

Vloeiendheidsontwikkeling bij kinderen met een verhoogd risico om te gaan stotteren

P. Janssen¹, F. Kraaimaat², S. Kloth en G.J. Brutten³

¹Universitair Medisch Centrum Utrecht, Afdeling Foniatrie, ²Katholieke Universiteit Nijmegen, Medische Psychologie, ³University of Central Florida, Orlando, Florida, USA

Honderd kinderen, geselecteerd op het gegeven dat de biologische vader en/of moeder een gediagnosticeerde stotteraar is/was, namen vanaf hun tweede tot vierde jaar deel aan een prospectief, longitudinaal onderzoek. Voorwaarde voor deelname was dat tijdens het eerste contact geen stotterverschijnselen bij de kinderen door de ouders werden gerapporteerd, noch door de onderzoekers werden genoteerd. Doel van het onderzoek was de incidentie van stotteren en het spontaan herstel ervan bij deze high-risk kinderen longitudinaal vast te stellen en prospectieve informatie te verzamelen over de spraak van de kinderen vóór, tijdens en na het ontstaan van stotterend spreken. Van de in totaal 100 kinderen konden er 85 tot en met de leeftijd van 11-13 jaar worden gevolgd. Van deze 85 kinderen begonnen er 39 (46%) te stotteren, in meerderheid tussen het tweede en vierde levensjaar. Acht kinderen (10%) stotterenden omstreeks hun 12e jaar nog steeds, de rest (74%) herstelde in de loop van het onderzoek. Details over geslacht, leeftijd bij aanvang, wijze van aanvang, duur van de stotterperiode en therapie worden eveneens vermeld. De verzamelde informatie over de kinderen berust grotendeels op een regelmatige rapportage van de ouders via vragenlijsten en interviews. Daarnaast werden van de kinderen in de eerste twee jaar van het onderzoek, op de leeftijd van 2-4 jaar, 3-5 jaar en 4-6 jaar, spraaksamples verzameld en geanalyseerd op stotter niet-vloeiendheden, border niet-vloeiendheden en normale niet-vloeiendheden. De 39 kinderen die later gingen stotteren vertoonden omstreeks het moment dat ze daarmee begonnen meer border niet-vloeiendheden dan de overige kinderen uit deze high-risk groep. De normale niet-vloeiendheden daarentegen differentieerden niet tussen de twee groepen.

Inleiding

Het is inmiddels een algemeen geaccepteerd feit dat kinderen bij wie het stotteren in de familie zit een verhoogd risico hebben om te gaan stotteren. De vier meest omvang-

Correspondentieadres: P. Janssen, Universitair Medisch Centrum Utrecht, Afdeling Foniatrie, Postbus 85500, 3508 GA Utrecht.

rijke case-control familiestudies (Kay, 1964; Kidd, 1984; Ambrose, Yairi & Cox, 1993; Janssen, Kloth, Kraaimaat & Brutten, 1996) geven opmerkelijk gelijke percentages van voorkomen van stotteren onder eerstegraadverwanten, namelijk om en nabij de 15%. Dat is drie keer zoveel als in de totale populatie. Het risico om te gaan stotteren is daarbij niet voor alle familieleden gelijk. Stottert de vader, dan heeft een zoon 20 tot 26% kans om ook te gaan stotteren, een dochter 10 tot 15%. Stottert de moeder, dan liggen de percentages nog wat hoger. Een erfelijke aanleg voor stotteren lijkt dus onmiskenbaar, al weten we nog niet waar die aanleg uit bestaat en hoe de overerving precies plaatsvindt.

Ook in de klinische praktijk ziet men het voorkomen van stotteren in de familie bij een kind met beginnende stotterverschijnselen als één van de belangrijkste risicofactoren. De meeste stottertherapeuten zullen bij een dergelijk kind minder geneigd zijn om de ontwikkeling af te wachten, en eerder ingrijpen. Men gaat er dan impliciet van uit dat kinderen met een positieve familiegeschiedenis niet alleen meer kans hebben om te gaan stotteren, maar ook een slechtere prognose hebben, d.w.z. minder kans op spontaan herstel. Maar, al is bij het ontstaan van stotterend spreken een erfelijke factor onmiskenbaar, ook rijpings-, ontwikkelings- en omgevingsfactoren spelen een rol. Ze spelen een rol bij het tot expressie komen van de aanleg, en waarschijnlijk zijn ze doorslaggevend bij het al dan niet spontaan herstellen ervan.

Tien jaar geleden begonnen wij met een prospectief longitudinaal onderzoek bij zeer jonge kinderen die een stotterende vader of moeder hebben. Zelf vertoonden de kinderen bij aanvang van het onderzoek (nog) geen stotterverschijnselen. Het gaat hier om een unieke groep. In de literatuur is niet eerder melding gemaakt van longitudinaal onderzoek bij kinderen met een genetisch bepaalde aanleg voor stotteren. Onze kennis over de ontwikkeling van stotterend spreken in de vroegste kinderjaren baseert zich voornamelijk op klinische observaties binnen groepen reeds stotterende kinderen van Johnson (1959), Bloodstein (1960a, 1960b, 1961) en Van Riper (1971). En daarnaast op de longitudinale studies van Andrews en Harris (1964), en, meer recent, van Yairi en zijn medewerkers (Ambrose & Yairi, 1999; Ambrose, Cox & Yairi, 1997; Yairi, 1982, 1983, 1997; Yairi & Ambrose, 1992a, 1992b; Yairi, Ambrose & Niermann, 1993; Yairi, Ambrose, Paden & Throneburg, 1996). Andrews en Harris volgden over een aantal jaren een random populatie van 1000 kinderen vanaf de geboorte. Yairi en medewerkers bestudeerden de ontwikkeling van een groep jonge kinderen vanaf ongeveer 6 maanden nadat zich bij deze kinderen stotterverschijnselen hadden voorgedaan.

