



**Karolinska
Institutet**

**Institutionen för klinisk vetenskap,
intervention och teknik, CLINTEC
Enheten för logopedi
Logopedprogrammet
Examensarbete i logopedi**

**Påverkan av maxillär framflyttning med Le Fort I
osteotomi på artikulation hos personer födda med
läpp- käk- gomspalt**

Stina Flodin
Emilie Hagberg

Examensarbete i logopedi,
30 högskolepoäng
Vårterminen 2014

Handledare
Anette Lohmander
Svante Granqvist

Påverkan av maxillär framflyttning med Le Fort I osteotomi på artikulation hos personer födda med läpp- käk- gomspalt.

Stina Flodin
Emilie Hagberg

Sammanfattning. Individer födda med läpp- käk- gomspalt riskerar att få en underutvecklad överkäke, maxillär hypoplasi, vilket kan ge artikulatoriska svårigheter. Syftet med denna retrospektiva jämförande studie var att undersöka hur maxillär framflyttning med Le Fort I osteotomi påverkade artikulationen hos personer födda med läpp- käk- gomspalt. Deltagarna bestod av 15 unga vuxna födda med läpp- käk- gomspalt som hade genomgått Le Fort I på grund av maxillär hypoplasi. Materialet bestod av ljudinspelningar av ord från SVenskt Artikulations- och NasalitetsTEst, inspelade preoperativt och ett år postoperativt. Transkription av målljud av tränade lyssnare, akustisk analys av /s/ och tydlighetsbedömning av otränade lyssnare genomfördes. Nio av 15 deltagare förbättrade sin artikulation och sju deltagare uppvisade normaliserad artikulation ett år postoperativt. Tränade lyssnares bedömningar och akustisk analys påvisade den positiva förändringen framförallt i produktionen av /s/. Resultaten är i enlighet med tidigare studier och stärker således implikationen att Le Fort I har en positiv påverkan på artikulationen hos personer födda med läpp- käk- gomspalt.

The effect of maxillary advancement with Le Fort I osteotomy on articulation, in patients with cleft lip and palate

Stina Flodin
Emilie Hagberg

Abstract. Individuals born with cleft lip and palate are at risk for maxillary hypoplasia, which may cause articulatory difficulties. The aim of this retrospective comparative study was to examine how maxillary advancement with Le Fort I osteotomy affects the articulation of patients born with cleft lip and palate. The participants were 15 young adults, born with cleft lip and palate who had undergone Le Fort I due to maxillary hypoplasia. Audio recordings of single words from Swedish Articulation and Nasality Test, were recorded preoperatively and one year postoperatively. Transcriptions of target sounds by trained listeners, acoustic analysis of /s/ and assessment of general accuracy by untrained listeners were carried out. Nine of the 15 participants improved their articulation and seven participants exhibited normalized articulation one year postoperatively. The trained listeners' judgments and the acoustic analysis demonstrated a positive change especially in the production of /s/. The results are in accordance with previous studies and strengthen the implication that Le Fort I has a positive impact on the articulation in patients born with cleft lip and palate.

Individer födda med läpp- käk- gomspalt (LKG) riskerar att få en underutveckling av överkäken, sk. maxillär hypoplasi. När tillväxten av ansiktet är färdig, ger denna ett underbett som kan ge artikulatoriska svårigheter och avvikande ansiktsprofil. Detta behandlas konventionellt med Le Fort I osteotomi, en operationsmetod som innebär en maxillär framflyttning.

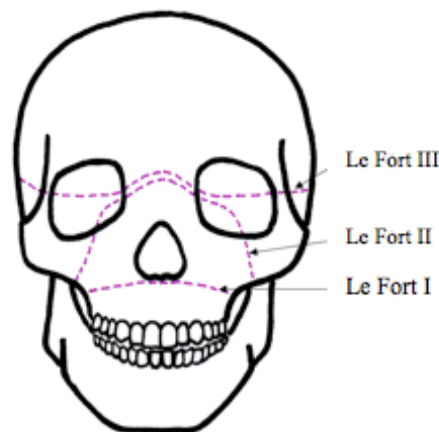
LKG är en av de vanligaste medfödda missbildningarna. Prevalensen i Sverige är cirka två per 1000 invånare (Hagberg, Larson & Milerad, 1997). Etiologin bakom LKG (där spalten inte ingår i ett syndrom eller association) är inte klar och mycket tyder på att orsaken är multifaktoriell, med påverkan av både genetiska och miljömässiga faktorer (Sperber & Sperber, 2013). En normal ansiktsutveckling startar i fostervecka fyra och ska vara färdig i vecka 10-12. Från den första faryngeala bågen hos embryot bildas näsan och strukturer framför foramen incisivum (maxilla, primär gom, främre läpp, fyra tänder). Först utvecklas den hårda gommen sedan den mjuka gommen. Det är vid en störning under sammanfogningen av dessa strukturer som en spalt kan uppstå (Chen, Shkoukani & Vong, 2013).

LKG och talproduktion. På grund av strukturella avvikelser, problem med hörsel och nedsatt velofaryngeal funktion riskerar personer som föds med LKG att få svårigheter i tal- och språkutvecklingen. Hos barn som föds med LKG och som ännu inte genomgått gomslutning saknas en intakt kontaktyta för tungan, vilket påverkar ljudbildningen. Faktorer som hörselstatus, tidpunkt och metod för operation kan göra att jollerutvecklingen, som är en viktig del i den förspråkliga utvecklingen, skiljer sig jämfört med typiskt utvecklade barn (Chapman & Willadsen, 2011). Risk för avvikelser i talet hos en person med LKG kvarstår emellertid även efter gomslutning. Otillräcklig velofaryngeal funktion är en vanlig fysiologisk nedsättning hos dessa individer som kan vara grundorsaken till flera olika passiva talavvikelser; hypernasalitet, trycksvaga konsonanter, hörbara nasala genomslag och nasala biljud (Henningsson et al., 2008). Otillräcklig velofaryngeal funktion leder ibland till att individer utvecklar aktiva strategier för att kompensera för den otillräckliga tillstängningen mellan mun- och näshåla. Att flytta artikulationen bakåt är en vanlig sådan aktiv process, antingen till bakom velofarynx; faryngealt eller glottalt, eller bakåt men inom den orala kaviteten (Hutters & Brøndsted, 1987).

Operation av spalt och påverkan på tal respektive ansiktstillväxt. Slutning av spalten kan göras i ett eller två steg. Vid operation i ett steg sluts den mjuka och hårda gommen vid ett och samma tillfälle. Vid operation i två steg sluts vanligtvis läppen och mjuka gommen först och hårda gommen vid ett senare tillfälle. Inom dessa två tillvägagångssätt varierar kirurgisk metod och patientålder vid operation (LaRossa, 2000). Orsakerna till maxillär hypoplasi kan vara flera men av störst etiologisk vikt är den ärrbildning som uppstår till följd av gomoperationen (Ross, 1987; LaRossa, 2000). I tillägg till detta kan det även finnas en inneboende tillväxthämning hos dessa individer, då maxillär hypoplasi även förekommer hos personer med obehandlad spalt (Ortiz-Monasterio, Alfonso, Gustavo, Rodriguez-Hoffman & Vinageras, 1966; Derijcke, Kuijpers-Jagtman, Lekkas, Hardjowasito & Latief, 1993). Tidpunkt för gomslutning är en viktig faktor i diskussionen om operationens påverkan på talutveckling respektive ansiktstillväxt. En tidig gomslutning i ett steg (som vanligtvis innebär operation vid 6 till 18 månaders ålder) har rapporterats ge bättre förutsättningar för talutvecklingen (Kaplan, 1981; Dorf & Curtin, 1982), men samtidigt öka risken för maxillär hypoplasi (Graber, 1950; Liao, Cole & Mars, 2006). I linje med detta visar andra studier att senare

eller ingen operation av spalten ger goda förutsättningar för normal ansiktstillväxt (Mars & Houston, 1990; Lilja et al., 2006). Senare gomslutning kan emellertid innebära en negativ påverkan på utvecklingen av talproduktionen. Klintö, Svensson, Elander & Lohmander (2013) visade i sin studie att treåringar med oopererad spalt i hårda gommen uppvisade signifikant sämre tal och fonologisk förmåga jämfört med treåringar som fått spalten opererad i ett steg runt 13 månaders ålder. Långsiktiga effekter på talet efter operation i två steg (slutning av mjuka gommen vid åtta månaders ålder och hårda gommen vid 8-9 års ålder) visade emellertid på minst lika bra, eller bättre, resultat som efter operation i ett steg (Lohmander, Friede & Lilja, 2012). Vid studier av långtidseffekten på maxillär tillväxt hos patienterna som genomgick operationen i två steg återfanns dessutom en låg incidens av maxillär hypoplasi (Friede, Lilja & Lohmander, 2012). Oenighet råder således kring vilken operationsgång, -metod och -tidpunkt som ger de bästa förutsättningarna för maxillär tillväxt utan att försämra förutsättningarna för talutvecklingen.

