

# ONTWIKKELEN VAN EEN TEST VOOR STOTTERBEWUSTZIJN BIJ KINDEREN MET DOWNSYNDROOM

Babette Maessen<sup>1</sup>, Inge Zink<sup>1</sup>, Bea Maes<sup>2</sup> en Ellen Rombouts<sup>1</sup>,

<sup>1</sup>Departement Neurowetenschappen, Experimentele Otorinolaryngologie, KU Leuven

<sup>2</sup>Centrum voor Orthopedagogiek

## KORTE INHOUD

Hoewel stotteren frequent voorkomt bij kinderen met downsyndroom zijn er geen genormeerde testen om het bewustzijn van en de attitude ten opzichte van stotteren na te gaan bij deze populatie. Bewustzijn en attitude spelen echter een grote rol in de ontwikkeling van dit spraakprobleem. Bestaande bewustzijns- en attitude testen voor typisch ontwikkelende kinderen kunnen niet gebruikt worden. Deze vereisen het vasthouden van informatie in het verbale kortetermijngeheugen en inlevingsvermogen in anderen, wat problematisch kan zijn bij kinderen met downsyndroom. Daarom werden er in deze studie vier nieuwe testen voor deze doelgroep ontwikkeld: een stotterdiscriminatietest, twee stotterbewustzijnstesten en een stotterattitudetest. Deze testen werden afgenomen bij 17 kinderen met downsyndroom die stotteren en 11 kinderen met downsyndroom die niet stotteren. Uit de resultaten bleek dat tien van de achtentwintig deelnemers stotteren van vloeiende spraak kunnen onderscheiden en dat er een positieve samenhang was tussen de ontwikkelingsleeftijd en de scores op de stotterdiscriminatietest. Deze test heeft ook een hoge test-hertest betrouwbaarheid. De twee bewustzijnstesten gaven tegenstrijdige resultaten weer, waardoor er kwalitatief naar de antwoorden werd gekeken. De attitudetest zorgde voor een gevaar van stereotypering van stotteren en werd stopgezet. De stotterdiscriminatie- en bewustzijnstesten kunnen hulp bieden bij de keuze van een stottertherapie.

Trefwoorden: Downsyndroom, Stotteren, Bewustzijn

## INLEIDING

Het syndroom van Down is een chromosomale aandoening die voorkomt bij ongeveer 1 op 700 pasgeborenen (Chisholm, 2018). Het syndroom wordt gekenmerkt door verschillende medische aandoeningen, uitgesproken gelaatskenmerken, een verstandelijke beperking en een expressieve taalachterstand die groter is dan verwacht wordt op basis van de verstandelijke beperking (Cassiman & Engelen, 2005; Chen, 2006; Chisholm, 2018). Naast problemen in de taal hebben personen met downsyndroom vaak ook vloeiendheidsproblemen (Kent & Vorperian, 2013). Ongeveer 30% van de kinderen met downsyndroom stottert (Eggers & Van Eerdenbrugh, 2018). Dit percentage ligt veel hoger dan de incidentie (8%) en prevalentie (1%) van stotteren in de algemene populatie (Yairi & Ambrose, 2013).

### Stotteren

Stotteren is een stoornis in de vloeiendheid van de spraak. Personen die stotteren weten wat ze willen zeggen maar ervaren problemen bij de vloeiende opeenvolging van woorden (Scott, 2017). De spraakstroom wordt onderbroken door onvrijwillige herhalingen (t-t-tekening), verlengingen (sssssoep) of blokkades (b-pauze-blij). Deze stottermomenten worden het primaire stottergedrag genoemd (Scott, 2017; Ward, 2006). Stotteren kan echter meer omvatten dan enkel dit primaire gedrag. Het omvat ook alle gedragingen die de persoon stelt om het stotteren te vermijden, ook wel secundair gedrag genoemd. De meest voorkomende secundaire gedragingen zijn: (a) vermijdingsgedrag, bijvoorbeeld een synoniem zoeken voor het woord waarop men dreigt te stotteren; (b) uitstelgedrag, bijvoorbeeld extra

lang nadenken over een antwoord in de hoop dat de spanning van het stottermoment vermindert; (c) startgedrag, bijvoorbeeld hoorbaar naar adem happen voor het begin van het woord om te voorkomen dat het woord al stotterend start; en (d) duwgedrag, bijvoorbeeld extra druk zetten door de ogen te sluiten om zo snel mogelijk door een stottermoment heen te raken (Bezemer, Bouwen, & Winkelman, 2018). Daarnaast heeft stotteren ook een grote impact op het sociale, cognitieve en emotionele welbevinden van een persoon (Bezemer et al., 2018; Scott, 2017; Stournaras, Baze, Bezemer, & Borselen, 1980). Hoe ernstig dit secundair gedrag is en hoe groot de impact is op de levenskwaliteit hangt af van het stotterbewustzijn en de attitude die een persoon heeft ten opzichte van het stotteren.