Het selecteren van risicokinderen, bij wie nog geen stotterverschijnselen geconstateerd zijn, biedt extra mogelijkheden om het ontstaan en verloop van stotterend spreken in de vroege kinderjaren en de factoren die daarop van invloed zijn te bestuderen. Op basis van de uitkomsten van familiestudies is immers te verwachten dat om en nabij de 25% van deze kinderen gaat stotteren. De voorlopige resultaten van het prospectieve gedeelte, over de eerste twee jaren van het onderzoek, zijn inmiddels in een aantal publicaties bekend gemaakt (Kloth, Janssen, Kraaimaat & Brutten, 1995a; 1995b, 1998). Zeer onlangs, tien jaar na aanvang, is het onderzoek definitief afgesloten met een laatste follow-up. In dit artikel wordt verslag gedaan over (1) de incidentie, prevalentie en het spontaan herstel van stotteren binnen deze groep kinderen over een perio-

de van 10 jaar, en (2) de vloeiendheidsontwikkeling van de kinderen in de eerste twee jaren van het onderzoek.

Methodologie

Proefgroep

Bij aanvang van het onderzoek in 1989 bestond de proefgroep uit 100 high-risk kinderen in de leeftijd van 2 tot 4 jaar. De groep was bij elkaar verkregen met de hulp van de Stichting Stottertherapie Doetinchemse Methode, de patiëntenvereniging Demosthenes, CB-artsen Regio Utrecht en vrijgevestigde stottertherapeuten uit het hele land die ons de adressen van mogelijke kandidaten leverden. De ouders werden daarna door ons telefonisch benaderd en na gebleken geschiktheid van het kind werd medewerking aan het onderzoek gevraagd. Voorwaarde voor deelname was dat de biologische vader of moeder een gediagnosticeerde stotteraar was (geweest) en dat het kind zelf ten tijde van het eerste telefonische contact niet van stotterend spreken werd verdacht.

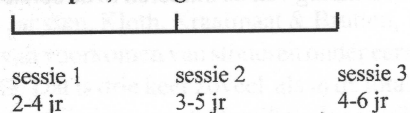
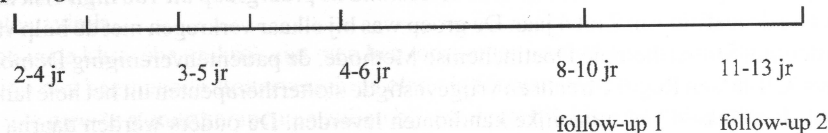
Tijdens de eerste jaren van het onderzoek vielen zeven kinderen uit, voornamelijk omdat het voor de ouder(s) door ziekte in het gezin of anderszins onmogelijk was om voor het onderzoek naar Utrecht te komen. Nog eens acht kinderen vielen af in de follow-up. Door verhuizing konden we deze ouders niet meer bereiken. De uiteindelijke proefgroep omvatte dus in totaal 85 kinderen; 41 jongens en 44 meisjes.

Onderzoeksopzet

De onderzoeksopzet is schematisch weergegeven in Figuur 1. Er waren drie observatie- en metingsmomenten: sessie 1 toen de kinderen 2-4 jaar oud waren, sessie 2 een jaar later en sessie 3 twee jaar later. Tijdens elke sessie werden bij het kind spraak/taaltests afgenomen en werd een video-opname gemaakt van moeder en kind in interactie met elkaar tijdens een spelsituatie. Ook vond er een interview plaats met de moeder over de ontwikkeling van het kind in het afgelopen jaar en over eventueel belangrijke gebeurtenissen in het leven van het kind in die periode.

Daarnaast rapporteerden de ouders over het spreken van het kind bij hun thuis, door regelmatig de ouderlijst 'Informatie over het spreken van uw kind' in te vullen. Deze rapportage door de ouders werd tijdens de observatiefase elk half jaar verzameld. Dezelfde vragenlijst werd gebruikt voor de eerste follow-up eind 1995, toen de kinderen 8-10 jaar oud waren, en drie jaar later begin 1999 voor de tweede follow-up. Tijdens de tweede follow-up werd bovendien om aanvullende informatie gevraagd tijdens een telefonisch contact met een van de ouders. Dit werd gedaan wanneer de ingevulde vragenlijst daar aanleiding toe gaf en in ieder geval bij alle kinderen bij wie in de voorafgaande periode stotteren was gerapporteerd.

Dit artikel bevat dus een overzicht van de stand van zaken tot en met het moment dat alle kinderen de middelbare schoolleeftijd hebben bereikt. De zogenaamde kritische leeftijd van 10 jaar, het moment in de ontwikkeling van het kind dat zich praktisch geen nieuwe stottergevallen meer voordoen (Bloodstein, 1995), is op deze tweede follow-up door alle kinderen ruimschoots gepasseerd.

Spraaksamples, metingen en observaties:**Rapportage ouders:**

Figuur 1. Onderzoeksopzet.

Dataverzameling***De ouderlijst***

De ouderlijst 'Informatie over het spreken van uw kind' bevat, behalve een aantal open vragen over het optreden van stotterperiodes, zeven 5-puntsschaalvragen over het voorkomen van verschillende typen niet-vloeiendheid. Vier daarvan zijn stotterachtige niet-vloeiendheden: snelle klankherhaling, snelle eenlettergrepige woordherhaling, blokkade en prolongatie, en drie normale niet-vloeiendheden: zinsdeelherhaling, langzame lettergreepherhaling en langzame woordherhaling (zie Appendix 1). Voor elk kind werd op elk afnametijdstip een gemiddelde score op de vier stotterachtige niet-vloeiendheden en een gemiddelde score op de drie normale niet-vloeiendheden berekend.

Spraaksamples

Spraaksamples van de kinderen werden verkregen door video/audio-opnames te maken van het kind in conversatie met de eigen moeder. Van elk kind werden tijdens alle drie sessies 30 minuten van een spelsituatie vastgelegd. Moeder en kind kregen daartoe de beschikking over speelgoed (spelletjes, puzzels, bouwpakketten etc) en de moeder werd verzocht met het kind te praten en te spelen zoals ze thuis gewend is te doen.