Maxillär framflyttning. Retrospektiva studier visar att andelen personer födda med LKG, som i ett senare skede är i behov av ortognat kirurgi på grund av maxillär hypoplasi, varierar mellan 10 % (Friede et al., 2012), 22 % (Rosenstein, Kernahan, Dado, Grasseschi & Griffith, 1991), 25 % (DeLuke, Marchand, Robles & Fox, 1997) och 47,7 % (Good, Mulliken & Padwa, 2007). Dessa personer får felpositionerade käkförhållanden och bettavvikelser, som ger ansiktsprofilen en konkav form. Ortognat kirurgi kan således ha både estetiska och funktionella syften och kombineras alltid med ortodontisk behandling, för att förbättra tillväxten och skapa jämvikt i ansiktsskelettet (Iannetti, Cascone, Saltarel & Ettaro, 2004). Le Fort I osteotomi är konventionellt den kirurgiska metod som används vid normalisering av käk- och bettförhållanden, hos personer födda med LKG (Saltaji, Major, Alfakir, Al-Saleh & Flores-Mir, 2012). Denna metod innebär en maxillär framflyttning och beskrevs för första gången av von Langenbeck redan 1859 (Drommer, 1986) och bygger på den franska kirurgen René Le Forts (1869-1951) kartläggning av tre vanliga frakturmönster i ansiktsskelettet; Le Fort I, II och III, där Le Fort I innefattar maxillan (figur 1) (Allsop & Kennett, 2002). Stabiliteten i Le Fort I osteotomi har diskuterats då personer födda med LKG oftare drabbats av återfall efter maxillär framflyttning med denna operation än andra patienter. Detta kan förklaras av ärr i gom och i mjuka vävnader på grund av tidigare gomslutning (Saltaji et al., 2012). En ytterligare metod utöver Le Fort I osteotomi, är käkdistraktion. Maxillan förlängs då gradvis med en millimeter per dag med en samtidig nybildning av ben. Denna metod används oftare då det krävs stora framflyttningar av maxillan och metoden har visat sig vara stabil och säker (Figueroa & Polley, 2007). En sammanfattning av den långa erfarenheten av Le Fort I osteotomi visar dock att för personer födda med LKG, med sekundär maxillär hypoplasi, är Le Fort I den mest lämpade metoden för käkkorrigerings (Iannetti et al., 2004). Valet mellan Le Fort I eller käkdistraktion som kirurgisk metod har ej visat någon signifikant skillnad i påverkan på varken den velofaryngeala funktionen eller talet (Chancharonsook, Samman & Whitehill, 2006; Cheung & Chua, 2006). Vid ortognat kirurgi är det vanligt att andra kirurgiska ingrepp genomförs samtidigt. Vid särskilt stor diskrepans mellan över- och underkäke, kombineras ofta Le Fort I med en mandibulär tillbakaflyttning (Satoh, Mitsukawa, Tosa, Kadamatsu & Hosaka, 2006). I en metaanalys av 1418 maxillära framflyttningar, förekom mandibulär tillbakaflyttning 346 gånger (24,4 %) (Cheung & Chua, 2006).



Figur 1. Illustration av nivåerna för Le Fort osteotomi. (Illustration: Erica Smedberg).

Maxillär framflyttning och tal. Det har rapporterats varierande resultat kring huruvida maxillär framflyttning påverkar den velofaryngeala funktionen eller befintlig velofaryngeal insufficiens (VPI) hos personer födda med LKG. Små deltagargrupper och en stor spridning i metodik vid bedömning av VPI, beskrivs vara en anledning till de varierande resultaten (Pereira, Sell & Toumainen, 2013). I de flesta rapporterade fallen, skapar ett avancemang ingen signifikant skillnad i velofaryngeal funktion, men i de fall där den velofaryngeala funktionen har försämrats postoperativt har det funnits en befintlig VPI preoperativt (Chanchareonsook et al., 2006; Smedberg, Neovius & Lohmander, 2013). Det avvikande bettförhållandet som uppstår vid maxillär hypoplasi kan påverka artikulationen då läppar, tunga och tänder får ogynnsamma positioner för uttal av vissa språkljud (Chanchareonsook et al., 2006). En maxillär framflyttning som skapar en normaliserad relation mellan käkarna, tänderna och läpparna, har visat sig ha en positiv eller ingen påverkan på artikulationen (Kummer, Strife, Grau, Creaghead & Lee, 1989; Maegawa, Sells & David, 1998; Janulewicz et al., 2004; Pereira et al., 2013; Chanchareonsook et al., 2006; Kim, Kim, Moon & Lee, 2012). Kunskap saknas om huruvida det finns ett samband mellan längden på maxillär framflyttning, och artikulatorisk förbättring postoperativt. Maegawa et al. (1998) undersökte talet efter Le Fort I, utifrån parametern förstälighet och rapporterade då att maxillära framflyttningar upp till 10 mm generellt leder till förbättrat tal och förstälighet, medan större framflyttningar ökar risken för oförändrad eller nedsatt förstälighet.

De primära artikulatoriska fel som görs preoperativt och som i störst utsträckning förbättras postoperativt är artikulationen av sibilanten /s/. Även dentala och bilabiala klusiler samt nasalerna /m/ och /n/ har rapporterats bli positivt påverkade av maxillär framflyttning. Dessa artikulatoriska fel är dock inte lika frekventa preoperativt (McCarthy, Cocco & Schwartz, 1979; Witzel, Ross & Munro, 1980; Ruscello, Tekieli, Jakomis, Cook & Van Sickels, 1986; Kummer et al., 1989; Vallino, 1990; Lee, Whitehill, Ciocca & Samman, 2002). Att bettavvikelser och förhållandet mellan käkarna påverkar /s/-produktionen i stor utsträckning kan till viss del förklaras av den stora artikulatoriska precision som krävs, framförallt av tungspetsens och tungbladets rörelser. Vid produktion intar tungspetsen vanligtvis en sänkt position och tungbladet formar ett centralt långsmalt dike, vilket ger förutsättning för en sammanhållen genomströmning av luft att passera i förträngningen mellan incisiverna i över- och underkäke. När luftströmmen träffar kanten på incisiverna skapas det distinkta,

högfrekventa ljud som perceptuellt är signifikant för sibilanten /s/ (Lindblad, 1980; LeBlanc & Cisneros, 1995). En akustisk analys av ett normalt producerat /s/ visar ett spektrum där energifördelningen är hög, stark och dominant på frekvenser mellan 5-11 kHz och samtidigt låg eller obefintlig på under 4 kHz (Daniloff, Wilcox & Stephens, 1980; Lindblad, 1980). Ett underbett kan påverka artikulationen av /s/ så att produktionen blir dental eller interdental, med tungan pressad mot incisivernas insida eller mellan incisiverna. /S/-ljudet uppfattas då som avvikande och akustiskt blir energin svagare och energifördelningen spridd över ett större frekvensband (Daniloff et al., 1980; LeBlanc & Cisneros, 1995).

Relationen mellan artikulation och bettavvikelser är emellertid komplex. Förutom fördelaktiga förhållanden i position av läppar, tunga och tänder är en fungerande artikulation beroende av neurologiska och fysiologiska mekanismers funktion (Guay, Maxwell & Beecher, 1978). I studier som rapporterar övervägande positiv förändring av artikulationen efter maxillär framflyttning finns även deltagare med underbett som uppvisar normal artikulation preoperativt (Kummer et al., 1989; Maegawa et al., 1998; Janulewicz et al., 2004; Pereira et al., 2013). Detta kan delvis förklaras av kompensatorisk artikulation, då normal produktion av /s/ på grund av kompensatoriska rörelser av underkäken har beskrivits i grupper med underbett (Benediktsson, 1958).