### **Bewustzijn en attitude**

Stotterbewustzijn en stotterattitude spelen een belangrijke rol in de ontwikkeling van de stoornis (Ambrose & Yairi, 1994). Stotterbewustzijn bij een jong kind is een risicofactor voor persistent stotteren waardoor al gauw directe therapie wordt aangeraden (Yairi & Ambrose, 2005). Er is echter geen duidelijke definitie van de term 'bewustzijn'. Over het algemeen wordt er met bewustzijn 'de kennis, het besef of de perceptie van iets of van zichzelf' bedoeld (Ambrose & Yairi, 1994; Boey et al., 2009; Devinsky, 1997). Er bestaan echter drie niveaus van bewustzijn en die worden opgedeeld in het niet-bewustzijn, het onderbewustzijn en het bovenbewustzijn (Balconi, Fronda, Venturella, & Crivelli, 2017). De bovenstaande definitie beschrijft echter enkel het bovenbewustzijn. Als iets zich op een 'niet-bewust' of onderbewust niveau bevindt, kan het gedachten en gedrag beïnvloeden, maar blijft zelf onder de drempel van het bovenbewustzijn (Devinsky, 1997). Het verschil tussen het 'niet-bewustzijn' en het onderbewustzijn, is dat wat zich op het onderbewust niveau bevindt dankzij aandacht wel in het bovenbewustzijn terecht kan komen (Devinsky, 1997). Eenmaal bewust van het stotteren, ontwikkelt men een attitude ten opzichte van dit stottergedrag. 'Attitude' betekent de evaluatie van een entiteit in positieve of negatieve zin, gebaseerd op het gedrag tegenover, de gevoelens bij en de gedachten over deze entiteit (Eagly & Chaiken, 1993). Stotteren leidt meestal tot een negatieve stotterattitude. Deze negatieve stotterattitude omvat secundair gedrag, negatieve gedachten over stotteren (bv. ik ben dom omdat ik stotter) en negatieve gevoelens zoals woede en verdriet omwille van het stotteren (Plexico, Manning, & Levitt, 2009; Scott, 2017). Deze evaluatie kan ook gebeuren wanneer het stotterbewustzijn zich enkel op een onderbewust niveau bevindt. Zo is het mogelijk dat een kind secundair gedrag en negatieve gevoelens vertoont op het moment van stotteren, maar dat het kind op een bovenbewust niveau geen kennis heeft van zijn of haar stotteren.

Het bovenbewustzijn van stotteren bij typisch ontwikkelende kinderen, kinderen die geen stoornis of beperking hebben, kan worden nagegaan aan de hand van een zelfidentificatietest. Ambrose en Yairi (1994) en Ezrati-Vinacour, Platzky, en Yairi (2001) gebruikten deze test bij respectievelijk kinderen die stotteren en vloeiende kinderen. Ze lieten hun deelnemers naar twee identieke poppen luisteren, waarbij er enkel een verschil was in de vloeiendheid van hun spreken. De deelnemers moesten hierbij de pop aanduiden waarvan de spraak het meeste op hun eigen spraak leek. Hieruit bleek dat sommige kinderen reeds bewust waren van de eigen vloeiendheid rond de leeftijd van drie jaar, maar bij de meeste kinderen was het bewustzijn pas echt ontwikkeld rond de leeftijd van 5 jaar. Dit gold zowel voor kinderen die stotteren als voor kinderen die vloeiend spraken. Ambrose en Yairi (1994) suggereerden dat de ontwikkeling van het metalinguïstisch bewustzijn een belangrijke rol speelt in het discrimineren en identificeren van het stotteren. Daarnaast vonden deze onderzoekers tegen de verwachting in dat er geen significante relatie was tussen het bovenbewustzijn van stotteren en de stotterernst.

Boey et al. (2008) onderzochten aan de hand van gestructureerde oudergesprekken of kinderen zich bewust zijn van hun stotteren. Hierbij werd de ouders gevraagd of er stotterbewustzijn is bij hun kind en welke bewijzen ze hiervoor zagen. Voorbeelden van het meest voorkomend gedrag dat volgens de ouders op stotterbewustzijn wees, waren (a) een opmerking geven over het spreken, (b) verandering van attitude, houding, (c) boos worden.

Boey et al. (2008) stelden ook vast dat er een toename was in stotterbewustzijn naarmate kinderen ouder waren. In tegenstelling tot Ambrose en Yairi (1994) vonden Boey et al. (2008) wel een significante en positieve samenhang tussen stotterernst en stotterbewustzijn. De kinderen die stotterbewust waren, hadden een hogere stotterernst dan kinderen die niet bewust waren van het stotteren. Omdat Boey et al. (2008) gebruik maakten van ouderobservaties, rapporteerden de auteurs mogelijks niet enkel het bovenbewustzijn van stotteren maar ook het onderbewustzijn. Als het kind verbaal kon weergeven dat het stotterde (e.g. "ik stotter"/ "ik zit vast") met daarbij een non-verbale reactie (e.g. wenen/ boos worden), was men zeker dat het kind zich op een bovenbewust niveau bewust was van het stotteren. Als het kind echter enkel non-verbale reacties vertoonde tijdens stottermomenten, is het mogelijk dat het kind zich enkel op een onderbewust niveau bewust was van het stotteren. Boey et al. (2008) rapporteerden dat 56,7% van de tweejarige kinderen bewust was van het stotteren, maar het is dus niet duidelijk op welk bewustzijnsniveau dit is.

Enkel via observatie van de secundaire gedragingen weten we nog niet zeker dat het kind een negatieve attitude heeft ten opzichte van zijn of haar stotteren op bovenbewust niveau, aangezien het om automatisch onbewust gedrag zou kunnen gaan. Het kind zou nog altijd bovenbewuste positieve gevoelens en gedachten kunnen hebben over het spreken en dus positief staan tegenover zijn/haar eigen spreken. Aan de andere kant kan het kind wel op bovenbewust niveau kennis hebben van het stotteren en wijst het secundaire gedrag wel op een negatieve attitude. Om stotterattitudes te meten wordt bij jonge kinderen gebruik gemaakt van de KiddyCAT (Vanryckeghem & Brutten, 2007). Dit is een korte vragenlijst waarbij het kind vragen over zijn of haar spreken beantwoordt met ja of nee. Hoewel deze vragenlijst opgesteld is voor kinderen tussen de leeftijd van 3 en 6 jaar, bevat het complexe vragen als 'vinden de mensen dat jij goed spreekt?'. Hoe hoger de score, hoe negatiever de attitude van het kind ten opzichte van zijn spreken.