Van elke sessie van elk kind werden de eerste 10 minuten getranscribeerd. Gemiddeld over de totale groep van 85 kinderen bevatten de spraaksamples van sessie 1 360 woorden (range 37 - 684), van sessie 2 352 woorden (range 55 - 649) en van sessie 3 364 woorden (range 55 - 745). De samples werden daarna gescoord op niet-vloeiend spreekgedrag. In navolging van o.a. Peters en Guitart (1991) hanteerden we drie categorieën niet-vloeiendheid: stotter niet-vloeiendheden, 'border' niet-vloeiendheden en normale niet-vloeiendheden. Onder stotterachtige niet-vloeiendheden vallen de snelle (meervoudige) klankherhalingen, de snelle (meervoudige) eenlettergrepige woordherhalingen, de verlengingen van klanken en de blokkades. De border niet-vloeiendheden worden gevormd door de langzame (enkelvoudige) klank-, lettergreep- en een-

lettergreepige woordherhalingen. Normale niet-vloeiendheden zijn gedefinieerd als twee- of meerlettergreepige woordherhalingen, zinsdeelherhalingen, spanningsvrije pauzes, interjecties, revisies en onvolledige zinnen. Als maat voor de frequentie van optreden werd daarna per categorie voor elk kind het aantal niet-vloeiendheden per 100 woorden berekend.

Resultaten

Incidentie, prevalentie en spontaan herstel

Hoeveel van de 85 high risk kinderen gingen er nu stotteren? De resultaten staan vermeld in tabel 1. Er zijn vijf groepen te onderscheiden. Een groep van acht kinderen (9.4%) die tijdens de observatiefase begonnen te stotteren en dat omstreeks hun 12e jaar nog doen. Dan een groep van twintig kinderen (23.5%) die langer dan een half jaar hebben gestotterd, maar daarvan ten tijde van de follow-up volledig zijn hersteld. De derde groep bestaat uit elf kinderen (12.9%) met een korte stotterperiode van in ieder geval niet langer dan een half jaar. Groep vier bestaat uit twaalf kinderen (14.1%) met andersoortige spraak/taalproblemen die tijdens de observatieperiode naar voren kwamen en op de follow-up voor de meeste kinderen nog in lichte mate aanwezig waren. Van hen zijn er vier met articulatie-defecten, variërend van licht tot matig. Drie kinderen met broddelverschijnselen. Drie kinderen met een tamelijk ernstige vorm van

Tabel 1. Vloeiendheidsontwikkeling in 85 high-risk kinderen

	N	%	Man/Vrouw-ratio	Leeftijd tijdens follow-up 2	Ouderbeoordeling ¹ follow-up 2
Kinderen met chronisch stotteren	8	9.4	3.0:1.0	12;8	1.95**
Herstelde kinderen (stotterperiode > 6 mnd)	20	23.5	1.0:1.0	12;5	1.00
Herstelde kinderen (stotterperiode < 6 mnd)	11	12.9	1.0:2.7	12;10	1.00
Kinderen met andere spraak/taal-afwijkingen	12	14.1	1.0:1.4	12;6	1.12
Kinderen met normale spraak/taal-ontwikkeling	34	40.0	1.0:1.2	12;8	1.00

¹ Gemiddelde score stotterachtige niet-vloeiendheden Ouderlijst.

** p < .001

spraak/taalvertraging. En twee kinderen die woordvindingsmoeilijkheden hadden en extreem onvloeiend waren. In de vijfde groep tenslotte zitten de 34 kinderen (40%) die een normale vloeiende spraak/taalontwikkeling doorliepen.

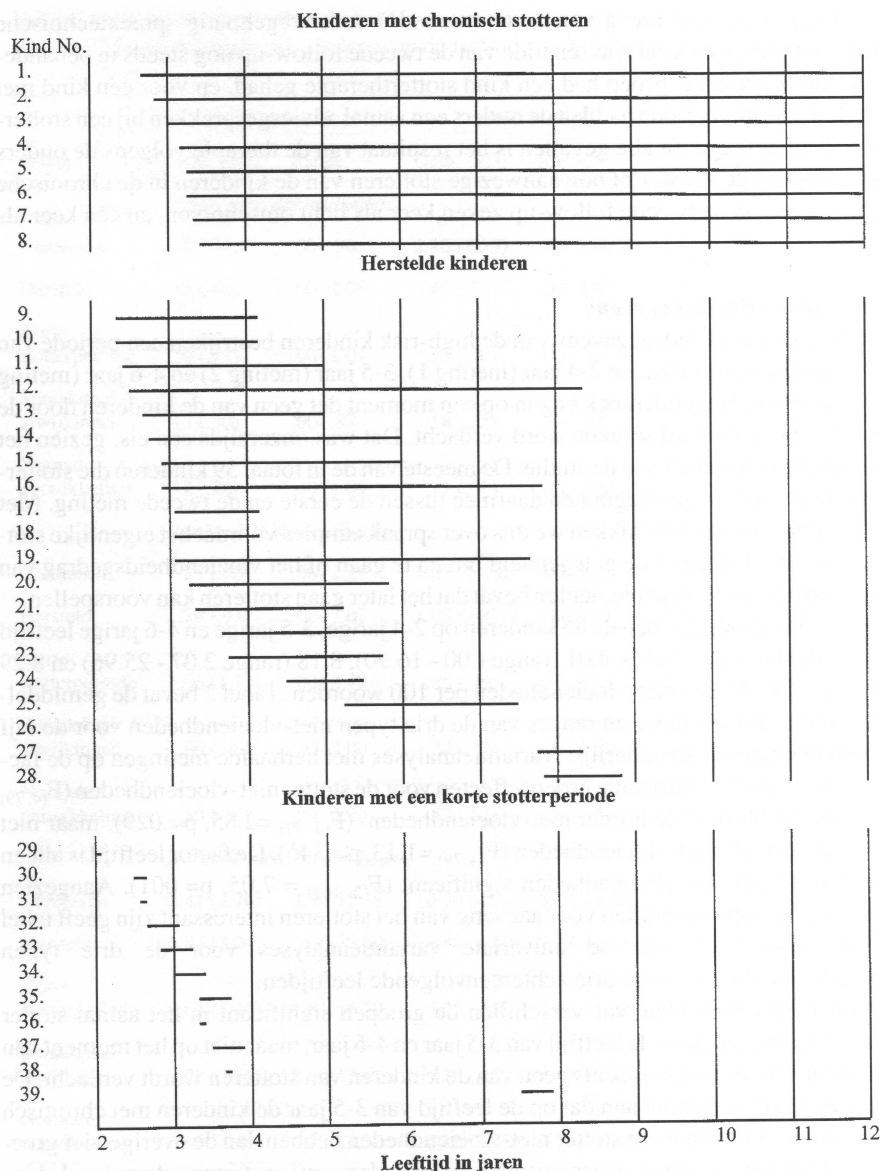
De tabel laat verder zien dat de groepen niet verschillen in leeftijd. Ze zijn gemiddeld tijdens de tweede follow-up even oud, omstreeks twaalfeneenhalf jaar. De verhouding jongens/meisjes valt bij de chronisch stotterende kinderen in het nadeel van de jongens uit. Zes jongens en twee meisjes behoren tot deze groep. Omgekeerd zitten er meer meisjes, acht om drie, bij de kinderen die een korte stotterperiode hadden, terwijl bij de kinderen met een langere stotterperiode de verhouding gelijk ligt. De laatste kolom geeft de gemiddelde score op de stotterachtige niet-vloeiendheden op de Ouderlijst. Een gemiddelde score van 1.00 betekent 'in de afgelopen twee maanden niet voorkomend', een score van 2.00 'in de afgelopen twee maanden bijna nooit voorkomend'. De hogere score van de kinderen met chronisch stotteren wijkt significant af van dat van de overige groepen ($F_{(4, 79)}=31.95$, $p<.001$).

