
- IPA. (2008). extIPA Symbols for Disordered Speech. <http://www.langsci.ucl.ac.uk/ipa/extIPACart2008.pdf> (Accessed 150306).
- John, A., Sell, D., Sweeney, T, Harding-Bell, A. & Williams, A. (2006). The Cleft Audit Protocol for Speech—Augmented: A Validated and Reliable Measure for Auditing Cleft Speech. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*. 43 (3), 272-288.
- Karling, J., Larson, O., Leanderson, R. & Henningsson, G. (1993a). Speech in unilateral and bilateral cleft palate patients from Stockholm. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, 30, 73–77.
- Karling, J., Larsen, O. & Henningsson, G. (1993b). Oronasal fistulas in cleft palate patients and their influence on speech. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive Surgery and Hand Surgery*, 27 (03), s 193-201. doi: 10.1016/0266-4356(95)90025-X
- Kent, D. R. (1996). Hearing and Believing: Some Limits to the Auditory-Perceptual Assessment of Speech and Voice Disorders. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 5, doi: 1058-0360/96/0503-0007.
- Keunig, K. H. D, Wieneke G. H. & Dejonckere, P. H. (1999). The intrajudge reliability of the perceptual rating of cleft palate speech before and after pharyngeal flap surgery: The effect of judges and speech samples. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*. 36.4. 324-333. doi:10.1597/1545-1569(1999)036%3C0328:TIROTP%3E2.3.CO;2
- Klintö, K., Salameh, E. K., Svensson, H., & Lohmander, A. (2011). The impact of speech material on speech judgement in children with and without cleft palate. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 46(3), 348-360. doi: 10.3109/13682822.2010.507615
- Klintö, K., Salameh E. K., Olsson, M., Flynn, T., Svensson, H., & Lohmander, A. (2014a). Phonology in Swedish-speaking 3-year-olds born with cleft lip and palate and the relationship with consonant production at 18 months. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 49(2), 240-254. doi: 10.1111/1460-6984.12068
- Klintö, K., Svensson, H., Elander, A., & Lohmander, A. (2014b). Speech and phonology in Swedish-speaking 3-year-olds with unilateral complete cleft lip and palate following different methods for primary palatal surgery. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 51(3), 274-282. doi: 10.1111/1460-6984.12127
- Klintö, K., Salameh E. K., Lohmander, A. (2015). Phonology in Swedish-speaking 5-year-olds born with unilateral cleft lip and palate and the relationship with consonant production at 3 years of age. *Accepted for publication in International Journal of Speech-Language Pathology*.
- Kuehn D. P. (1982). Assessment of resonance disorders. Lass, N., McReynolds L., Nothern J. & Yoder, D. (Eds). *Speech, Language and Hearing*. II, 499-524. Philadelphia: WB Saunders.