Det har rapporterats olika resultat gällande hur stor direkt påverkan en maxillär framflyttning har på artikulation. Vallino (1990) beskriver med hjälp av upprepade realtidstranskriptioner, både en spontan artikulatorisk förbättring direkt efter maxillär framflyttning, men även en fortgående förbättring upp till ett år postoperativt. Även akustisk analys av /s/ före och efter maxillär framflyttning, har visat en spontan artikulatorisk förbättring tre månader och ett år postoperativt (Lee et al., 2002). Jämfört med Vallino (1990) beskrev Lee et al. (2002) att förbättringsparametrarna var olika efter tre månader i jämförelse med ett år postoperativt, möjligen på grund av återfall efter det kirurgiska ingreppet. Wakumoto et al. (1996) undersökte med hjälp av elektropalatografi (EPG) förmågan till artikulatorisk reorganisation vid /s/-produktion, efter maxillär framflyttning. Författarna fann då en direkt, spontan reorganisation av /s/-produktionen, utifrån de normaliserade käkförhållandena. Reorganisationen påvisades även sex månader postoperativt. Maegawa et al. (1998) menade dock att en normalisering av bettet ej löser befintliga artikulationsproblem hos alla och att logopedisk intervention då är nödvändig för förändring av inlärd artikulatoriska beteenden.

Talbedömning vid ortognat kirurgi. Perceptuell bedömning är den vanligaste metoden för undersökning av talförändringar efter ortognat kirurgi. I en metaanalys av 22 artiklar, som undersökt hur artikulation påverkas av ortognat kirurgi är resultaten framförallt baserade på perceptuella bedömningar (Chanchareonssok et al., 2006). Dessa studier förhåller sig dock sällan till några standardiserade riktlinjer utan varierar brett i metodologiskt förhållningssätt. Olika protokoll, små deltagarantal, skillnader i analysprocedur samt en bristande redovisning i intra- och interbedömarreliabilitet är några av de svårigheter som påvisats (Dalston, Marsh, Vig, Witzel & Bumsted, 1988; Lohmander & Olsson, 2004; Sell, 2005; Chanchareonssok et al., 2006; Pereira et al., 2013).

Förståelighet som ett kompletterande mått i talbedömning av personer med LKG, ger en mer fullständig beskrivning av talproblematikens effekter på individens aktivitet och delaktighet i vardagen. Whitehill (2002) beskriver en ökning i antal publicerade förståelighetsbedömningar men rapporterar även svårigheter och brister i reliabilitet och

validitet i dessa studier. För att kunna uttala sig om hur talet hos personer födda med LKG uppfattas av omgivningen, skapade Elvin och Seveborg (2009) ett bedömningsprotokoll med ett anpassat vokabulär för otränade lyssnare. För bedömning av artikulatorisk precision användes begreppet *tydlighet*.

Sammanfattningsvis finns det få studier som undersökt den artikulatoriska förändringen efter Le Fort I, hos personer födda med LKG. De studier som finns är små och består totalt av få antal deltagare med skilda förutsättningar vad gäller spalttyp, operationsmetod vid gomslutning, längd av maxillär framflyttning, analysmetod samt perceptuell bedömningsmetod. Det finns således behov av ytterligare studier av talet.

Syftet med denna studie var, att undersöka om Le Fort I osteotomi leder till förbättrad artikulation, hos personer födda med läpp- käk- gomspalt.

Frågeställningar:

1. Förbättras artikulationen efter Le Fort I osteotomi, hos personer födda med LKG?
2. Förbättras produktionen av sibilanten /s/ efter Le Fort I osteotomi?
3. Tycker otränade lyssnare att tydligheten i ord innehållande /s/ ökar efter Le Fort I?
4. Finns samband mellan de olika analysmåten (andel korrekta orala konsonanter, akustisk analys samt tydlighetsbedömning av otränade lyssnare)?
5. Kan faktorer i operationen (längd maxillär framflyttning, eller samtidig mandibulär tillbakaflyttning) förklara eventuell artikulatorisk förändring?

Metod

Deltagare

I denna retrospektiva jämförande studie undersöktes deltagare som ingick i en konsekutiv fallserie med totalt 21 personer. Inklusionskriterier var att deltagarna skulle vara födda med LKG samt ha genomgått maxillär framflyttning med Le Fort I osteotomi. Exklusionskriterierna var diagnostiserade syndrom samt syndromliknande tillstånd, vilket gjorde att fem deltagare exkluderades. På grund av dålig ljudkvalité i undersökningsmaterialet föll ytterligare en deltagare bort. Deltagarna i denna studie bestod således av 15 unga vuxna; fem kvinnor och tio män. Sju deltagare var födda med unilateral LKG och åtta deltagare var födda med bilateral LKG. Samtliga deltagare genomgick läppslutning mellan 4 till 8 månaders ålder och gomslutning i ett steg mellan 10 och 15 månaders ålder, förutom en deltagare som genomgick gomslutning vid 3 års ålder. Tre olika metoder för gomslutning hade använts; Minimal Incision Technique (MIT), Von Langenbeck och Veau-Warder-Killner. Samtliga deltagare genomgick maxillär framflyttning med Le Fort I osteotomi mellan år 2007 och 2012, och opererades av två erfarna käk- och plastikkirurger, vid Karolinska Universitetssjukhuset i Stockholm. Deltagarnas ålder vid Le Fort I varierade mellan 17 och 27 år och den maxillära framflyttningen varierade mellan två och sju millimeter (tabell 1). Nio av de 15 deltagarna genomgick samtidigt en mandibulär tillbakaflyttning. Ingen av de 15 deltagarna fick direkt logopedisk talintervention upp till ett år postoperativt. Information om hörsel fanns att tillgå för åtta av 15 deltagare och bestod av enstaka hörselundersökningar genomförda vid olika tidpunkter.

Tabell 1

Deltagarinformation för 15 deltagare med LKG: Kön, inspelning antal månader preoperativt, ålder vid Le Fort I, inspelning antal månader postoperativt, planerade mått av antal millimeter (mm) maxillär framflyttning samt mandibulär tillbakaflyttning. X = information saknas.

Deltagare	Inspelning pre op. (mån)	Ålder vid Le Fort I (år)	Inspelning post op. (mån)	Planerad maxillär framflyttning (mm)	Mandibulär tillbakaflyttning
1	19	17	10	2	nej
2	17	18	13	7	Ja
3	22	19	13	3,2	Ja
4	24	27	12	4,5	Ja
5	10	20	14	6	Ja
6	11	18	13	7	nej
7	12	21	14	8	ja
8	13	19	12	6	x
9	12	18	15	5	ja
10	20	19	14	5,3	nej
11	13	19	14	7	ja
12	18	19	21	2,5	nej
13	14	18	12	6	ja
14	7	23	13	6	ja
15	28	19	12	4	nej

Material

Materialet bestod av totalt 30 ljudinspelningar. Femton inspelningar gjordes mellan sju och 28 månader preoperativt och 15 inspelningar gjordes mellan 10 och 21 månader postoperativt. Det insamlade materialet bestod av orddelen från SVenskt Artikulations- och NasalitetsTEst (SVANTE), ett svenskt test med normerade jämförelsevärden (Lohmander et al., 2014). Materialet samlades in på ett standardiserat tillvägagångssätt, inom den kliniska verksamheten vid Stockholms Kraniofaciala Center, mellan åren 2006 och 2013. Nio inspelningar spelades in på Digital Audio Tape (Sony Walkman TCD-D8) och 21 inspelningar i studio, i Soundswell signal workstation (Ternström, 2000) med mikrofon: AKG D190E. Studioinspelat material lagrades i Voice Journal. Orddelen i talmaterialet eliciterades ur ljudfilerna. Varje ljudfil var ca 1,5-2,5 minuter lång och innehöll 74 ord. Överföring från DAT-band och Voice journal till .wav-filer gjordes i Soundswell, samtidigt togs personliga uppgifter bort och filerna gavs avidentifierade kodnamn. Ljudjustering för korrigerande av varierande ljudvolym i materialet genomfördes i Sopran (hämtat från <http://www.tolvan.com>, 2014-01-17).

Mätmetoder

Tre olika bedömningsmetoder användes för analys av deltagarnas artikulation före och efter maxillär framflyttning med Le Fort I: 1) transkription av målljud av tränade lyssnare, 2) akustisk analys av /s/ och 3) tydlighetsbedömning av otränade lyssnare.