Incidentie en prevalentie blijken binnen deze high-risk groep dus beduidend hoger te liggen dan in een random populatie. De incidentie is 46%, ongeveer negen keer zoveel als de incidentieschattingen van 5% in random populaties (Bloodstein, 1995). Hetzelfde geldt voor de prevalentie, die bijna 10% is. In random populaties wordt voor kinderen tot en met 10 jaar om en nabij de 1% gevonden (Bloodstein, 1995). Uit deze cijfers volgt dat het percentage spontaan herstel bij deze high-risk kinderen opmerkelijk hoog is, namelijk 74%, een percentage dat vergelijkbaar is met de herstelpercentages van 50% tot 80% in random populaties (Bloodstein, 1995).

Leeftijd bij aanvang, wijze van aanvang en duur

De leeftijd waarop het stotteren zich voor het eerst voordeed ligt voor de drie groepen gelijk, omstreeks het derde jaar. Voor vier kinderen begon het stotteren eerst rond hun 7e of 8e levensjaar. Deze kinderen met een late aanvang niet meegerekend, is de gemiddelde leeftijd van aanvang voor de kinderen met chronisch stotteren en de herstelde groep 37 maanden, voor de kinderen met een korte stotterperiode 35 maanden. Figuur 2 geeft voor elk afzonderlijk kind in de drie stottergroepen de aanvang en duur van het stotteren weer. In deze figuur is de duur aangegeven als een aaneengesloten periode. Dit geldt alleen voor de kinderen met een korte stotterperiode. Bij de kinderen uit de andere twee stottergroepen was het stotteren episodisch of golfde op en neer wat betreft de frequentie van de verschijnselen.

Bij de kinderen met persisterende verschijnselen begon het stotteren in alle gevallen geleidelijk, terwijl in de twee herstelde groepen het stotteren bij een aantal kinderen vrij plotseling optrad. Bij de herstelde kinderen was dat in 20% van de gevallen, bij de kinderen met een korte stotterperiode bij meer dan de helft (55%). Definitie van plotseling optreden is dat het stotterend spreken zich, volgens de rapportage van de ouders, van de ene op de andere dag voordeed. In alle gevallen noemden de ouders een in hun ogen voor het kind emotionerende aanleiding: de geboorte van een zusje of broertje, een verbouwing, verhuizing, een logeerpertij of een opname in het ziekenhuis van het kind zelf of in het gezin. Het lijkt niet onwaarschijnlijk dat het plotseling optreden van stotteren een speciale met stress geassocieerde vorm van stotteren is.



Figuur 2. Aanvang en duur van het stotteren bij de chronische stotterende kinderen, de herstelde kinderen en kinderen met een korte stotterperiode.

Therapie

Zeven van de acht kinderen met persisterende stotterverschijnselen hebben stottertherapie gehad, variërend van twee tot 30 maanden. Voor één kind was dit enkel ouderbe-

geleiding. Eén kind kreeg van de (stotterende) ouder regelmatig spreektechnische aanwijzingen. Eén kind was ten tijde van de tweede follow-up nog steeds in behandeling. In de herstelde groep had één kind stottertherapie gehad, en voor één kind met een korte stotterperiode hadden de ouders een aantal adviesgesprekken bij een stottertherapeut gevolgd. In alle gevallen is het resultaat van de therapie volgens de ouders bevredigend geweest. Het nog aanwezige stotteren van de kinderen in de chronische groep werd op de tweede follow-up zeven keer als licht omschreven, en één keer als matig.

Niet-vloeiendheidsgegevens

De niet-vloeiendheidsgegevens van de high-risk kinderen bestrijken een periode van twee jaar, toen de kinderen 2-4 jaar (meting 1), 3-5 jaar (meting 2) en 4-6 jaar (meting 3) oud waren. Het onderzoek begon op een moment dat geen van de kinderen door de ouders van stotterend spreken werd verdacht. Dat was onzerzijds een eis, gezien het prospectieve karakter van de studie. De meeste van de in totaal 39 kinderen die stotterverschijnselen kregen begonnen daarmee tussen de eerste en de tweede meting. Met onze eerste meting beschikken we dus over spraaksamples vóórdat het eigenlijke stotteren begon. Dat geeft de gelegenheid om na te gaan of het vloeiendheidsgedrag van het kind op dat moment elementen bevat dat het later gaan stotteren kan voorspellen.

