

University of Groningen

Het foreign accent syndrome

Stoop, K.; Maassen, B.

Published in:
Stem-, spraak- en taalpathologie

IMPORTANT NOTE: You are advised to consult the publisher's version (publisher's PDF) if you wish to cite from it. Please check the document version below.

Document Version
Publisher's PDF, also known as Version of record

Publication date:
2010

[Link to publication in University of Groningen/UMCG research database](#)

Citation for published version (APA):
Stoop, K., & Maassen, B. (2010). Het foreign accent syndrome. *Stem-, spraak- en taalpathologie*, 16(4), 255 - 274.

Copyright

Other than for strictly personal use, it is not permitted to download or to forward/distribute the text or part of it without the consent of the author(s) and/or copyright holder(s), unless the work is under an open content license (like Creative Commons).

The publication may also be distributed here under the terms of Article 25fa of the Dutch Copyright Act, indicated by the "Taverne" license. More information can be found on the University of Groningen website: <https://www.rug.nl/library/open-access/self-archiving-pure/taverne-amendment>.

Take-down policy

If you believe that this document breaches copyright please contact us providing details, and we will remove access to the work immediately and investigate your claim.

Downloaded from the University of Groningen/UMCG research database (Pure): <http://www.rug.nl/research/portal>. For technical reasons the number of authors shown on this cover page is limited to 10 maximum.

Het foreign accent syndrome

Karlijn Stoop¹, Ben Maassen^{2,3}

¹*Master Taal- en Spraakpathologie, Radboud Universiteit Nijmegen;* ²*Medische Psychologie, Radboud Universiteit Nijmegen Medisch Centrum;* ³*Afdeling Neurolinguïstiek & Universitair Medisch Centrum, Rijksuniversiteit Groningen*

Samenvatting

Dit literatuuroverzicht beschrijft klinische en onderzoeksaspecten van een in de taal- en spraakpathologie stiefmoederlijk bedeelde spraakstoornis: het Foreign Accent Syndrome (FAS). FAS wordt gedefinieerd als een neurogene spraakstoornis, gekenmerkt door afwijkingen in intonatie, ritme en klemtoon en afwijkingen in timing, plaats en manier van articulatie, maar met behoud van vloeiendheid en verstaanbaarheid. Er blijkt echter slechts geringe consensus over klinische classificatie en diagnostische kenmerken. Het artikel geeft naast deze klinische discussie een overzicht van onderzoek naar fonetische kenmerken, differentiaal diagnostiek ten opzichte van andere neurogene taal- en spraakstoornissen (afasie, spraakdyspraxie en dysartrie), van theorieën over onderliggende defecten in de psycholinguïstische en –motorische productiemechanismen, en van neurologisch onderzoek naar de oorzaken van FAS. Een diagnostische markeerder dient zich niet aan en een eenduidige interpretatie van de onderliggende defecten blijkt voorsnog niet mogelijk, zodat de positionering van FAS in de taxonomie van taal- en spraakstoornissen nog onduidelijk blijft.

Summary

This article gives a review of the literature on clinical and research aspects of an in speech-language pathology stepmotherly treated speech disorder: the Foreign Accent Syndrome (FAS). FAS is defined as a neurogenic speech disorder, characterized by deviant intonation, rhythm, timing and stress-pattern, as well as deviances in place and manner of articulation, but with preservation of fluency and intelligibility. Among speech-language pathologists there is little consensus with respect to clinical classification and diagnostic characteristics. Next to this clinical discussion, this article gives an overview of research on phonetic characteristics, differential diagnosis in relation to other neurogenic speech disorders (aphasia, apraxia of speech, dysarthria),

of theories on underlying deficits in the psycholinguistic and psychomotoric production mechanisms, and of studies aiming to reveal neurological causes of FAS. No diagnostic marker for FAS is discovered, and an unambiguous interpretation of underlying deficits is not possible at the moment. The conclusion is that the place FAS takes in the taxonomy of speech disorders remains a challenge for future research.

Erkenning

Dit artikel is gebaseerd op een manuscript geschreven als werkstuk in het kader van het onderdeel Verdieping Spraakstoornissen II van de opleiding Taal-Spraak Pathologie aan de Radboud Universiteit Nijmegen.