Tillvägagångssätt

Orddelen i materialet låg till grund för den artikulatoriska analysen och bestod av 74 ord med 74 målljud (tabell 2).

Tabell 2

Målljud och målljudens position för artikulatorisk analys av de 15 deltagarna preoperativt och postoperativt, Le Fort I osteotomi.

	Position		
	Initial	Medial	Final
Klusiler	[p, t, b, d, k, g]	[p, t, b, d, k, g]	[p, t, b, d, k, g]
Frikativor	[f, s, ʃ]	[f, s]	[f, s]
Nasal	[n]	[n]	[n]
s-kluster	[sp][sk][sv][st][sn]		

Transkription av målljud av tränade lyssnare. Målljuden transkriberades och redovisades som andel korrekta orala konsonanter (AKOK), enligt SVANTE-manualen (Lohmander et al., 2014). Transkriptionerna genomfördes på varsitt håll, av två tränade lyssnare, blindade inför materialet. Bedömare ett användes sedan som huvudtranskriptör och bedömare två som mottranskriptör. Huvudtranskriptören har arbetat med LKG och SVANTE-bedömningar i klinisk praktik i åtta år och varit verksam inom logopedi i 19 år. Mottranskriptören har arbetat aktivt med LKG och SVANTE-bedömningar i ett och ett halvt år. Instruktioner för genomförandet, arbetsblad ett och två ur SVANTE, samt ljudfilerna överlämnades till bedömarna. De använde täckande hörlurar och enligt instruktioner fick de lyssna valfritt antal gånger på varje ord men ej gå tillbaka för att göra ändringar. Transkriptionen kunde genomföras digitalt eller för hand, enligt internationella fonetiska alfabetet (hämtat från <http://www.langsci.ucl.ac.uk/ipa/>, 2014-01-16) och den utökade uppsättningen (hämtat från <http://www.langsci.ucl.ac.uk/ipa/extIPAChart2008.pdf>, 2014-01-16). Nio av 30 (30 %) av de ljudjusterade .wav-filerna dubblerades för att kontrollera intrabedömarreliabilitet. En procentuell överensstämmelse, beräknad med punkt för punkt samstämmighet,

mellan och inom transkriptörerna beräknades för kontroll av inter- och intrabedömarreliabiliteten (tabell 3).

Tabell 3

Procentuell (%) överensstämmelse mellan och inom transkriptörerna.

Interbedömarreliabilitet:	90
Intrabedömarreliabilitet:	
Huvudtranskriptör (1)	96
Mottranskriptör (2)	100

AKOK beräknades på huvudtranskriptörens transkriptioner enligt SVANTE-manual och jämfördes med referensvärde för unga vuxna ur SVANTE-manual, reviderad version (Lohmander et al., 2014), där normal artikulation innebar 97 % AKOK eller högre. I beräkningen av intra- och interreliabilitet likställdes transkription som syftade på avvikande tillbakaflyttad artikulation inom oralt artikulationsställe, då framförallt alveolart och palatalt artikulationsställe. Alveolara och interdental /s/ beräknades även som likvärdiga på grund av sina icke-sibilantiska egenskaper. På grund av större oenighet i transkriptionen av en deltagares två inspelningar, fick dessa bedömas av ytterligare en transkriptör. Mottranskriptörens bedömning stärktes i det aktuella fallet och användes i beräkningen av AKOK.

Akustisk analys av /s/. I programmet Audacity 2.0.5 (hämtat från <http://audacity.sourceforge.net>, 2013-10-22) klipptes alla /s/-ljud ut ur de ljudjusterade .wav-filerna. Sammanlagt fördes /s/-ljud ur 17 ord ihop för varje inspelning och deltagare (tabell 4). Tolv preoperativa och 11 postoperativa /s/-ljud exkluderades för en deltagare på grund av tonande komponent. För varje deltagare skapades två ljudfiler med /s/-ljud, en med material från den preoperativa inspelningen och en med material från den postoperativa inspelningen. För att analysera alla /s/ oberoende av position i ordet slogs de ihop till ett långtidsmedelvärdespektrum (LTAS) i programmet Sopran. För analys av energifördelningen i de olika frekvensbanden, 2-4 kHz, 4-6 kHz samt 6-8 kHz användes ett Butterworthbandpassfilter i Sopran. Medelnivå i varje frekvensband togs fram preoperativt respektive postoperativt för varje deltagare. Då filerna ej var nivåkalibrerade, normaliserades dessa värden genom beräkningar i Excel. Värdena som användes för analys visade då det relativa energiinnehållet inom varje frekvensband, pre- respektive postoperativt för varje deltagare.

Tabell 4

Akustisk analys: Totalt 17 /s/-ljud, i isolerad position och i kluster.

/s/ i kluster:	spelar	stol	skor	svala	snö
	spolar	stor	skalar	svara	snöre
	Initial		Medial		Final
Isolerade /s/:	sol		läser		hus
	sil		låser		ljus
	sover				

Tydlighetsbedömning av otränade lyssnare. I ljudredigeringsprogrammet Audacity 2.0.5 skapades en ljudfil med 120 ordpar innehållande ord ur SVANTE med /s/ i kluster och isolerat (tabell 5). Varje ordpar bestod av en preoperativ inspelning och en postoperativ inspelning för samma ord och inom samma deltagare. Ordningen mellan orden i paren randomiserades. Mellan varje ord i ordparen lämnades ca en halv sekunds tystnad och mellan ordparen ca en sekunds tystnad. De otränade lyssnarna rekryterades genom bekvämlighetsurval och bestod av 13 personer (fyra män, nio kvinnor) i åldern 22 till 58 år. Exklusionskriterier var logoped, talpedagog eller annat yrke med inriktning på tal och röst samt känd hörselnedsättning. De otränade lyssnarna ombads att lyssna på ljudfilen och samtidigt markera det ord inom ordparet som lät tydligast. De kunde även markera i protokollet om de uppfattade orden inom ett ordpar som lika (tydliga, otydliga). Bedömningen tog cirka 10 minuter att genomföra. Sammanlagt innehöll ljudfilen 134 ordpar då fjorton av 120, ca 12 % av ordparen dubblerades. Den procentuella överensstämmelsen inom dubbletterna beräknades och visade en intrabedömarreliabilitet som varierade mellan 27-87 % (median: 53 %).

Tabell 5

S-ord: Tydlighetsbedömning

/s/ i kluster:	spelar	stol	skor	svala	snö
	Initial		Medial		Final
/s/ isolerat:	sol		läser		hus

Statistisk analys

Insamlade data behandlades i SPSS (Statistical Package for Social Sciences), version 21. Beroende mätningar jämfördes, vid normalfördelade data, med parvisa t-test. Korrelation mellan mätningar beräknades med Pearsons produktmomentkorrelationskoefficient. Vid beräkning av resultat som funktion av grupp, användes Mann-Whitney U-test. Distributionsanalys av data gjordes med Shapiro-Wilks normalfördelningstest. Signifikansnivån bestämdes till 0,05 för samtliga beräkningar.

Forskningsetiska överväganden

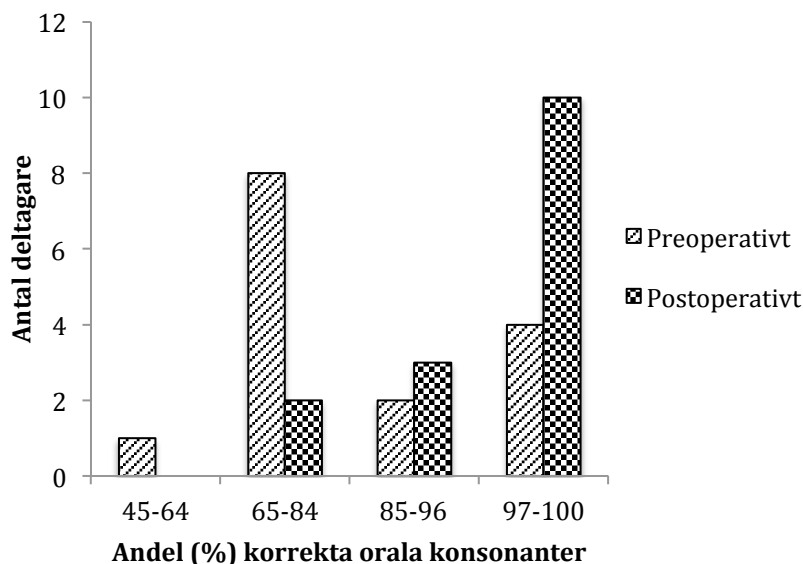
Studiens deltagarantal var litet, samtliga var födda med LKG och hade under begränsad tidsperiod genomgått osteotomi med Le Fort I. Avidentifiering av materialet var därför av yttersta vikt, särskilt då individuella resultat presenterades. Då studien byggde på röstinspelningar fanns en teoretisk risk för igenkänning. Denna bedömdes dock som minimal då ingen inspelning var dagsaktuell eller innehöll personuppgifter. Godkänd etikprövning av regionala etikprövningsnämnden i Stockholm, Dnr: 2011/1278-31 /1.