In totaal produceerden de 85 kinderen op 2-4 jarige, 3-5 jarige en 4-6 jarige leeftijd gemiddeld respectievelijk 8.01 (range (.00 - 16.90), 8.18 (range 2.07 - 25.96) en 8.29 (range 1.01 - 17.54) niet-vloeiendheden per 100 woorden. Tabel 2 bevat de gemiddelden, standaard-deviaties en ranges van de drie typen niet-vloeiendheden voor de vijf groepen kinderen afzonderlijk. Variantieanalyses met herhaalde metingen op de factor leeftijd geeft significante groepeffecten voor de stotter niet-vloeiendheden ($F_{(4, 79)} = 11.08, p = .000$) en de border niet-vloeiendheden ($F_{(4, 79)} = 2.85, p = .029$), maar niet voor de normale niet-vloeiendheden ($F_{(4, 79)} = 1.13, p = .346$). De factor leeftijd is alleen voor de stotter niet-vloeiendheden significant ($F_{(2, 162)} = 7.05, p = .001$). Aangezien vooral de groepsverschillen vóór aanvang van het stotteren interessant zijn geeft tabel 3 de uitkomsten van de univariate variantieanalyses voor de drie typen niet-vloeiendheden op de drie achtereenvolgende leeftijden.

Zoals te verwachten was verschillen de groepen significant in het aantal stotter niet-vloeiendheden op de leeftijd van 3-5 jaar en 4-6 jaar, maar niet op het moment van aanvang van het onderzoek als geen van de kinderen van stotteren wordt verdacht. De Tuckey-HSD test toont aan dat op de leeftijd van 3-5 jaar de kinderen met chronisch stotteren significant meer stotter niet-vloeiendheden hebben dan de overige vier groepen. Op de leeftijd van 4-6 jaar vertonen deze kinderen meer stottergedrag dan de kinderen uit groep drie, vier en vijf, terwijl ook de herstelde kinderen in aantal stotterers significant afwijken van groep vijf, de kinderen met een normale spraakontwikkeling. Bij de border niet-vloeiendheden vinden we alleen op 3-5 jarige leeftijd een significant verschil tussen de groepen. Hier zijn het de chronisch stotterende en de herstelde kinderen die significant meer border symptomen vertonen dan kinderen met andere spraak/taalafwijkingen en kinderen met een normale ontwikkeling. Op dezelfde leeftijd is er ook een significant verschil tussen de groepen bij de normale niet-vloeiend-

Tabel 2. Stotter niet-vloeiendheden, border niet-vloeiendheden en normale niet-vloeiendheden voor de vijf groepen high-risk kinderen op de leeftijd van 2-4 jaar, 3-5 jaar en 4-6 jaar.

Groep	Leeftijd 2 - 4 jaar		Leeftijd 3 - 5 jaar		Leeftijd 4 - 6 jaar	
	Gem. (SD)	Range	Gem. (SD)	Range	Gem. (SD)	Range
<i>Stotter niet-vloeiendheden</i>						
Chronisch	.16 (.34)	.00- .96	2.10 (2.59)	.00- 6.60	1.24 (1.29)	.00- 3.60
Hersteld	.15 (.46)	.00- 2.06	.45 (.74)	.00- 2.87	.71 (1.14)	.00- 3.98
Korte stotterperiode	.30 (.37)	.00- 1.07	.13 (.20)	.00- .60	.05 (.11)	.00- .27
Spraak/taal-afwijkingen	.13 (.30)	.00- .87	.18 (.25)	.00- .67	.16 (.41)	.00- 1.32
Normale ontwikkeling	.12 (.28)	.00- 1.09	.11 (.23)	.00- 1.00	.14 (.21)	.00- .74
<i>Border niet-vloeiendheden</i>						
Chronisch	1.28 (.90)	.00- 2.29	1.35 (1.09)	.00- 3.30	.83 (.79)	.00- 2.00
Hersteld	.79 (.91)	.00- 3.02	1.05 (.68)	.00- 2.01	.69 (.58)	.00- 2.51
Korte stotterperiode	1.06 (1.14)	.00- 3.49	.65 (.46)	.00- 1.51	.72 (.81)	.00- 2.64
Spraak/taal-afwijkingen	.60 (.86)	.00- 3.00	.33 (.43)	.00- 1.30	.98 (.92)	.00- 2.86
Normale ontwikkeling	.50 (.58)	.00- 2.20	.52 (.52)	.00- 1.90	.71 (.66)	.00- 2.93
<i>Normale niet-vloeiendheden</i>						
Chronisch	8.41 (2.70)	3.94-12.58	10.26 (4.04)	5.91-18.06	5.63 (2.96)	1.01-11.71
Hersteld	6.82 (3.24)	.00-12.50	6.80 (2.89)	2.38-12.61	7.58 (3.56)	.88-13.14
Korte stotterperiode	9.63 (4.40)	1.81-15.72	5.98 (3.03)	2.07-11.65	7.22 (4.31)	3.49-17.05
Spraak/taal-afwijkingen	7.28 (3.36)	2.40-12.62	9.16 (4.12)	4.62-20.73	6.71 (1.90)	3.30- 9.89
Normale ontwikkeling	6.13 (3.49)	.89-14.33	6.10 (2.49)	2.23-11.61	7.41 (2.80)	3.20-14.77

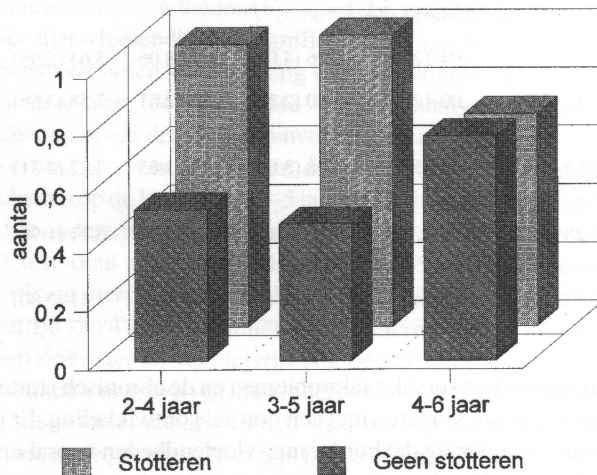
heden. Kinderen met andere spraak/taalproblemen en de chronisch stotterende kinderen hebben er meer van dan kinderen met een normale ontwikkeling. Er is dus in deze gegevens een tendens aanwezig dat border niet-vloeiendheden vooral optreden voorafgaand aan of ten tijde van het ontstaan van het stotteren, en normale niet-vloeiendheden eerder een later begeleidend verschijnsel vormen. Deze tendens komt nog duidelijker naar voren wanneer we de drie stottergroepen samennemen en

Tabel 3. Uitkomsten univariate variantieanalyses (verschil tussen de groepen) per leeftijd voor stotter niet-vloeiendheden, border niet-vloeiendheden en normale niet-vloeiendheden.