- Kuehn D. P. & Moller, K. T. (2000). Speech and Language Issues in the Cleft Palate Population: The State of the Art. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, 37(4). doi:10.1597/1545-1569(2000)037%3C0348:SALIIT%3E2.3.CO;2
- Kummer, A. (2014). *Cleft Palate & Craniofacial Anomalies: Effect on Speech and Resonance*, third ed. Delmar, Cengage Learning. Clifton Park NY, USA. ISBN-13:978-1-133-73236-5.
- Landis, J. R., Koch, G. G. (1977). The measurement of observer agreement for categorical data. *Biometrics* 33(1):159-174. *International Biometric Society*.
- Lindblom, B. (2008). Röst- och talfunktion. L. Hartelius, U. Nettelbladt & B. Hammarberg (Red.), *Logopedi*(s. 21-35). Lund: Studentlitteratur. ISBN 978-91-44-038886-5
- Lohmander, A. & Olsson, M. (2004). Methodology for perceptual assessment of speech in patients with cleft palate: a critical review of the literature. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 41(1), 64-70. doi: 10.1597/02-136
- Lohmander, A., Borell E., Henningsson, G., Havstam, C., Lundeborg, I. & Persson, C., SVANTE – Svenskt Artikulations- och Nasalitetstest. Manual. (2005). Pedagogisk Design.
- Lohmander, A. & Persson, C. (2008). A Longitudinal Study of Speech Production in Swedish Children with Unilateral Cleft Lip and Palate and Two-stage Palatal Repair. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 45 (1). 32-41. doi: 10.1597/06-123.1
- Lohmander A., Willadsen E., Persson C., Henningsson G., Bowden M. & Hutters B. (2009). Methodology for Speech Assessment in the Scandcleft Project — An International Randomized Clinical Trial on Palatal Surgery: Experiences From a Pilot Study , *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, 46 (4), 347-362. doi:10.1597/08-039.1
- Lohmander, A. (2011). Surgical intervention and speech outcomes in cleft lip and palate. S. Howard & A. Lohmander (Eds.), *Cleft palate speech: assessment and intervention* (55-85). Chichester: Wiley-Blackwell.
- Lohmander, A., Borell E., Henningsson, G., Havstam, C., Lundeborg, I. & Persson, C., SVANTE – Svenskt Artikulations- och Nasalitetstest. Manual. (2015). Studentlitteratur AB. Lund. Sverige. ISBN:9789144107400
- Maarse, W., Rozendaal, A. M., Pajkrt, E., Vermeij-Keers, C., Mink van der Molen, A. B., & van den Boogaard, M. J. (2012). A systematic review of associated structural and chromosomal defects in oral clefts: when is prenatal genetic analysis indicated? *Journal of Medical Genetics*, 49(8), 490-498. doi: 10.1136/jmedgenet-2012-101013
- Malmborn, J.-O., Sporre, M., Klintö, K., Svensson, H. & Becker, M. (2013). Vad händer med talet hos barn födda med läpp käk gomspalt mellan 5 och 10 års ålder ? - Longitudinell utvärdering av talet utifrån kvalitetsregistret. Muntlig presentation vid SwedeCleft-mötet 2013, Stockholm.
- McLeod S, Harrison L.J., McCormack J. (2012). The intelligibility in Context Scale: validity and reliability of a subjective rating measure. *Journal Of Speech, Language, And Hearing Research*, 55 (2). doi:10.1044/1092-4388(2011/10-0130)
- McWilliams, B. J., Morris H. L. & Shelton R. L. (1990). *Cleft Palate Speech*. Toronto. B.C.Decker, ISBN 10: 1556642385
- Moller, K. T. & Starr, C. D. (1984). The effects of listening conditions on speech ratings obtain in a clinical setting. *Cleft Palate Journal*, 21(2), 65-69.
- Morris, H., & Ozanne, A. (2003). Phonetic, phonological, and language skills of children with a cleft palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 40(5), 460-470 doi:10.1597/1545-1569(2003)040<0460:PPALSO>2.0.CO;2
- Mossey, P. (2007). Epidemiology underpinning research in the aetiology of orofacial clefts. *Orthodontics and Craniofacial Research*, 10(3), 114-120. doi: 10.1111/j.1601-6343.2007.00398.x