Resultat

Andelen korrekta orala konsonanter (AKOK) hos deltagarna ökade signifikant postoperativt jämfört med preoperativt. Störst var ökningen i andel korrekta produktioner av /s/. Energifördelningen över frekvensband vid produktion av /s/ var lägre på låga frekvenser och högre på höga frekvenser postoperativt jämfört med preoperativt. Denna förändring var dock ej signifikant.

AKOK. Preoperativt hade 11 deltagare mindre än 97 % AKOK. Av dessa 11 hade nio mindre än 85 % AKOK. Postoperativt hade 13 deltagare 85 % eller högre AKOK, av dessa hade 10 deltagare 97 % eller högre värde postoperativt (figur 2). Medelvärdet för AKOK preoperativt var 82 % (*SD*: 13) och postoperativt 95 % (*SD*: 8) Skillnaden var signifikant för hela gruppen, $t(14) = -3,63$, $p < 0,01$. Medelvärdet för andel korrekt

producerade /s/ preoperativt var 34 % (SD: 42) och postoperativt 85 % (SD: 35). Skillnaden var signifikant, $t(14) = -3,83, p = <0,01$.



Figur 2. AKOK (%) hos deltagarna (n=15) pre- respektive postoperativt.

Akustisk analys. Nio deltagare hade lägre relativ energinivå på låga frekvenser (2-4 kHz) och 12 deltagare ökade på höga frekvenser (6-8 kHz) postoperativt jämfört med preoperativt. Gruppens minskning på låga frekvenser var inte signifikant $t(14) = 1,707, p = 0,11$. Ökningen på höga frekvenser var inte heller signifikant, $t(14) = -1,442, p = 0,171$ (tabell 8).

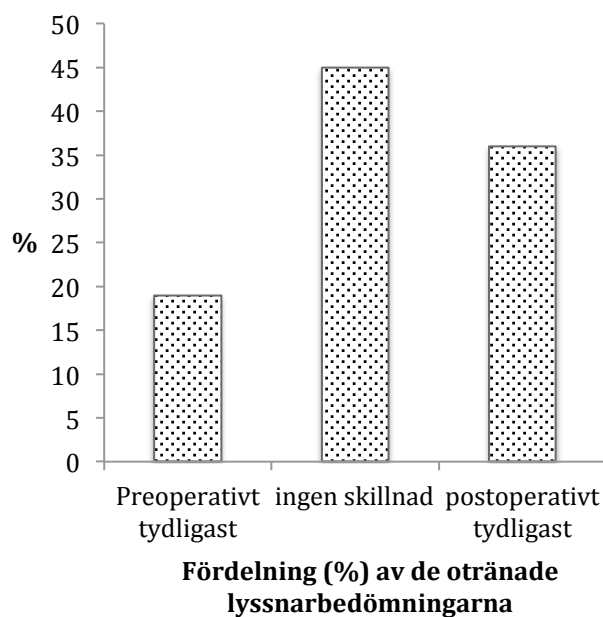
Tabell 8

Relativ nivåförändring (dB) i frekvensband för gruppen, vid produktion av /s/, från preoperativ inspelning till postoperativ inspelning.

kHz	M (SD)	p
2-4	-1,58 (3,6)	0,11
4-6	0,26 (0,8)	0,244
6-8	0,91 (2,4)	0,171

Tydlighetsbedömning av otränade lyssnare. Nio deltagare bedömdes av de otränade lyssnarna vara lika tydliga eller lika otydliga pre- och postoperativt. Fem deltagare

bedömdes vara tydligast postoperativt. En deltagare bedömdes vara tydligast preoperativt (figur 3).



Figur 3. Medelvärde av andel (%) ord som av otränade lyssnare bedömdes som tydligast preoperativt, postoperativt eller lika tydlig/otydlig ('ingen skillnad').

Jämförelser mellan måtten. Det fanns ett signifikant positivt samband mellan förändringen i relativ energinivå på frekvensband 6-8 kHz och ökning av AKOK ($r = 0,67$, $p < 0,01$). Det fanns inget signifikant samband mellan längd på maxillär framflyttning och förbättring i AKOK eller mellan längd på maxillär framflyttning och förändring i frekvensband (tabell 9).

Tabell 9

Korrelation (Pearsons produktmomentkorrelationskoefficient) mellan längden på maxillär framflyttning (mm) vid operation och förändring i AKOK (%), relativ energinivå i låga (2-4 kHz) respektive höga frekvensband (6-8 kHz).

Förändring	Mm framflyttning	Förändring AKOK	Förändring 2-4 kHz
AKOK	0,03		
2-4 kHz	-0,45	-0,4	
6-8 kHz	0,17	0,667 *	-0,084

* $p < 0,01$

Mandibulär tillbakaflyttning. Det fanns ingen signifikant skillnad gällande prestation i AKOK för de i gruppen som samtidigt som Le Fort I genomgick mandibulär tillbakaflyttning jämfört med gruppen som endast genomgick Le Fort I, $Z(-1,81)$, $p = 0,083$).

Diskussion

Resultaten från den perceptuella bedömningen gjord av tränade lyssnare, med god reliabilitet, visade att nio av 15 deltagare uppvisade förbättrad artikulation ett år postoperativt maxillär framflyttning med Le Fort I. I jämförelse med referensvärden för AKOK, för unga vuxna (SVANTE, reviderad version, 2014), fick sju av dessa nio en normaliserad artikulation postoperativt. Sibilanten /s/ var den konsonant som var mest påverkad preoperativt och förbättrades mest postoperativt. Hos deltagarna i denna studie uppfattades visslande, alveolar och interdental artikulation av /s/ preoperativt. Dessa svårigheter kan förklaras av att artikulationen av /s/ är extra känslig då diskrepansen mellan över- och underkäke är stor, på grund av att incisiverna ej kan mötas och tungans placering blir avvikande. Den akustiska analysen stärkte den perceptuella bedömningen av /s/ postoperativt, då den gemensamma akustiska bilden visade ett distinktare och kraftfullare /s/-ljud postoperativt. Resultaten är i enlighet med tidigare studier som genom perceptuell bedömning av artikulation beskriver hur normaliserade käkförhållanden efter maxillär framflyttning har lett till en spontant förbättrad artikulation (Kummer et al., 1989; Janulewicz et al., 2004; Vallino, 1990; Chancharensook et al., 2006). Flera studier har även dragit liknande slutsatser kring relationen mellan maxillär hypoplas, maxillär framflyttning och påverkan på artikulation av just /s/ (McCarthy et al., 1979; Witzel et al., 1980; Ruscello et al., 1986; Kummer et al., 1989; Vallino, 1990; Lee et al., 2002). I föreliggande studie hade ingen deltagare fått direkt talintervention upp till ett år postoperativt Le Fort I. Detta gör det mest troligt att den artikulatoriska förbättring som uppvisats postoperativt beror på de normaliserade käkförhållandena till följd av Le Fort I.

Den akustiska analysen av /s/ visade att nio av 15 deltagare förändrade den relativa nivåfördelningen över frekvensband mot ett akustiskt mer distinkt /s/ postoperativt. Det innebar preoperativt en stor spridning av energi över frekvenser som postoperativt fördelade sig med högre koncentration av energi i höga frekvenser (6-8 kHz), och lägre koncentration av energi i låga frekvenser (2-4 kHz). Både den preoperativa och den postoperativa energifördelningen som uppvisades i denna studie är i enlighet med Daniloff et al. (1980) och deras beskrivning av den akustiska bilden av ett avvikande interdentalt /s/ respektive ett normalt /s/. Förändringen av relativ nivåfördelning var nästan signifikant för gruppen, vilket indikerar en positiv påverkan på /s/-produktionen postoperativt maxillär framflyttning med Le Fort I.