### **Stotterbewustzijn en attitude bij downsyndroom**

De meeste kinderen met downsyndroom lijken stotteren enkel waar te nemen op een onderbewust niveau (Bray, 2015). Ze vertonen secundaire gedragingen en negatieve emoties tijdens de stottermomenten, maar hebben geen kennis van hun stotteren op een bovenbewust niveau en behouden een positieve attitude over hun spreken (Bray, 2015). Dit is mogelijk het gevolg van een nog niet volledig ontwikkeld metalinguïstisch bewustzijn. Onderzoek naar het metalinguïstisch bewustzijn bij downsyndroom is echter zeer beperkt en kijkt vooral naar de link met lezen (Gombert, 2002). Uit de studie van Gombert (2002) bleek dat kinderen met downsyndroom bij sommige metalinguïstische taken bijna even goed presteren als kinderen met een typische ontwikkeling. Personen met een minder uitgesproken verstandelijke beperking nemen hun stotteren wel op een bovenbewust niveau waar (Jackson, Cavenagh, & Clibbens, 2014; St Louis, 1986). Dit kan ook bij hen tot een negatieve attitude en een laag zelfbeeld leiden (Jackson et al., 2014; St Louis, 1986).

Er bestaan geen genormeerde testen om stotterbewustzijn en -attitude na te gaan bij kinderen met downsyndroom. De testen voor typisch ontwikkelende kinderen zijn onvoldoende aangepast. Zo hebben personen met downsyndroom het vaak moeilijk om verbale informatie vast te houden in hun kortetermijngeheugen (Chapman, 2006). Bij de test van Ambrose en Yairi (1994) en Ezrati-Vinacour et al. (2001) luisterden de kinderen eerst naar beide poppen voordat ze een keuze maakten. Bij personen met downsyndroom kan dit uitstel betekenen dat de verbale informatie van de eerste pop al uit het geheugen verdwenen is wanneer ze uiteindelijk een pop kiezen. Daarom werden er in onze studie nieuwe testen ontwikkeld. Voor de bewustzijnstesten baseerden we ons op de hierboven beschreven zelfidentificatietest (Ambrose & Yairi, 1994; Ezrati-Vinacour et al., 2001) maar deden we grote aanpassingen. Naast deze zelfidentificatietesten zijn ook de attitudetesten onvoldoende aangepast. Zo is de KiddyCat (Vanryckeghem & Brutten, 2007) uitsluitend verbaal en vereist het inlevingsvermogen in andere personen. Deze twee vaardigheden zijn moeilijker voor kinderen

met downsyndroom (Benson, Abbeduto, Short, Bibler, & Maas, 1993; Chapman, 2006; Cobos & Castro, 2010).

Daarom ontwikkelden we zelf aangepaste testen om stotterbewustzijn en stotterattitudes te meten bij kinderen met downsyndroom. Daarnaast voegden we ook een stotterdiscriminatietest toe, aangezien bewustzijn van stotteren niet mogelijk is als men het stotteren niet kan discrimineren van vloeiende spraak. In dit onderzoek gingen we na of de nieuwe discriminatie-, bewustzijns- en attitudetesten in staat zijn om discriminatie tussen vloeiend spreken en stotteren, bewustzijn van de eigen vloeiendheid en attitude ten opzichte van stotteren weer te geven bij kinderen met downsyndroom.

## **METHODE**

### **Deelnemers**

Achtentwintig kinderen en jongeren met downsyndroom tussen de leeftijd van 7 en 19 jaar namen deel aan de studie. Op basis van hun stotterfrequentie en stotterernst werden ze onderverdeeld in een stotter- en een niet-stottergroep (controlegroep). Tabel 1 geeft een overzicht van het aantal deelnemers per groep, de gemiddelde chronologische leeftijd, de gemiddelde ontwikkelingsleeftijd (op basis van receptieve woordenschat) en de gemiddelde stotterfrequentie en stotterernst.

### **Protocol**

Er werden vier testen ontworpen voor deze studie. Er was één discriminatietest om te meten of deelnemers het verschil hoorden tussen stotteren en vloeiende spraak. Er waren twee bewustzijnstesten, een korte en een lange, om na te gaan of deelnemers zich bovenbewust waren van de eigen vloeiendheid. Tenslotte ontwikkelden we een attitudetest om na te gaan of deelnemers een positieve of negatieve attitude hadden ten aanzien van stotteren. Al deze testen werden op een laptopscherm aan de deelnemers aangeboden.

De discriminatietest bestond uit drie fases: een leerfase, een oefenfase, en een testfase. In de leerfase luisterden de deelnemers naar Mickey Mouse die vloeiend praat en Minnie Mouse die stottert terwijl tekeningen van deze figuren op het laptopscherm werden weergegeven. Vervolgens werden getekende gezichten van vijf kinderen getoond. Bij elk van deze gezichten luisterden de deelnemers naar een spraakfragmentje en de onderzoeker zei of het kind zoals Mickey of zoals Minnie sprak. Bijvoorbeeld: 'Dit meisje praat zoals Minnie, die maakt van die hopjes'. Het woord stotteren werd niet gebruikt aangezien dit mogelijk geen betekenis had voor de deelnemers. In de oefenfase duiden de deelnemers zelf op het laptopscherm aan of het kind zoals Mickey of Minnie sprak, maar de onderzoeker verbeterde foutieve antwoorden en verduidelijkte waarom ze fout waren. In de testfase moesten de deelnemers hetzelfde doen als in de oefenfase bij 10 kinderen waarvan er vier vloeiend waren en zes stotterden, maar deze keer verbeterde de onderzoeker niet meer.