- Mossey, P. A., Little, J., Munger, R. G., Dixon, M. J., & Shaw, W. C. (2009). Cleft lip and palate. *Lancet*, 374(9703), 1773-1785. doi: 10.1016/S0140-6736(09)60695-4
- Nationella Kvalitetsregister. Sveriges Kommuner och Landsting (SKL) (2014). Hemsida: <http://www.kvalitetsregister.se>. (Accessed 150306)
- Persson C., Elander A., Lohmander-Agerskov A., Söderpalm E. (2002). Speech outcomes in isolated cleft palate: impact of cleft extent and additional malformations. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 39, 397-408. doi:10.1597/1545-1569(2002)039%3C0397:SOIICP%3E2.0.CO;2
- Persson, C. (2004). Speech and language in patients with an isolated cleft palate and/or 22q11 deletion syndrome, doctoral thesis. Dep. of Logopedics and Phoniatics, The Sahlgrenska Academy at Göteborg University, Sweden, ISBN 91-628-6262-6.
- Peterson-Falzone, S. J. (1996). The relationship between timing of cleft palate surgery and speech outcome: what have we learned, and where do we stand in the 1990s? *Seminars in Orthodontics*, 2(3), 185-191. doi:10.1016/S1073-8746(96)80013-2
- Peterson-Falzone, S. J., M. A. Hardin-Jones & M. P. Karnell. Assessment of speech-language problems. In: Peterson-Falzone SJ, Hardin-Jones MA, Karnell MP, eds. *Cleft Palate Speech*. 3rd ed. Philadelphia: Mosby; 2001.
- Riksrevisionen. (2013). Statens satsningar på nationella kvalitetsregister – leder de i rätt riktning? (978 91 7086 329 5/1652-6597). (Accessed 150306)
- Riski, J. E. (2011). Secondary management and speech outcome. S. Howard, & A. Lohmander (Red.) *Cleft palate speech: assessment and intervention*, 87-104. Wiley-Blackwell. John Wiley and Sons. Wes Sussex. UK. ISBN:978-0-470-74330-0
- Registercentrum Syd (2015). (Online) <http://lund.rcsyd.se/>. (Accessed 11 mars 2015).
- Roberts, J., Hunter, L., Gravel, J., Rosenfeld, R., Berman, S., Haggard, M., Wallace, I. (2004). Otitis media, hearing loss, and language learning: controversies and current research. *Journal Of Developmental And Behavioral Pediatrics*, 25(2), 110-122.
- Santelmann, L., Sussman, J. & Chapman, K. (1999). Perception of Middorsum Palatal Stops from the Speech of Three Children with Repaired Cleft Palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 36(3), 233-242. doi: 10.1597/1545-1569(1999)036<0233:POMPSF>2.3.CO;2
- Sell, D. (2005). Issues in perceptual speech analysis in cleft palate and related disorders: a review. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 40(2), 103-121. doi:10.1080/13682820400016522
- Sell, D., John, A., Harding-Bell A., Sweeney, T., Hegarty F., Freeman J. (2009). The Cleft Audit Protocol for Speech (CAPS-A): a comprehensive training package for speech analysis. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 44, 4, 529-548, doi:10.1080/13682820802196815
- Shaw, W. C., Semb, G., Nelson, P., Brattstrom, V., Molsted, K., Prah-Andersen, B., & Gundlach, K. K. (2001). The Eurocleft project 1996-2000: overview. *Journal of Craniomaxillofacial Surgery*, 29(3), 131-140; discussion 141-132. doi: 10.1054/jcms.2001.0217
- Shprintzen R.J., Siegel-Sadewitz V. L., Amato J. & Goldberg R. B. (1985). Anomalies associated with cleft lip, cleft palate or both. *American Journal of Medical Genetics*, 20, 585-595. doi: 10.1002/ajmg.1320200404
- Shriberg, L. D. & Kwiatkovsky, J. (1982). Phonological Disorders III: A procedure for assessing severity of involvement. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 47, 256-270. doi:10.1044/jshd.4703.256
- Shriberg, L. D. & Lof, G. L. (1991). Reliability studies in broad and narrow phonetic transcription. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 5 (3), s 225-279. doi: 10.3109/02699209108986113

- Sommerlad, B. C. (2003). A technique for cleft palate repair. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 112(6), 1542-1548. doi: 10.1097/01.PRS.0000085599.84458.D2
- Sommerlad B. C., Mehendale, F. V., Birch, M. J., Sell D., Hattee C., Harland, K (2002). Palate re-repair revisited. *Cleft Palate Craniofacial Journal*, 39(3), 295–307. doi: 10.1597/1545-1569(2002)039%3C0295:PRRR%3E2.0.CO;2
- Sweeney, T. & Sell, D. (2008) Relationship between perceptual ratings of nasality and nasometry in children/adolescents with cleft palate and/or velopharyngeal dysfunction. *International Journal of Language and Communication Disorders* 43(3), 265–282, doi: 10.1080/13682820701438177
- Sveriges kommuner och landsting (SKL) (2014), (Online) <http://www.kvalitetsregister.se/registerarbete/certifieringsnivaer.4.75178331144f9b1d7ff188.html> (Accessed 150422)
- Sweeney, T. (2011). Nasality – Assessment and Intervention. S. Howard & A. Lohmander (Red.). *Cleft Palate Speech. Assessment and Intervention* (ss. 199-220). Wiley-Blackwell. John Wiley and Sons. Wes Sussex. UK. ISBN: 978-0-470-74330-0
- Timmons M.J., Wyatt R.A. and Murphy T., (2001) Speech after repair of isolated palate end cleft lip and palate. *British Journal of Plastic Surgery*, 54, 377-384. doi:10.1054/bjps.2001.3599
- Vallino-Napoli, L. D. (2011) Evaluation and Evidence-Based Practice. S. Howard & A. Lohmander (Red.). *Cleft Palate Speech. Assessment and Intervention* (ss. 317-358). Wiley-Blackwell. John Wiley and Sons. Wes Sussex. UK. ISBN:978-0-470-74330-0
- Van Demark, D. R. (1964) Misarticulations and listener judgements of the speech of individuals with cleft palates. *Cleft Palate Journal*, 1, 232-245.
- Whitehill, T. L, Lee, A. S. Y. & Chun, J. C. (2002) Direct Magnitude Estimation and Interval Scaling of Hypernasality. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, February, 45 (1), s 80-88. doi:10.1044/1092-4388(2002/006)

APPENDIX 1

CERTIFIERINGSNIVÅER

Styrgruppen för Nationella Kvalitetsregister har fastställt att registren ska delas in i certifieringsnivåer.