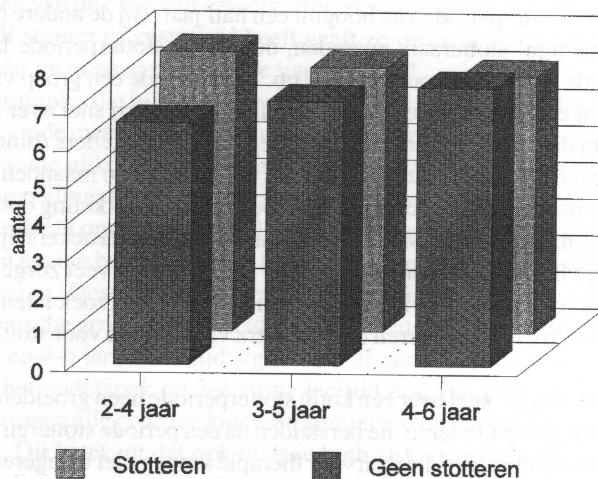
	Leeftijd 2-4 jaar			Leeftijd 3-5 jaar			Leeftijd 4-6 jaar		
	F	df	p	F	df	p	F	df	p
Stotter niet-vloeiendheden	0.59	4,80	.67	9.10	4,80	.00	5.89	4,80	.00
Border niet-vloeiendheden	2.13	4,80	.08	5.64	4,80	.00	0.37	4,80	.83
Normale niet-vloeiendheden	2.43	4,80	.06	4.77	4,80	.00	0.67	4,80	.61

afzetten tegen de twee niet-stotterende groepen. Een vergelijking dus van 39 kinderen, die op de eerste meting nog niet van stotteren werden verdacht, maar dat in de loop van het onderzoek gingen doen, met 46 kinderen die in dat opzicht vloeiend waren en vloeiend bleven. Figuur 3 geeft het resultaat voor de border niet-vloeiendheden en figuur 4 voor de normale niet-vloeiendheden.

Kinderen die later gaan stotteren vertonen op 2-4 jarige leeftijd ($F_{(1, 83)}=6.21$, $p=.01$) en op 3-5 jarige leeftijd ($F_{(1, 83)}=14.75$, $p=.00$) significant meer border niet-vloeiendheden dan kinderen met een normale vloeiendheidsontwikkeling, maar niet meer op 4-6 jarige leeftijd ($F_{(1, 83)}=0.08$, $p=.77$). Het aantal normale niet-vloeiendheden daarentegen is voor de stotterende en de niet-stotterende kinderen op alle drie de leeftijden min of meer gelijk. Gemiddeld ligt het aantal normale niet-vloeiendheden



Figuur 3. Border niet-vloeiendheden (per 100 woorden) voor stotterende en niet-stotterende kinderen op 2-4, 3-5 en 4-6 jarige leeftijd.



Figuur 4. Normale niet-vloeiendheden (per 100 woorden) voor stotterende en niet-stotterende kinderen op 2-4, 3-5 en 4-6 jarige leeftijd.

bij de stotterende kinderen bij aanvang van het onderzoek, op 2-4 jarige leeftijd, iets hoger maar het verschil is niet significant ($F_{(1, 83)}=3.80, p=.06$).

Discussie

De belangrijkste uitkomst van dit longitudinale onderzoek onder 85 kinderen met een verhoogd risico voor stotteren is dat bijna de helft inderdaad stotterverschijnselen gaat vertonen. Het bevestigt de aanwezigheid van een genetische factor bij het ontstaan van stotterend spreken. Het aantal kinderen met stotterverschijnselen in dit onderzoek overtreft bovendien de risico-percentages die op basis van de uitkomsten van familie-studies zijn berekend. Waarschijnlijk worden in familiestudies gevallen van stotteren die slechts enkele weken duren niet voldoende onderkend. Opmerkelijk is verder dat een betrekkelijk groot aantal kinderen een verwant spraak/taalprobleem ontwikkelt (14%). Dit lijkt zeer wel verenigbaar met een genetisch model waarin het gen of de genen een variabele expressie heeft/hebben. De manifestatie van de symptomen kan in dat geval sterk variëren. Niet alleen in stotterend spreken, maar ook in een wat achterblijvende articulatieontwikkeling of in een te verwaarlozen vloeiendheidsprobleem.

Van de in totaal 39 kinderen met stotterverschijnselen is 20% te beschouwen als chronisch, de rest herstelt. Dat daarbij twee vormen van herstel zijn te onderscheiden, één na een korte stotterperiode en één na een wat langere periode, is in de literatuur geen onbekend verschijnsel. Ook Andrews en Harris (1964) en Yairi en medewerkers (1993, 1996) vonden in hun materiaal dat de herstelde kinderen op twee manieren zijn in te delen. Andrews en Harris noemden kinderen met een voorbijgaande stotterperiode ergens in hun tweede tot vijfde levensjaar 'developmental' stotteraars. Het ging

hier om een korte stotterperiode van hooguit een half jaar. Bij de andere herstelde kinderen, die ze "benign" stotteraars noemden, duurde de stotterperiode langer of trad eerst na het vierde levensjaar voor het eerst op. Yairi volgde een groep van reeds stotterende kinderen en constateerde dat een aantal kinderen vrij snel over hun stotteren heen kwam. Om die reden vormde hij een groep 'early' herstellende (binnen 18 maanden na aanvang) en een groep 'late' herstellende (tussen 18 en 36 maanden na aanvang). Andrews en Harris leggen het accent op een vroeg in de ontwikkeling optreden van het stotterend spreken, Yairi op een snel herstel. Maar beide onderzoekers lijken een aparte vorm van ontwikkelingsstotteren, waar men zich niet al te veel zorgen om hoeft te maken, te willen onderscheiden. De uitkomsten van ons onderzoek laten zien dat deze variant ook aanwezig is bij kinderen die een extra vatbaarheid voor stotteren met zich meebrengen.