Trots att resultaten visade ett signifikant positivt samband mellan förändringen i relativ energinivå på frekvensband 6-8 kHz och ökning av AKOK så fanns ej överensstämmande resultat vid jämförelser mellan de individuella resultaten från den akustiska analysen och den artikulatoriska analysen av AKOK. Två av de nio deltagare som uppvisade en positiv akustisk förändring uppvisade ingen förbättring i artikulationen enligt AKOK. För den ena deltagaren kan den akustiskt förbättrade bilden ha blivit missvisande medan AKOK gav en mer korrekt beskrivning av deltagarens avvikande artikulation av framförallt /s/. Till skillnad från övriga deltagare, vars akustiska analys byggde på /s/-ljud eliciterade ur 17 ord (se tabell 4), så byggde

den akustiska analysen för den aktuella deltagaren på ett litet antal s-ljud. En tonande glottal frikativ [h̥] användes som substitution för /s/, vilket inte kunde användas i den akustiska beräkningen på grund av dess betydande olikhet från målljudet. Den akustiska analysen beskriver således inte deltagarens verkliga artikulation av /s/. I AKOK framkommer dock den glottala artikulationen, vilket påvisade en avvikande artikulation preoperativt och postoperativt. Möjliga förklaringar till den andra deltagaren som uppvisade förbättring i den akustiska bilden, men ej i AKOK, saknas.

Det fanns även två deltagare som förbättrades i artikulation enligt AKOK men som inte uppvisade en positiv förändring akustiskt. Detta kan för den ena deltagaren ha berott på en visslande komponent i produktionen av /s/ preoperativt som kan ha gett upphov till utebliven akustisk förändring då vissling innehåller energi på höga frekvenser. Möjliga förklaringar till den andra deltagarens resultat saknas, då den huvudsakliga förbättringen postoperativt, enligt transkriptionerna, skett i produktionen av just /s/.

I jämförelse med referensvärden för AKOK, för unga vuxna (SVANTE, reviderad version, 2014), uppvisade fyra av 15 deltagare normal artikulation preoperativt. Normal artikulation preoperativt har uppvisats hos deltagare i flera liknande studier men eventuella förklaringar till detta har sällan diskuterats mer ingående (Kummer et al., 1989; Maegawa et al., 1998; Janulewicz et al., 2004; Pereira et al., 2013). En möjlig förklaring är att dessa fyra hade en adaptiv artikulation som kompenserade de anatomiska avvikelserna, till skillnad mot de 11 deltagare som inte uppvisade normal artikulation preoperativt. Bendiktsson (1958) och Witzel et al. (1980) förklarar just detta fenomen med att talet primärt är ett inlärt beteende och att kompensatoriska rörelser och nya sätt att artikulera är vanligt hos personer med bettavvikelse. Det presenteras dock inga förklaringar till varför vissa utvecklar kompensatorisk artikulation och andra inte. För en av dessa fyra som preoperativt hade en normal artikulation försämrades artikulationen efter Le Fort I. Denna försämring postoperativt bestod av bakåtflyttad artikulation av /s/ till alveolart artikulationsställe. Det kompensatoriska artikulationsbeteendet preoperativt bestod troligen av en tillbakadragen tungplacering vid produktion av /s/ som gjorde att /s/ perceptuellt uppfattades som normal. Deltagarens artikulation reorganiserades dock inte efter de nya käkförhållandena till följd av den maxillära framflyttningen med Le Fort I, och uppfattades därför som avvikande postoperativt. På grund av individens olika förmåga till artikulatorisk reorganisation går det därför inte att utesluta en negativ påverkan på artikulationen postoperativt Le Fort I för personer med normal artikulation preoperativt. Sammanfattningsvis leder en normalisering av bettet ej till en spontant förbättrad artikulation för samtliga individer, och en kompletterande logopedisk talintervention kan därför vara nödvändig i de fall då inlärd artikulatorisk beteenden kvarstår postoperativt.

Ytterligare två deltagare uppvisade ingen spontan artikulatorisk reorganisation efter Le Fort I då de hade avvikande artikulation såväl preoperativt som ett år postoperativt. Den ena deltagaren uppvisade tryckreducerad artikulation samt tonande glottal frikativa [h̥] som substitution för /s/. Enligt Hutters & Brøndsted (1987) är avvikande artikulation av obstruenter bakom velofarynx en aktiv strategi för att kompensera för VPI. En befintlig VPI kan därför vara en bakgrundsförklaring till utebliven förbättring hos denna deltagare. Hardin-Jones & Jones (2005) kunde i sin undersökning av 212 förskolebarn som alla genomgått gomslutning i ett steg i olika åldrar, se att förekomsten av hypernasalitet ökade signifikant i relation till högre operationsålder, 25 % av förskolebarnen uppvisade även avvikande glottal artikulation. Den aktuella deltagaren genomgick gomslutning först vid 3 års ålder, till skillnad från övriga deltagare i studien där gomslutningen skedde mellan 10-

15 månaders ålder. Den sena gomslutningen vid 3 års ålder är således en trolig bakgrundsförklaring till en eventuell befintlig VPI som i sin tur orsakat den glottala talavvikelsen. Då den glottala artikulationen troligen är en aktiv strategi som deltagaren utvecklat i tidig ålder kan detta ej förknippas med bettavvikelsen. En maxillär framflyttning med Le Fort I osteotomi kan därför inte förväntas leda till förbättring av artikulationen i detta fall.

Syftet med att även genomföra en tydlighetsbedömning av otränade lyssnare i denna studie, var att ta reda på huruvida artikulatorisk påverkan efter Le Fort I kunde tänkas få betydelse för hur omgivningen uppfattar talet. Det kan i sin tur påverka individens aktivitet och delaktighet i vardagen. Begreppet tydlighet användes i aktuell studie som motsvarighet till tränade lyssnares bedömning av artikulation. Elvin och Seveborg (2009) skapade i sin studie ett bedömningsprotokoll för otränade lyssnare utifrån logopediska bedömningsparametrar i vilken just tydlighet användes som mått på artikulatorisk precision. De otränade lyssnarna i den aktuella studien bedömde i de flesta fall att det inte var någon skillnad i tydlighet mellan det preoperativt inspelade ordet och det postoperativt inspelade ordet. Intrabedömarreliabiliteten var dock låg och varierade mellan 27 % och 87 %, vilket gör att resultaten ej var tillförlitliga. På grund av detta genomfördes inga statistiska analyser utifrån resultaten. För att hålla ner materialets storlek samt på grund av uppgiftens icke-komplexa karaktär beräknades intrabedömarreliabiliteten utifrån 12 % dubblade ljudfiler. Detta är dock troligen ej anledningen till de otillförlitliga resultaten då tidigare undersökningar har visat liknande variation i intrabedömarreliabilitet hos otränade lyssnare. Det tyder på att otränade lyssnare är inkonsekventa i bedömning av samma material (Brunnegård et al., 2009; Elvin & Seveborg, 2009). En annan möjlig undersökningsdesign är användning av s.k. tvingade val, där det neutrala mellanalternativet ”lika tydligt/otyddigt” inte existerar. Detta hade emellertid givit missvisande resultat då de otränade lyssnarna oftast valde att använda sig av just mellanalternativet. Det indikerar att omgivningen inte tycker att tydligheten påverkas av Le Fort I, eller att grad av distinkthet i /s/-ljudet i ord inte självklart är avgörande vad gäller ords tydlighet. Vid en jämförelse mellan andel pre-respektive postoperativa ord som bedömdes tydligast, utan hänsyn till det neutrala mellanalternativet, återfanns emellertid störst andel bedömningar för det postoperativa ordet för gruppen (36 %) (figur 3). Det indikerar att även otränade lyssnare uppfattade en högre andel tydlighet i ord postoperativt. Undersökningar av aspekter på omgivningens uppfattning av talet bör komplettera talbedömningen och ligga till grund för val och prioritering i intervention. I föreliggande studie användes tydlighet som mått, för att undersöka hur deltagarnas eventuella artikulatoriska förändringar efter Le Fort I, uppfattades av omgivningen. För att utöka bilden av den enskilde individens egen upplevelse av talet före och efter Le Fort I, rekommenderas även användning av självskattningsformulär.