Er zijn twee bewustzijnstesten, een korte en een lange. De korte bewustzijnstest volgde onmiddellijk na de discriminatietest en ging na of de deelnemers zich identificeerden met een vloeiende Mickey of een stotterende Minnie. De deelnemers kregen zichzelf via een webcam te zien en moesten zeggen wie ze zagen. Zo werd hun vermogen tot zelfidentificatie gecontroleerd. Vervolgens moesten ze op het laptopscherm aangeven of ze zoals Mickey of Minnie praatten. In de lange bewustzijnstest werd er gekeken of de deelnemers hun eigen spraak associeerden met vloeiende of niet-vloeiende spraak. Hier werd er opnieuw naar 10 kinderen geluisterd, waarvan er vier vloeiend spraken en zes stotterden. Hiervoor werd gebruik gemaakt van dezelfde tekeningen van kinderen als in de identificatietest, maar hun uitingen waren verschillend. Na elke kind kregen de deelnemers twee pictogrammen te zien met de

afbeelding 'ik', over een van de twee was echter een rood kruis getekend, zodat de betekenis van het pictogram 'niet ik' was. Bij elke kind moesten de deelnemers aanduiden 'praat zoals ik' of 'praat niet zoals ik'.

In de attitudetest werd er weer tweemaal naar 10 getekende kinderen geluisterd met dezelfde verdeling in vloeiend en onvloeiend spreken. Naast de 10 kinderen werden de eerste keer pictogrammen van een duim omhoog en een duim omlaag vertoond en duiden de deelnemers aan of de kinderen respectievelijk 'goed' of 'niet goed' spraken. Hiermee gingen we de gedachten over stotteren na. De tweede keer werden er naast de 10 kinderen tekeningen van de kinderen zelf met een lachende of pruilende mond vertoond en duiden de deelnemers aan of de kinderen respectievelijk 'blij' of 'niet blij' waren. Hiermee gingen we de gevoelens van stotteren na. Aangezien deze twee lijsten wel met elkaar werden vergeleken, werden tweemaal dezelfde uitingen gebruikt voor de 10 getekende kinderen. Deze attitudetest samen met het geobserveerde secundaire gedrag geeft weer of de deelnemers een positieve of negatieve attitude hebben tegenover stotteren.

## Analyse

De deelnemers werden verdeeld in de stotter- en niet-stottergroep op basis van hun stotterfrequentie en stotterernst. Deze werden berekend aan de hand van het transcriptieprogramma CLAN (MacWhinney, 2000) en de Test voor Stotterernst-Niet Lezers (TvS-NL, Boey, 2007). Alle spontane spraak van de deelnemers werd uitgeschreven in CLAN, waarna met hetzelfde programma alle stottermomenten werden gecodeerd. De stotterfrequentie werd berekend als de deling van het aantal stottermomenten door het totaal aantal woorden. Bij de stotterfrequentie werd het 3% criterium gebruikt (Boey, Wuyts, Van de Heyning, De Bodt, & Heylen, 2007). Alle deelnemers met een stotterfrequentie van 3% of hoger werden in de stottergroep geplaatst, en alle deelnemers met een stotterfrequentie lager dan 3% werden in de niet-stottergroep geplaatst. Bij de indeling werd er ook rekening gehouden met de stotterernst van de deelnemers. Dit omvat de stotterfrequentie en alle bijkomende gedragingen die een persoon vertoont om met het stotteren om te gaan. Deze werden gescoord met de TvS-NL. Deelnemers met een stotterfrequentie tussen de 2% en 3%, maar met een stotterernst score op de TvS-NL boven percentiel 21 werden ook in de stottergroep geplaatst.

Om te bepalen of de deelnemers zich bewust waren van hun eigen vloeiendheid, moesten we eerst bepalen of de deelnemers het verschil konden horen tussen vloeiende en niet-vloeiende spraak. Een score van 8/10 of hoger op de discriminatietest betekende dat de deelnemers stotteren konden identificeren. Een score lager dan 8 betekende dat de deelnemers het stotteren niet konden identificeren of dat ze het doel van de opdracht niet hadden begrepen. We hebben de cut-off score op 8 gezet omwille van de 5/10 gokkans.

Bij de korte bewustzijnstest konden de deelnemers een 0 of 1 score krijgen, overeenkomend met een foute of juiste zelfidentificatie gebaseerd op hun stotterfrequentie. Bij de lange bewustzijnstest werd er enkel rekening gehouden met de antwoorden bij de zes items van de niet-vloeiende spraak. Bij elke deelnemer werd de keuze 'zoals ik' bij een vloeiend kind juist gerekend aangezien ook de kinderen die stotteren vaak vloeiend spreken. Hier was een totaalscore van 6. Enkel een score van 5 of 6 betekende dat de deelnemer zich bewust is van zijn of haar eigen vloeiendheid op een bovenbewust niveau. Alle scores onder 5 betekenden dat de deelnemer zich niet bewust is van zijn/haar vloeiendheid en/of de testopdracht niet doorhad.

Bij de attitudetest werd enkel gekeken naar hoe het stotterende spreken beoordeeld werd. Indien het vloeiende spreken negatief beoordeeld werd (niet goed en niet blij), was er een vermoeden dat de deelnemer de opdracht niet begreep. Na enkele pilootstudies is er echter voor gekozen om de attitudetest niet verder af te nemen. We vreesden dat de test indirect zou aanleren dat vloeiende spraak goed was en niet-vloeiende spraak slecht. Als de

deelnemers in staat zijn om stotteren te discrimineren van vloeiende spraak, dan worden via de attitudetest mogelijks stereotype evaluaties aangeleerd over stotteren. Aangezien de deelnemers in elke lijst maar twee keuzes hebben, kunnen ze denken dat ze 'niet goed' en 'niet blij' moeten kiezen bij stotteren en omgekeerd bij vloeiende spraak.