Naast de kinderen die snel over een korte stotterperiode heen groeiden was er in ons materiaal nog een groep kinderen die herstelden na een periode stotteren van meer dan 6 maanden. De twee kinderen die daarvoor therapie kregen niet meegerekend geeft dit een totaal herstelpercentage van 74%. Dit hoge percentage spontaan herstel onder high-risk kinderen is op z'n minst opmerkelijk te noemen. Bij bijna alle kinderen (93%) gebeurt dit binnen maximaal drie jaar nadat de eerste stotterverschijnselen zich voordeden, en in meerderheid vóór het zesde levensjaar. Waarom zoveel kinderen herstellen, weten we niet. Het kan zijn dat kinderen die spontaan over hun stotteren heen groeien daar een genetische predispositie voor hebben. Hersteld en blijvend stotteren zouden in dat geval genetisch twee verschillende vormen van stotteren kunnen zijn. Ambrose e.a. (1997) vonden na een inventarisatie van chronische en herstelde gevallen in de families van 66 stotterende kinderen meer chronische dan herstelde gevallen in de families van de chronische stotteraartjes, en omgekeerd meer herstelde dan chronische gevallen in die van de herstelde kinderen. Chronisch en hersteld stotteren lijken dus familiair bepaald te zijn. Ambrose e.a. concluderen dat erfelijkheid bij het voortduren of herstellen van stotteren een rol speelt, maar achten het onwaarschijnlijk dat het hier om twee genetisch onafhankelijke storingen gaat. Voor onze in genetisch opzicht toch vrij homogene groep van high-risk kinderen ligt een puur genetische verklaring voor het frequent optreden van spontaan herstel niet voor de hand. In de eerste plaats behoren in deze groep bijna alle stotterende vaders of moeders zelf nog tot de chronische stotteraars, en ten tweede blijkt er bij nadere analyse van de families geen verschil tussen de blijvend stotterende en herstelde kinderen in het aantal herstelde en nog steeds stotterende gevallen in de rest van de familie. Er moeten rijpings-, ontwikkelings- of omgevingsfactoren aanwezig zijn geweest die faciliterend hebben gewerkt. Een analyse van de stand van zaken tijdens de eerste follow up, toen zeven kinderen uit onze onderzoeksgroep als chronisch en 16 als hersteld werden geclassificeerd, geeft in dit opzicht een aantal aanwijzingen. Zo waren in het algemeen de herstelde kinderen minder snelle en variabele sprekers dan de chronisch stotterende kinderen. Bovendien hanteerden de moeders van de herstelde kinderen in de communicatie met hun kinderen een minder complex taalgebruik en oefenden ze verbaal minder pressie uit dan de moeders van de chronisch stotterende kinderen (Kloth, Kraaimaat, Janssen en Brutten, 1999). Misschien speelt bij deze ouders het feit dat in

ieder geval één van de twee zelf een ervaringsdeskundige is, ook een rol. Dat een van de ouders zelf stottert of gestotterd heeft geeft ze wellicht een voorsprong in kennis hoe om te gaan met een stotterperiode van hun kind.

De spraaksamples die in de eerste twee jaar van het onderzoek, dat wil zeggen in de periode dat voor de meeste kinderen het stotteren begon, werden verzameld tonen een aantal interessante uitkomsten. In de eerste plaats echter wijzen we er op dat het hier om eenmalige peilingen gaat, weliswaar op basis van spraaksamples van voldoende omvang (gemiddeld omstreeks de 360 woorden per sessie), maar toch onderhevig aan vertekeningen gezien het nu eenmaal fluctuerend karakter van het stotteren in de eerste aanvangsjaren. Desalniettemin bevestigen de cijfers het gaan stotteren van met name de chronische groep. Gemiddeld wijkt het aantal stotterers in de chronische groep op 3-5 jarige en 4-6 jarige leeftijd significant af van alle andere groepen, terwijl bij aanvang van het onderzoek op 2-4 jarige leeftijd nog van geen verschil sprake was. Overigens vertonen alle groepen kinderen gemiddeld op alle drie de leeftijden wel wat stottergedrag. Dit betekent dat ook in deze high-risk groep één of twee snelle meer-voudige herhalingen per 10 minuten nog geen indicatie is dat we met een beginnend stotteraartje van doen hebben. Slechts 27% van de 85 kinderen waren op alle drie de metingen vrij van stotterachtige niet-vloeiendheden. Voor de diagnose beginnend stotteraartje is en blijft de informatie van de ouders onontbeerlijk, en - althans bij ouders die weten wat stotteren is zoals in onze high-risk groep - in dit vroege stadium het meest betrouwbaar. Voor klinisch en research gebruik zal bij ouders waar dat niet het geval is (omdat er bijvoorbeeld geen stotteren in de familie voorkomt) de informatie moeten worden aangevuld met peilingen op meerdere verschillende dagen uitgevoerd, zo niet in de kliniek dan zeker via opnames bij het kind thuis.

Mede wellicht door het feit dat onze gegevens berusten op eenmalig metingen blijkt het gemiddelde stottergedrag in het algemeen het criterium van minimaal drie stotter niet-vloeiendheden per 100 woorden, hetgeen in de praktijk en in de literatuur meestal wordt gehanteerd om een kind als beginnend stotteraartje aan te merken (Yairi, 1997), niet te halen. Ook al nemen we de stotter en de border niet-vloeiendheden bij elkaar, waarmee een categorie verkregen wordt die vergelijkbaar is met de SLD-maat (stuttering-like disfluencies) die Yairi en medewerkers in hun analyses hanteren, dan blijft de frequentie in ons onderzoek laag (gemiddeld 2-3 SLD's voor de chronische groep tegen gemiddeld 6-11 SLD's in Yairi's onderzoek voor stotterende pre-school kinderen (zie Ambrose & Yairi, 1999)). Daar staat tegenover dat het aantal normale niet-vloeiendheden in ons onderzoek gemiddeld hoger ligt dan bij Ambrose en Yairi (6-10 normale niet-vloeiendheden tegen 5-6), maar dat komt waarschijnlijk omdat in hun definitie van normale niet-vloeiendheden (door Ambrose en Yairi overigens 'other disfluencies' genoemd) de spanningsvrije pauzes ontbreken. Waarschijnlijk heeft de geringe stotterfrequentie in ons onderzoek toch ook te maken met het feit dat we onze spraaksamples verzamelden in een voor het kind vrij ontspannen situatie, namelijk een spelsituatie met de moeder.