Nivåerna visar registrens olika utvecklingsnivåer och de kan därmed ge en helhetsbild av registrens förutsättningar. Certifieringsnivåerna är tänkta som en signal om åt vilket håll registerutvecklingen strävar.

KRAV PÅ DE OLIKA NIVÅERNA

REGISTERKANDIDATNIVÅ

- Hög relevans som Nationellt Kvalitetsregister, enligt expertgruppens bedömning.
- Förankring i vård och omsorg med god geografisk spridning, t.ex. via specialistföreningar och nationella nätverk.
- Beskrivning av hur registret samarbetar med patient/brukarföreningar.
- Utsedd registerhållare och styrgupp.
- Godkännande av en centralt personuppgiftsansvarig myndighet.
- Godkänd plan för registrets design.
- En plan för att få tillgång till nödvändig kompetens.

YTTERLIGARE KRAV PÅ NIVÅ 3

- Färdig möjlighet för registrering/datainsamling.
- Möjlighet till att ta ut statistik centralt.
- Godkänd analys och återkoppling av registerdata (nya: plan för).
- Påbörjat arbetet med funktioner för utdata till deltagande enheter.
- Utformning av registret enligt nationella standarder.

YTTERLIGARE KRAV PÅ NIVÅ 2

- Hög täckningsgrad utifrån aktuell patientgrupp.
- Online återkoppling till verksamheter som stödjer förbättringsarbete.
- Öppen redovisning av data, med identifierbara enheter, i årsrapporter och annan rapportering.
- Generellt bedömas skapa goda förutsättningar för verksamheternas systematiska förbättringsarbete och uppvisa exempel på att registret används aktivt för förbättringsarbete.
- Ha identifierat vilka mått som är särskilt viktiga för att indikera god kvalitet inom området.
- Innehålla patientrapporterade mått.
- Ha identifierat förbättringsområden och/eller målnivåer utifrån bearbetade data. Använts aktivt för forskning.

YTTERLIGARE KRAV PÅ NIVÅ 1

- Kopplar till relevanta evidensbaserade riktlinjer och deltar i ev riktlinjearbete och uppföljning av riktlinjer.
- Bidrar med data till Öppna Jämförelser.
- Har kartlagt sin täckningsgrad med hjälp av andra datakällor.
- Har information om resultat riktad till patienter tillgänglig på webben.
- Kan uppvisa förbättrade resultat inom vården.
- Används aktivt för forskning och innovation och forskningsprojekt baserat på registerdata har erhållit forskningsfinansiering i nationell eller internationell konkurrens.
- Gör användarundersökning hos verksamheterna.
- Bedöms av expertgruppen som ett avancerat Nationella Kvalitetsregister inom alla områden.
- Har validerat registerdatas kvalitet.

Recording

Audio No Yes

Video No Yes

Instrumental evaluation

Videoradiography

Not evaluated

Not judgeable

Evaluated, give

number (1-3)

Nasoendoscopy

Not evaluated

Not judgeable

Evaluated, give

number (1-3)

Nasometry

Not evaluated

Not judgeable

Evaluated, give

percentage (0-100%)

Evaluation data

Perceptuell evaluation (choose one alternative)

Not evaluated Not judgeable

Evaluated, please continue:

Velopharyngeal function (choose one alternative)

Not evaluated Not judgeable

Competent / sufficient Marginally incompetent / insufficient

Incompetent / insufficient

Oral consonants

Number completed *Number correct*

Speech errors in front of velopharynx

Number completed *Number correct*

Speech errors behind velopharynx

Number completed *Number correct*

Intelligibility (choose one alternative)

Not evaluated Not judgeable

Good / normal Mildly reduced Moderately to severely reduced

Examiner SLP

Last name: *First name:*

(Please, use block letters)