Een tweezijdige Mann Whitney U test werd gebruikt om voor alle testen na te gaan of er een verschil is in de scores van de stottergroep en de niet-stottergroep. Een eenzijdige partiële Spearman correlatie werd gebruikt om te kijken of de factoren chronologische leeftijd, ontwikkelingsleeftijd en stotterernst een invloed uitoefenen op de resultaten van de testen. We werkten eenzijdig omdat we verwachtten dat een hogere leeftijd en stotterernst voor een betere score zouden zorgen (beter in discriminatie en hoger bewustzijn). We gebruikten partiële correlaties omdat de factoren elkaar onderling ook beïnvloeden. We berekenden bijvoorbeeld de correlatie tussen de score op de discriminatietest en de chronologische leeftijd, terwijl we controleerden voor stotterernst en ontwikkelingsleeftijd.

## RESULTATEN

Op de discriminatietest hadden tien van de achtentwintig deelnemers een score hoger dan 8. Zij leken in staat om het verschil te horen tussen niet-vloeiende en vloeiende spraak. Er was geen significant verschil tussen de scores van de stotter- en de niet-stottergroep ( $U = 86000$ ;  $p = 0,746$ ). Er werd een significante en matige samenhang gevonden tussen de scores op de discriminatietest en de ontwikkelingsleeftijd en dit zowel in de stottergroep ( $r_s = 0,485$ ;  $p = 0,034$ ) als in de niet-stottergroep ( $r_s = 0,677$ ;  $p = 0,023$ ). Hoe hoger de ontwikkelingsleeftijd, hoe hoger de score op de discriminatietest en vice versa. Er werd geen significante partiële samenhang gevonden tussen de chronologische leeftijd en de stotterernst.

Enkel de resultaten van de 10 kinderen met een score van 8 of hoger op de discriminatietest werden gebruikt voor de analyse van de bewustzijnstesten. Van deze 10 kinderen behoorden er 7 tot de stottergroep en 3 tot de niet-stottergroep. Volgens de korte bewustzijnstest waren de drie niet-stotterende kinderen zich bewust van hun vloeiendheid en volgens de lange bewustzijnstest waren er twee van de drie zich hiervan bewust. Van de zeven deelnemers die in de stottergroep zaten, waren er zowel in de korte als in de lange bewustzijnstest maar twee zich bewust van het stotteren. De twee bewuste deelnemers in de korte bewustzijnstest hadden een gemiddelde stotterernst score van percentiel 33 en gemiddelde chronologische en ontwikkelingsleeftijd van respectievelijk 15;2 jaar en 5;7 jaar terwijl de vijf onbewuste deelnemers een gemiddelde stotterernst van percentiel 49,40 hadden en een chronologische en ontwikkelingsleeftijd van 16;0 jaar en 7;10 jaar.

De twee deelnemers in de lange bewustzijnstest hadden een gemiddelde stotterernst score van percentiel 88,5 en een chronologische en ontwikkelingsleeftijd van 13,8 jaar en 5;11 jaar en hier hadden de vijf onbewuste deelnemers een gemiddelde stotterernst score van percentiel 27,2 en een chronologische en ontwikkelingsleeftijd van 16;7 jaar en 7;8 jaar. Er werd geen significante samenhang gevonden tussen de score op de korte bewustzijnstest en de chronologische leeftijd, ontwikkelingsleeftijd of stotterernst. Ook bij de lange bewustzijnstest werd er geen significante samenhang gevonden met deze factoren.

Voor de test-hertest betrouwbaarheid namen we de discriminatie- en bewustzijnstesten opnieuw af bij acht deelnemers na een periode van gemiddeld vijf maanden. Er was een zeer sterke overeenkomst tussen de metingen op testmoment 1 en testmoment 2 voor de discriminatietest ( $r = 0,775$ ;  $p < 0,05$ ). Voor de korte bewustzijnstest was er slechts een zwakke overeenkomst ( $r = 0,500$ ,  $p > 0,05$ ), net als voor de lange bewustzijnstest ( $r = 0,467$ ,  $p > 0,05$ ). Er zijn geen genormeerde discriminatietesten en bewustzijnstesten voor kinderen met downsyndroom waarmee de validiteit van de testen kan nagegaan worden. Er werd een correlatie berekend tussen de scores op de bewustzijnstesten en het bewustzijn van de kinderen volgens de ouders. In een door de auteurs zelf ontworpen vragenlijst hadden de

ouders aangegeven of ze dachten dat hun kind bewust was van zijn of haar stotteren. Er werden echter voor geen van beide testen significante correlaties gevonden tussen het gerapporteerde bewustzijn en onze metingen.

## DISCUSSIE

In het huidige onderzoek beoogden we nieuwe testen te ontwikkelen om stotterbewustzijn en –attitudes te meten bij kinderen met downsyndroom. Uit de discriminatietest kunnen we afleiden dat de ontwikkelingsleeftijd van een deelnemer voldoende hoog moet zijn om het verschil te kunnen horen tussen vloeiend en niet vloeiend spreken en/of om de opdracht te begrijpen. Hoe hoger de ontwikkelingsleeftijd was, hoe hoger de score op de discriminatietest. Een mogelijke verklaring hiervoor is de ontwikkeling van het metalinguïstisch bewustzijn (Ambrose & Yairi, 1994). Deze vaardigheid begint pas te ontwikkelen rond een ontwikkelingsleeftijd van 3 à 4 jaar en is pas goed ontwikkeld rond een ontwikkelingsleeftijd van 5 jaar. Over de ontwikkeling van het metalinguïstisch bewustzijn bij kinderen met downsyndroom is weinig bekend, maar aangezien zowel hun cognitieve ontwikkeling als hun taalontwikkeling vertraagd verloopt en het metalinguïstisch bewustzijn sterk samenhangt met de cognitieve en taalontwikkeling (taaldenken), veronderstellen we dat de ontwikkeling van hun metalinguïstisch bewustzijn ook vertraagd verloopt. Ambrose en Yairi (1994) veronderstelden dat het metalinguïstisch bewustzijn van kinderen die stotteren sneller ontwikkelt omwille van het stotteren. In ons onderzoek bleken de ontwikkelingsleeftijden van de kinderen die stotteren en stotterbewust waren echter niet lager te liggen dan die van de kinderen die niet stotteren. Daarnaast bleken de kinderen die stotteren ook niet in staat de discriminatietest beter uit te voeren dan de kinderen die niet stotteren. De nieuwe discriminatietest zal in verder onderzoek ook uitgevoerd worden bij kinderen met een typische ontwikkeling die stotteren en niet stotteren om deze resultaten te vergelijken.