Ten slotte de vraag of bepaalde typen niet-vloeiendheden een voorspellende waarde hebben voor het ontstaan van stotteren. In veel theorieën over het ontstaan van stotterend spreken neemt de veronderstelling dat het stotteren zich uit de normale

niet-vloeiendheden ontwikkelt, een belangrijke plaats in (Bloodstein, 1995). Ook in de klinische praktijk wordt een overdadige hoeveelheid normale niet-vloeiendheid in de spraakontwikkeling van het kind veelal een risicofactor genoemd. Onze resultaten geven echter geen steun aan een dergelijke veronderstelling. Gemiddeld hebben de kinderen die gaan stotteren iets meer normale niet-vloeiendheden, maar er is zeker geen sprake van een overdaad. Meer aanleiding is er om bij het kind het optreden van border niet-vloeiendheden in het oog te houden. Hoewel de gemiddelde aantallen gering zijn, wijken de kinderen die gaan stotteren, zowel de chronisch stotterende kinderen als de herstelde kinderen, vóór en omstreeks de tijd dat ze gaan stotteren systematisch af van de kinderen met een in dat opzicht normale ontwikkeling. Karakteristiek voor border niet-vloeiendheden is dat de herhalingen, net als bij de stotter niet-vloeiendheden, binnen het woord plaatsvinden, maar overwegend moeiteloos verlopen, met andere woorden (nog) zonder spanning zijn. Mogelijk dat aan de border niet-vloeiendheden dezelfde ontregelingen in het motorische systeem ten grondslag liggen als bij de stotter niet-vloeiendheden. De druk die het kind zelf aan de haperingen toevoegt, zou dan een omslagpunt kunnen zijn waardoor het moeiteloze herhalen stotteren wordt.

Literatuur

- Ambrose, N.G. & Yairi, E. (1999). Normative disfluency data for early childhood stuttering. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research* 42, 895-909.
- Ambrose, N.G., Cox, N. & Yairi, E. (1997). The genetic basis of persistence and recovery in stuttering. *Journal of Speech and Hearing Research* 40, 567-580.
- Ambrose, N.G., Yairi, E. & Cox, N. (1993). Genetic aspects of early childhood stuttering. *Journal of Speech and Hearing Research* 36, 701-706.
- Andrews, G. & Harris, M. (1964). *The syndrome of stuttering*. London: Heinemann.
- Bloodstein, O. (1960a). The development of stuttering: I. Changes in nine basic features. *Journal of Speech and Hearing Disorders* 25, 219-237.
- Bloodstein, O. (1960b). The development of stuttering: II. Developmental phases. *Journal of Speech and Hearing Disorders* 25, 366-376.
- Bloodstein, O. (1961). The development of stuttering: III. Theoretical and clinical implications. *Journal of Speech and Hearing Disorders* 26, 67-82.
- Bloodstein, O. (1995). *A handbook on stuttering* (4th edition). Chicago; National Easter Seal Society.
- Janssen, P., Kloth, S., Kraaimaat, F. & Brutten, G.J. (1996). Genetic factors in stuttering: A replication of Ambrose, Yairi, and Cox's (1993) study with adult probands. *Journal of Fluency Disorders* 21, 105-108.
- Johnson, W. & Associates (1959). *The onset of stuttering*. Minneapolis: University of Minnesota Press.
- Kay, D.W. (1964). The genetics of stuttering. In: G. Andrews & M. Harris (Eds.). *The syndrome of stuttering* (pp. 132-143). London: Heinemann.
- Kidd, K. (1984). Stuttering as a genetic disorder. In: R. Curlee & W. Perkins (Eds.). *Nature and treatment of stuttering*. San Diego, CA: College Hill.
- Kloth, S., Janssen, P., Kraaimaat, F. & Brutten, G.J. (1995a). Speech motor and linguistic skills

- of young stutterers prior to onset. *Journal of Fluency Disorders* 20, 157-170.
- Kloth, S., Janssen, P., Kraaiaat, F. & Brutten, G.J. (1995b). Communicative behavior of mothers of stuttering and nonstuttering high-risk children prior to the onset of stuttering. *Journal of Fluency Disorders* 20, 365-377.
- Kloth, S., Janssen, P., Kraaiaat, F. & Brutten, G.J. (1998). Child and mother variables in the development of stuttering among high-risk children: A longitudinal study. *Journal of Fluency Disorders* 23, 217-230.
- Kloth, S.A.M., Kraaiaat, F.W., Janssen, P. & Brutten, G.J. (1999). Persistence and remission of incipient stuttering among high-risk children. *Journal of Fluency Disorders* 24, 253-265.
- Peters, T.J. & Guitar, B. (1991). *Stuttering: An integrated approach to its nature and treatment*. Baltimore, MD: Williams and Wilkins.
- Van Riper, C. (1971). *The nature of stuttering*. Englewood Cliffs, NJ: Prentice-Hall.
- Yairi, E. (1982). Longitudinal studies of disfluencies in two-year-old children. *Journal of Speech and Hearing Research* 25, 155-160.
- Yairi, E. (1983). The onset of stuttering in two- and three-year-old children: A preliminary report. *Journal of Speech and Hearing Disorders* 48, 171-177.
- Yairi, E. (1997). Disfluency characteristics of childhood stuttering. In: R.F. Curlee & G.M. Siegel (Eds.). *Nature and treatment of stuttering. New Directions*. Needham Height, MA: Allyn & Bacon.
- Yairi, E. & Ambrose, N. (1992a). A longitudinal study of stuttering in children; A preliminary report. *Journal of Speech and Hearing Research* 35, 755-760.
- Yairi, E. & Ambrose, N. (1992b). Onset of stuttering in preschool children: Selected factors. *Journal of Speech and Hearing Research* 35, 782-788.
- Yairi, E., Ambrose, N.G. & Niermann, R. (1993). The early months of stuttering: A developmental study. *Journal of Speech and Hearing Research* 36, 521-528.
- Yairi, E., Ambrose, N.G., Paden, E.P. & Throneburg, R.N. (1996). Predictive factors of persistence and recovery: Pathways of childhood stuttering. *Journal of Communicative Disorders* 29, 51-77.