Vid Le Fort I individanpassas längden av den maxillära framflyttningen i relation till grad av avvikelse i relationen mellan käkarna. Bland de 15 deltagarna i den aktuella studien varierade den maxillära framflyttningen mellan två och sju millimeter. Det finns inget påvisat samband mellan längd på maxillär framflyttning och artikulatorisk förbättring. I föreliggande studie fanns inte heller något signifikant samband mellan förbättringen i AKOK och antal millimeter maxillär framflyttning. Nio av de 15 deltagarna i denna studie genomgick dock även en mandibulär tillbakaflyttning i samband med Le Fort I, vilket i praktiken innebar att den preoperativa diskrepansen mellan över- och underkäke kan ha varit större än vad som kunde utläsas ur maxillär

framflyttning i millimeter. Figueroa & Polley (2007) har beskrivit mandibulär tillbakaflyttning i kombination med Le Fort I som en åtgärd vid särskilt stor diskrepans mellan över- och underkäke. Sju av de nio deltagare som genomgick en mandibulär tillbakaflyttning uppvisade en förbättring i AKOK postoperativt. Skillnaden i AKOK mellan gruppen som samtidigt genomgick mandibulär tillbakaflyttning och gruppen som inte gjorde det var nästan signifikant. Detta indikerar att personer med särskilt stor diskrepans mellan över- och underkäke, som är i behov av både Le Fort I och mandibulär tillbakaflyttning, troligen har en större möjlighet till att få förbättrad artikulation ett år postoperativt jämfört med dem som endast är i behov av Le Fort I.

Måtten på maxillär framflyttning som redovisas i denna studie är preoperativt planerade mått, ej faktiska mått, mätta under eller efter operation. I ett pågående projekt genomförs bedömningar av gipsmodeller av deltagarnas bitt gjorda preoperativt och postoperativt Le Fort I osteotomi. Det är önskvärt att i framtiden, utifrån dessa bedömningar vidare beskriva hur deltagarnas olika bittavvikelser påverkar artikulationen. Bittets totala förändring mätt i millimeter som blir tillgängliga kan då ställas i relation till Maegawa et al., (1998) som beskrivit en kritisk längd vid maxillär framflyttning utifrån dess effekt på talet. Upp till 10 millimeter beskrevs då förbättra talet och förståeligheten medan en större framflyttning skapade inga eller negativa effekter på tal och förståelighet.

Det har ej kunnat klargöras huruvida eventuell ortodontisk behandling har förändrat bittet på ett sätt som gjort att deltagarnas preoperativa inspelning påverkats, i denna studie. En ortodontisk behandling föregår alltid Le Fort I och kan förändra bittet ytterligare, vilket vidare kan ha påverkat artikulationen preoperativt.

Resultaten i föreliggande studie kan även ha påverkats av nedsatt hörsel hos deltagarna. Hörseln i det höga frekvensområdet är särskilt viktig vid perception av /s/, då den mesta akustiska informationen finns där (Daniloff et al., 1980). Eftersom artikulation av framförallt /s/ ofta är påverkad hos personer som ska genomgå Le Fort I, är det viktigt att i framtiden skapa fungerande rutiner kring undersökningar och dokumentation av hörsel i denna patientgrupp. En hörselnedsättning kan ha försämrat förmågan till artikulatorisk anpassning efter den maxillära framflyttningen. Det är en brist i denna studie att information kring hörseln gällande deltagarna var otillräcklig och endast omfattade fragment ur enstaka hörselundersökningar. Hos de två deltagare som hade påverkad artikulation preoperativt och inte blev förbättrade postoperativt fanns uppgifter om normal hörsel vid 3 års ålder respektive en lätt hörselnedsättning vid 10 års ålder. Slutsatser kan inte dras gällande hörselns inverkan vid den artikulatoriska reorganiseringen efter Le Fort I, då fullständig information gällande hörselundersökningar och eventuella hörselhjälpmedel saknas.

Tidigare studier har med olika bedömningsmetoder såsom transkription, akustisk analys och EPG, visat postoperativa förbättringar upp till sex månader och ett år (Vallino, 1990; Lee et al., 2002; Wakumoto et al., 1996). Fler undersökningar av långtidseffekter på artikulationen efter Le Fort I är viktigt då det har visat sig att förbättringsvariablerna har förändrats över tid, och då det finns en större risk för återfall efter kirurgiska ingrepp hos personer födda med LKG, som kan påverka talet (Lee et al., 2002; Saltaji et al., 2012).

Sammanfattningsvis visar resultaten från denna studie att artikulationen hos personer födda med LKG, påverkas positivt efter maxillär framflyttning med Le Fort I, vilket stärker tidigare forskning. Störst positiv effekt verkar individer uppnå som har artikulatoriska svårigheter vid produktion av /s/ preoperativt.

Resultaten indikerar även att personer födda med LKG som är i behov av både Le Fort I och mandibulär tillbakaflyttning, har en större möjlighet till förbättrad artikulation ett år postoperativt i jämförelse med de som endast genomgår Le Fort I.

Referenser

Audacity 2.0.5 (hämtat från <http://audacity.sourceforge.net>, 2013-10-22)

Allsop, D., & Kennett, K. (2002). Skull and facial bone trauma. I A. M. Nahum & J. Melvin (red:er.), *Accidental injury: Biomechanics and prevention* (ss. 254–258). Berlin: Springer.

Benediktsson, E. (1958). Variation in tongue and jaw position in “S” sound production in relation to front teeth occlusion. *Acta Odontologica*, *15*, 275-304.

Brunnegård, 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 & Communication Disorders*, *44*, 656-674.

Chanchareonsook, N., Samman, N., & Whitehill, T. L. (2006). The effect of cranio-maxillofacial osteotomies and distraction osteogenesis on speech and velopharyngeal status: a critical review. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *43*, 477-487.

Chapman, K., & Willadsen, E. (2011) The development of speech in children with cleft palate. I S. Howard & A. Lohmander (red:er.), *Cleft Palate Speech – assessment and intervention* (ss. 23-40). Sussex, UK: Wiley-Blackwell.

Chen, M., Shkoukani, M. A., & Vong, A. (2013). Cleft lip – a comprehensive review. *Frontiers in Pediatrics*, *1*, 1-10.

Cheung, L. K., & Chua, H. D. P. (2006). A meta-analysis of cleft maxillary osteotomy and distraction osteogenesis. *International Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, *35*, 14-24.

Dalston, R. M., Marsh, J. L., Vig, K. W., Witzel, M. A., & Bumsted, R. M. (1988). Minimal standards for reporting the results of surgery on patients with cleft lip, cleft palate, or both: a proposal. *Cleft Palate Journal*, *25*.

Daniloff, R. G., Wilcox, K., & Stephens, I. M. (1980). An acoustic-articulatory description of children's defective /s/ productions. *Journal of Communication Disorders*, *13*, 347-363.

DeLuke, D. M., Marchand, A., Robles, E. C., & Fox, P. (1997). Facial growth and the need for orthognathic surgery after cleft palate repair: literature review and report of 28 cases. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, *55*, 694-697.

- Derijcke, A., Kuijpers-Jagtman, A. M., Lekkas, C., Hardjowasito, W., & Latief, B. (1993). Dental arch dimensions in unoperated adult cleft-palate patients: an analysis of 37 cases. *Journal of Craniofacial Genetics and Developmental Biology*, *14*, 69-74.
- Dorf, D. S., & Curtin, J. W. (1982). Early cleft palate repair and speech outcome. *Plastic and Reconstructive Surgery*, *70*, 74-79.
- Drommer, R. B. (1986). The history of the "Le Fort I osteotomy. *Journal of Maxillofacial Surgery*, *14*, 119-122.
- Elvin, E., & Seveborg, U. (2009). *Talresultat hos 16-åringar födda med unilateral läpp-, käk- och gomspalt samt jämförelse mellan erfarna och otränade lyssnares bedömningar*. Opublicerat examensarbete i logopedi, Göteborgs Universitet: Institutionen för neurovetenskap och fysiologi, Göteborg.
- Figueroa, A. A., & Polley, J. W. (2007). Management of the severe cleft and syndromic midface hypoplasia. *Orthodontics & Craniofacial Research*, *10*, 167-179.
- Friede, H., Lilja, J., & Lohmander, A. (2012). Long-term, longitudinal follow-up of individuals with UCLP after the Gothenburg primary early veloplasty and delayed hard palate closure protocol: maxillofacial growth outcome. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *49*, 649-656.
- Good, P. M., Mulliken, J. B., & Padwa, B. L. (2007). Frequency of Le Fort I osteotomy after repaired cleft lip and palate or cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *44*, 396-401.
- Graber, T. M. (1950). Changing philosophies in cleft palate management. *Journal of Pediatrics*, *37*, 400-415.
- Guay, A. H., Maxwell, D. L., & Beecher, R. (1978). A radiographic study of tongue posture at rest and during the phonation of /s/ in class III malocclusion. *Angle Orthodontist*, *48*, 10-22.
- Hagberg, C., Larson, O., & Milerad, J. (1997). Incidence of cleft lip and palate and risks of additional malformations. *Cleft Palate- Craniofacial Journal*, *35*, 40-45.
- Hardin-Jones, M. A., & Jones, D. L. (2005). Speech production of preschoolers with cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *42*, 7-13.
- 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. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *45*, 1-17.
- Hutters, B., & Brøndsted, K. (1987). Strategies in cleft palate speech—with special reference to Danish. *Cleft Palate Journal*, *24*, 126-136.