Van de 10 deelnemers die een voldoende hoge score hadden op de discriminatietest, waren er zeven die stotteren. Van deze zeven deelnemers waren er zowel in de korte bewustzijnstest als in de lange bewustzijnstest twee die zich bovenbewust zijn van hun stotteren. Dit waren echter niet dezelfde kinderen in beide testen (Zie tabel 2). Alle namen van deelnemers weergegeven in dit artikel zijn pseudonamen.

Daniel en Floris gaven aan dat zij zoals Minnie die stottert spraken, maar kozen bij alle kinderen die stotterden in de lange bewustzijnstest 'niet zoals ik'. Daniel leek zich bij de korte bewustzijnstest zeer bewust van zijn stotteren, maar ontkende zijn onvloeiend spreken zeer vastberaden bij de lange bewustzijnstest. Het is echter niet duidelijk of het hier gaat om enkel bewustzijn op een onderbewust niveau aangezien hij wel licht secundair gedrag vertoonde, of dat het gaat om bovenbewustzijn van stotteren maar dat hij in ontkenning is. Bij Floris is er een hertest gebeurd. Daaruit bleek dat hij inderdaad het verschil hoorde tussen vloeiend en niet-vloeiend spreken en dat hij niet weet dat hij zelf stottert. Het is bij Floris echter ook mogelijk dat hij bewust is van zijn stotteren, maar dit ontkent in de testen. Bij Naomi en Gabby gebeurde het omgekeerde; zij identificeerden zich beiden als de vloeiend sprekende Mickey, maar zegden ook bij (bijna) alle stottermomenten 'praat zoals ik'. Een mogelijke verklaring is dat ze weten dat ze stotteren maar dat ze ook weten dat ze zoals Mickey kunnen praten of aangeven dat ze zoals Mickey willen praten. Naomi is de enige deelneemster die ooit stottertherapie heeft genoten en hoewel ze wat ze geleerd heeft in deze therapie niet toepast tijdens haar spreken, weet ze wel wat stotteren is en kan ze hierover praten. Ze is zich er zeer duidelijk bovenbewust van. Mogelijks heeft ze in deze therapie ook geleerd dat ze vloeiend kan zijn door middel van bepaalde technieken en kiest ze om deze reden voor Mickey.

Net zoals bij Ambrose en Yairi (1994), maar in tegenstelling tot Boey et al. (2008) werd er geen significante relatie gevonden tussen de stotterernst en de score op de korte of lange bewustzijnstest. In tegenstelling tot Yairi en Ambrose werd er echter ook geen significante

relatie gevonden tussen de (chronologische of ontwikkelings) leeftijd van de deelnemer en de score op de bewustzijnstest. Hoewel de ontwikkelingsleeftijd wel een invloed heeft op het identificeren van het vloeiend en niet-vloeiend spreken bij anderen, had het bij de kinderen met downsyndroom geen invloed op het eigen bewustzijn van hun vloeiendheid. Het is mogelijk dat er wel een invloed is van een of beide factoren maar dat de overgebleven groep van 10 kinderen te klein is om een correlatie te vinden. Daarnaast was de gemiddelde stotterfrequentie van de vijf deelnemers die zich niet bewust waren van hun stotteren volgens de korte en de lange bewustzijnstest respectievelijk gelijk aan 9,028% en 6,088%. Mogelijks zijn deze stotterfrequenties te laag om de drempel van het bovenbewustzijn te bereiken bij kinderen met downsyndroom.

De test-hertest betrouwbaarheid van de bewustzijnstesten is laag, maar dit is te verwachten aangezien het merendeel van de deelnemers geen onderscheid kan maken tussen stotteren en vloeiend spreken of de opdracht niet begrijpt. We konden de validiteit van de testen niet aantonen via correlatie met ouder rapportering. Dit komt vermoedelijk doordat ouders bewustzijn rapporteren als ze secundair gedrag observeren bij hun kind (Boey et al., 2009). Zoals eerder vermeld kunnen de secundaire reacties ook wijzen op bewustzijn van stotteren op een onderbewust niveau. Om de betrouwbaarheid van de testen na te gaan moeten ze afgenomen worden bij een grotere groep kinderen met downsyndroom die een hoge score halen op de stotterdiscriminatietest. De bewustzijnstesten zullen ook afgenomen worden bij kinderen met een typische ontwikkeling om te kunnen vergelijken met de kinderen met downsyndroom.

Mogelijks is er een onderschatting gebeurd van het aantal kinderen dat in staat is het verschil te horen tussen stotteren en niet-stotteren. Het zou kunnen dat deelnemers met een score van 7 ook in staat zijn om het stotteren te identificeren maar door vermindering in aandacht juist een fout teveel gemaakt hebben. Het zou ook kunnen dat ze de discriminatieoefening niet of te laat doorhadden en hierdoor niet bij de analyses zijn opgenomen, maar de bewustzijnsoefening wel doorhadden. Ook is het mogelijk dat kinderen bij de bewustzijnstesten zich wel bewust waren van hun stotteren, maar aanduiden hoe ze zouden willen praten of expres het stotteren ontkenden, zoals we vermoeden bij deelnemer Daniel. In de praktijk is het daarom belangrijk om bij deze testen ook de reacties van de kinderen op de testen mee in rekening te nemen.

Deze testen zijn een eerste aanzet om diagnostische testen specifiek voor kinderen met downsyndroom te ontwikkelen. Na verbetering en afname van deze testen bij een groter doelpubliek, kunnen ze hulp bieden bij het kiezen van de therapieaanpak van kinderen met downsyndroom. Als men bij de discriminatietest merkt dat de cliënt niet in staat is om tussen vloeiende en niet-vloeiende spraak te discrimineren, ondanks de leer- en oefenfase, dan kan men best niet rechtstreeks op het stotteren werken in de therapie. Als de cliënt wel kan discrimineren, maar geen bewustzijn vertoont, kiest men ook best voor een indirecte aanpak. Hierbij moet er natuurlijk opgelet worden voor mogelijks valse rapporteringen van kinderen die het stotteren proberen te ontkennen. Als blijkt dat de deelnemer zich wel bewust is van zijn of haar stotteren, kan er gekozen worden voor een rechtstreeks aanpak. Hun attitude over hun spreken zal vooral via observatie moeten bepaald worden. In de toekomst zullen we proberen een attitudetest te ontwikkelen zonder mogelijke negatieve implicaties over stotteren.

## **CONCLUSIE**

In het huidig onderzoek werden vier diagnostische testen ontwikkeld om bij kinderen met downsyndroom het stotterbewustzijn en de attitude tegenover stotteren na te gaan. Deze testen werden uitgetoetst bij achtentwintig kinderen met downsyndroom. Er werd een positieve samenhang gevonden tussen de ontwikkelingsleeftijd en de capaciteit om stotteren



van vloeiende spraak te onderscheiden. Aangezien deze capaciteit nodig is om zich bewust te zijn van stotteren, lieten we enkel de 10 deelnemers met deze capaciteit deelnemen aan de bewustzijnstesten. De twee nieuwe bewustzijnstesten gaven een laag bewustzijn van stotteren weer bij kinderen met downsyndroom die stotteren. Na kwalitatieve analyse is er het vermoeden dat de rapportering van bewustzijn beïnvloed wordt door hoe de kinderen willen spreken ten opzichte van hoe ze werkelijk spreken. De bewustzijnstesten moeten echter bij een grotere groep kinderen met een hoge score op de stotterdiscriminatietest afgenomen worden om de betrouwbaarheid na te gaan. De stotterdiscriminatietest en bewustzijnstest kunnen in de toekomst gebruikt worden als hulpmiddel bij het kiezen van een stottertherapie.

## REFERENTIES

- Ambrose, N. G., & Yairi, E. (1994). The development of awareness of stuttering in preschool children. *Journal of Fluency Disorders*, 19(4), 229–245. [https://doi.org/10.1016/0094-730X\(94\)90002-7](https://doi.org/10.1016/0094-730X(94)90002-7)
- Balconi, M., Fronda, G., Venturella, I., & Crivelli, D. (2017). Conscious, pre-conscious and unconscious mechanisms in emotional behaviour. Some applications to the mindfulness approach with wearable devices. *Applied Sciences (Switzerland)*, 7(12), 1–14. <https://doi.org/10.3390/app7121280>
- Benson, G., Abbeduto, L., Short, K., Bibler, J., & Maas, F. (1993). Development of theory of mind in individuals with mental retardation. *American Journal on Mental Retardation*, 98, 427–433.
- Bezemer, M., Bouwen, J., & Winkelman, C. (2018). *Stotteren. Van theorie naar therapie* (3e ed.). Bussum: Uitgeverij Coutinho.
- Boey, R. (2007). *Test voor stotterernst niet-lezers en lezers*. Belsele: Vlaamse Vereniging voor Logopedisten.
- Boey, R. A., Van de Heyning, P. H., Wuyts, F. L., Heylen, L., Stoop, R., & De Bodt, M. S. (2009). Awareness and reactions of young stuttering children aged 2-7 years old towards their speech disfluency. *Journal of Communication Disorders*, 42(5), 334–346. <https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2009.03.002>
- Boey, R. A., Wuyts, F. L., Van de Heyning, P. H., De Bodt, M. S., & Heylen, L. (2007). Characteristics of stuttering-like disfluencies in Dutch-speaking children. *Journal of Fluency Disorders*, 32(4), 310–329. <https://doi.org/10.1016/j.jfludis.2007.07.003>
- Bray, M. (2015). Is Stuttering Therapy Useful for Adolescents and Adults with Down Syndrome who are Dysfluent? *Procedia - Social and Behavioral Sciences*, 193, 51–61. <https://doi.org/10.1016/j.sbspro.2015.03.244>
- Cassiman, J. J., & Engelen, J. J. M. (2005). Chromosomale overerving. In E. K. Bijlsma, J. C. Oosterwijk, N. J. Leschot, J. P. . Geraerds, & J. C. Pronk (Eds.), *Leerboek medische genetica* (pp. 123–150). Maarssen: Elsevier gezondheidszorg.
- Chapman, R. (2006). Language learning in Down syndrome: The speech and language profile compared to adolescents with cognitive impairment of unknown origin. *Down Syndrome Research and Practice*, 10(2), 61–66. <https://doi.org/10.3104/reports.306>
- Chen, H. (2006). Down syndrome. In *Atlas of Genetic Diagnosis and Counselling* (pp. 870–873). Totowa, N.J.: Humana Press. <https://doi.org/10.1007/978-1-60327-161-5>
- Chisholm, K. M. (2018). Down syndrome. *Atlas of Genetics and Cytogenetics in Oncology and Haematology*, 22(4), 182–184. <https://doi.org/10.4267/2042/68892>
- Cobos, F. J. M., & Castro, M. C. A. (2010). Theory of mind in young people with Down's Syndrome. *International Journal of Psychology and Psychological Therapy*, 10(3), 363–385. <https://doi.org/10.1016/j.taap.2004.12.008>
- Devinsky, O. (1997). Neurological aspects of the conscious and unconscious mind. *Annals of the New York Academy of Sciences*, 835, 321–329. <https://doi.org/10.1111/j.1749-6632.1997.tb48639.x>
- Eagly, A. H., & Chaiken, S. (1993). The nature of attitudes. *The Psychology of Attitudes*, (5), 1–21.
- Eggers, K., & Van Eerdenbrugh, S. (2018). Speech disfluencies in children with Down