- Iannetti, G., Cascone, P., Saltarel, A., & Ettaro, G. (2004). Le Fort I in cleft patients: 20 years' experience. *Journal of Craniofacial Surgery*, *15*, 662-669.
- IPA, International Phonetic Association: <http://www.langsci.ucl.ac.uk/ipa/>. Extended version: <http://www.langsci.ucl.ac.uk/ipa/extIPAChart2008.pdf>
- Janulewicz, J., Costello, B. J., Buckley, M. J., Ford, M. D., Close, J., & Gassner, R. (2004). The effects of Le Fort I osteotomies on velopharyngeal and speech functions in cleft patients. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, *62*, 308-314.
- Kaplan, E. N. (1981). Cleft palate repair at three months?. *Annals of Plastic Surgery*, *7*, 179.
- Kim, S. K., Kim, J. C., Moon, J. B., & Lee, K. C. (2012). Perceptual speech assessment after maxillary advancement osteotomy in patients with a repaired cleft lip and palate. *Archives of Plastic Surgery*, *39*, 198-202.
- Klintö, K., Svensson, H., Elander, A., & Lohmander, A. (2013). 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*. Published Online: September 11, 2013. Doi: <http://dx.doi.org/10.1597/12-299>
- Kummer, A. W., Strife, J. L., Grau, W. H., Creaghead, N. A., & Lee, L. (1989). The effects of Le Fort I osteotomy with maxillary movement on articulation, resonance, and velopharyngeal function. *Cleft Palate Journal*, *26*, 199-200.
- LaRossa, D. (2000). The state of the art in cleft palate surgery. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *37*, 225-228.
- LeBlanc, E M., Cisneros, G J. (1995). The dynamics of speech and orthodontic management in cleft lip and palate. I R. J. Shprintzen & J. Bardach (red:er.), *Cleft Palate Speech Management: A Multidisciplinary Approach* (ss. 305-326). St. Louis, Missouri: Mosby-Year Book, Inc.
- Lee, A. S., Whitehill, T. L., Ciocca, V., & Samman, N. (2002). Acoustic and perceptual analysis of the sibilant sound /s/ before and after orthognathic surgery. *Journal of Oral and Maxillofacial surgery*, *60*, 364-372.
- Liao, Y. F., Cole, T. J., & Mars, M. (2006). Hard palate repair timing and facial growth in unilateral cleft lip and palate: a longitudinal study. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *43*, 547-556.
- Lindblad, P. (1980). *Svenskans sje- och tje-ljud i ett allmänfonetiskt perspektiv* (Doktorsavhandling, Travaux de l'institute de linguistique de Lund, XVI). Lund: CWK Gleerup.

- Lohmander, A., Borell, E., Henningson, G., Havstam, C., Lundeborg, I., & Persson, C. (2005) Svenskt Artikulations och Nasalitets TEst (SVANTE), Skivarp: Pedagogisk design, [reviderad version 2014] Lund: Studentlitteratur.
- Lohmander, A., Friede, H., & Lilja, J. (2012). Long-term, longitudinal follow-up of individuals with unilateral cleft lip and palate after the Gothenburg primary early veloplasty and delayed hard palate closure protocol: speech outcome. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *49*, 657-671.
- 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*, 64-70.
- Lilja, J., Mars, M., Elander, A., Enocson, L., Hagberg, C., Worrell, E., & Friede, H. (2006). Analysis of dental arch relationships in swedish unilateral cleft lip and palate subjects: 20-year longitudinal consecutive series treated with delayed hard palate closure. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *43*, 606-611.
- Maegawa, J., Sells, R. K., & David, D. J. (1998). Speech changes after maxillary advancement in 40 cleft lip and palate patients. *Journal of Craniofacial Surgery*, *9*, 177-182.
- Mars, M., & Houston, W. J. (1990). A preliminary study of facial growth and morphology in unoperated male unilateral cleft lip and palate subjects over 13 years of age. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *27*, 7-10.
- McCarthy, J. G., Coccaro, P. J., & Schwartz, M. D. (1979). Velopharyngeal function following maxillary advancement. *Plastic and Reconstructive Surgery*, *64*, 180-189.
- Ortiz-Monasterio, F., Alfonso, S. R., Gustavo, B. P., Rodriguez-Hoffman, H., & Vinageras, E. (1966). A study of untreated adult cleft palate patients. *Plastic and Reconstructive Surgery*, *38*, 36-41.
- Pereira, V., Sell, D., & Tuomainen, J. (2013). The impact of maxillary osteotomy on speech outcomes in cleft lip and palate: an evidence-based approach to evaluating the literature. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *50*, 25-39.
- Rosenstein, S., Kernahan, D., Dado, D., Grasseschi, M., & Griffith, B. H. (1991). Orthognathic surgery in cleft patients treated by early bone grafting. *Plastic and Reconstructive Surgery*, *87*, 835-839.
- Ross, R. B. (1987). Treatment variables affecting facial growth in complete unilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate Journal*, *24*, 5-77.
- Ruscello, D. M., Tekieli, M. E., Jakomis, T., Cook, L., & Van Sickels, J. E. (1986). The effects of orthognathic surgery on speech production. *American Journal of Orthodontics*, *89*, 237-241.

- Saltaji, H., Major, M. P., Alfakir, H., Al-Saleh, M. A., & Flores-Mir, C. (2012). Maxillary advancement with conventional orthognathic surgery in patients with cleft lip and palate: is it a stable technique?. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, *70*, 2859-2866.
- Satoh, K., Mitsukawa, N., Tosa, Y., Kadamatsu, K., & Hosaka, Y. (2006). Simultaneous hybrid of maxillary Le Fort I halo distraction and mandibular set-back for patients with severe cleft jaw deformity. *Journal of Craniofacial Surgery*, *17*, 962-969.
- Sell, D. (2005). Issues in perceptual speech analysis in cleft palate and related disorders: a review. *International Journal of Language & Communication Disorders*, *40*, 103-121.
- Smedberg, E., Neovius, E., & Lohmander, A. (2013). Impact of maxillary advancement on speech and velopharyngeal function in patients with cleft lip and palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*. Publicerad online.
- Sopran (hämtat från <http://www.tolvan.com>, 2014-01-17).
- Sperber, G. & Sperber, S. (2013) Embryogenetics of cleft lip and palate. I S. Berkowitz (red.) *Cleft Lip and Palate – diagnosis and management* (ss. 3-33). Berlin: Springer-Verlag.
- Ternström, S. (2000). Soundswell-signal workstation. *Manual Version*, *4*.
- Vallino, L. D. (1990). Speech, velopharyngeal function, and hearing before and after orthognathic surgery. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, *48*, 1274-1281.
- Wakumoto, M., Isaacson, K. G., Friel, S., Suzuki, N., Gibbon, F., Nixon, F. & Michi, K. I. (1996). Preliminary study of articulatory reorganisation of fricative consonants following osteotomy. *Folia Phoniatria et Logopaedica*, *48*, 275-289.
- Whitehill, T. L. (2002). Assessing intelligibility in speakers with cleft palate: a critical review of the literature. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, *39*, 50-58.
- Witzel, M. A., Ross, R. B., & Munro, I. R. (1980). Articulation before and after facial osteotomy. *Journal of Maxillofacial Surgery*, *8*, 195-202.