- Syndrome. *Journal of Communication Disorders*, 71, 72–84.  
<https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2017.11.001>
- Ezrati-Vinacour, R., Platzky, R., & Yairi, E. (2001). The young child's awareness of stuttering-like disfluency. *Journal of Speech Language and Hearing Research*, 44, 368–380.  
<https://doi.org/10.1093/nq/s5-XI.279.358-a>
- Gombert, J. E. (2002). Children with Down syndrome use phonological knowledge in reading. *Reading and Writing*, 15(5–6), 455–469.  
<https://doi.org/10.1023/A:1016324016485>
- Jackson, C., Cavenagh, P., & Clibbens, J. (2014). Communication and self-esteem in adults with Down syndrome. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 49(3), 275–287. <https://doi.org/10.1111/1460-6984.12060>
- Kent, R. D., & Vorperian, H. K. (2013). Speech impairment in Down syndrome: A review. *Journal of Speech, Language and Hearing Research*, 56(February), 178–210.  
[https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2012/12-0148\)](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2012/12-0148))
- MacWhinney, B. (2000). *The CHILDES Project: Tools for Analyzing Talk* (3rd ed.). Mahwah, NJ: Lawrence Erlbaum Associates. <https://doi.org/10.21415/T5G10R>
- Plexico, L. W., Manning, W. H., & Levitt, H. (2009). Coping responses by adults who stutter: Part I. Protecting the self and others. *Journal of Fluency Disorders*, 34(2), 87–107.  
<https://doi.org/10.1016/j.jfludis.2009.06.001>
- Scott, K. S. (2017). Stuttering and Cluttering. In *Research in Clinical Pragmatics* (Vol. 11, pp. 471–490). <https://doi.org/10.1007/978-3-319-47489-2>
- St Louis, K. O. (1986). *The Atypical stutterer: principles and practices of rehabilitation*. Orlando, FL: Academic Press.
- Stourmaras, E. F., Baze, M., Bezemer, M., & Borselen, W. (1980). Stotteren bij kinderen. In C. H. Waar (Ed.), *Stem-, spraak- en taaltoornissen bij kinderen* (pp. 65–95). Alphen a/d Rijn: Stafleus Wetenschappelijke Uitgeversmaatschappij.
- Vanryckeghem, M., & Brutten, G. J. (2007). *KiddyCAT: Communication Attitude Test for preschool and kindergarten children who stutter*. San Diego, CA: Plural Publishing.
- Ward, D. (2006). *Stuttering and cluttering* (1st ed.). New York: Psychology Press, Taylor & Francis Group.
- Yairi, E., & Ambrose, N. (2013). Epidemiology of stuttering: 21st century advances. *Journal of Fluency Disorders*, 38(2), 66–87. <https://doi.org/10.1016/j.jfludis.2012.11.002>
- Yairi, E., & Ambrose, N. G. (2005). *Early childhood stuttering. For clinicians by clinicians*. Austin, Texas: Pro-Ed.

## **CORRESPONDENTIEADRES**

Babette Maessen  
ExpOrl, Dept. Neurowetenschappen  
Herestraat 49, bus 721  
3000 Leuven  
Telefoon: +32 16 37 24 89  
E-mail: [babette.maessen@kuleuven.be](mailto:babette.maessen@kuleuven.be)

Tabel 1. *Deelnemersinformatie.*

|                         | Stottergroep (17)  |            | Niet-stottergroep (11) |            |
|-------------------------|--------------------|------------|------------------------|------------|
|                         | Gemiddelde         | SD         | Gemiddelde             | SD         |
| Chronologische leeftijd | <b>14 jr 9 mnd</b> | 3 jr 9 mnd | <b>11 jr 9 mnd</b>     | 3 jr 5 mnd |
| Ontwikkelingsleeftijd   | <b>5 jr 7 mnd</b>  | 2 jr 3 mnd | <b>5 jr 3 mnd</b>      | 2 jr 2 mnd |
| Stotterfrequentie       | <b>8,64 %</b>      | 6,68%      | <b>0,67 %</b>          | 0,68%      |
| Stotterernst            | <b>Pc 46,29</b>    | 29,199     | <b>Pc 4,36</b>         | Pc 4,365   |

Tabel 2. *Verschillende scores bewustzijnstesten.*

| <b>Naam</b> | <b>TVS-Pc</b> | <b>Ident. test (10)</b> | <b>Bewust kort (1)</b> | <b>Bewust lang (6)</b> |
|-------------|---------------|-------------------------|------------------------|------------------------|
| Daniel      | 21            | 10                      | 1                      | 0                      |
| Floris      | 45            | 9                       | 1                      | 1                      |
| Naomi       | 87            | 10                      | 0                      | 6                      |
| Gabby       | 90            | 8                       | 0                      | 5                      |