Inleiding

Het Foreign Accent Syndrome (FAS) werd in 1907 voor het eerst beschreven door Pierre Marie. Hij zag een Franse patiënt met een hemiplegie rechts, die een opvallend Duits (Elzassisch) accent ontwikkelde (Moen, 2000; Van Borsel, Janssens, & Santens, 2005). Andere onderzoekers beweren echter dat Pick in 1919 de eerste was die een FAS-patiënt beschreef (Kurowski, Blumstein & Alexander, 1996; Dankovicová et al., 2001). Het bekendste geval van FAS is een 30-jarige Noorse vrouw die Monrad-Krohn in 1941 zag. Na een trauma in het fronto-temporopariëtale gebied van de linker hemisfeer ontwikkelde zij een Duits klinkend accent. Dit was zeer onaangenaam omdat Noorwegen in die tijd bezet was door de Duitsers (Moen, 2000).

Verskillende onderzoekers (Gurd, Bessell, Bladon & Bamford, 1988; Dankovicová et al., 2001; Laures-Gore, Contado Henson, Weismer & Rambow, 2006) beschrijven FAS als een verworven spraakstoornis waarbij de patiënt de normale fonetische en fonemische contrasten behorend bij de moedertaal niet kan maken. FAS werd eerder ook wel 'pseudo-accent' of 'unlearned foreign accent' genoemd (Blumstein, Alexander, Ryalls, Katz & Dworetzky, 1987; Kurowski et al., 1996; Roth, Fink, Cherney & Hall, 1997). Kenmerkend voor het syndroom is dat het voor de luisteraar lijkt alsof de spraak van een patiënt de fonetische kenmerken heeft van een vreemde taal (Blumstein et al., 1987). FAS-patiënten schenden niet de algemene fonetische regels van taal, maar produceren een aantal fonetische kenmerken die onderscheidend zijn in talen die niet de moedertaal van de spreker zijn (Fridriksson et al., 2005). Mariën et al. (2006) definiëren FAS als een zeldzame motorische spraakstoornis, die resulteert in vervormingen van de articulatie die door sprekers van de moedertaal worden waargenomen als een vreemd accent.

Whitaker (1982) presenteert de volgende vier hoofdsymptomen van FAS:

1. Het accent, in de betekenis van tongval, van de spreker wordt als vreemd herkend, zowel door de patiënt, als door bekenden en door vreemden.

2. Het accent komt niet overeen met (het dialect van) de moedertaal van de patiënt.
3. Het accent heeft een duidelijke relatie met schade aan het centrale zenuwstelsel (in tegenstelling tot bijvoorbeeld een hysterische reactie).
4. De persoonlijke geschiedenis van de patiënt geeft geen aanwijzingen dat deze spreker in aanraking is geweest met een taal of dialect dat sterke gelijkenis vertoont met het vreemde accent.

Er is de laatste jaren veel belangstelling voor dit syndroom in verband met de unieke kenmerken die hierbij tot uiting komen en omdat het een uitdaging biedt voor het begrijpen van de neurologische basis van spraakproductie. Tot nu toe bestaat er weinig consensus onder onderzoekers over FAS. Blumstein & Kurowski (2006) geven aan dat er onenigheid is wat betreft FAS op drie punten. In de eerste plaats is er discussie over de diagnostische kenmerken van FAS en de aard van de onderliggende fonologische of fonetische afwijkingen. In de tweede plaats is het de vraag of FAS een op zichzelf staande stoornis is of dat het deel uitmaakt van een andere taal- of spraakstoornis zoals verbale apraxie, afasie of dysartrie. In de derde plaats is de vraag wat de onderliggende verstoorde spraakmechanismen zijn bij FAS, en in de vierde plaats is er geen consensus over het al dan niet aanwezig zijn van een onderliggende neurologische afwijking en de aard daarvan.

Doel van deze review is de grote diversiteit aan casusbeschrijvingen en onderzoeksresultaten met betrekking tot FAS overzichtelijk in kaart te brengen. De aandacht gaat hierbij uit naar de basis van dit syndroom: het ontstaan van FAS en verklaringen hiervoor, neurologisch mechanismen die ten grondslag liggen aan FAS en spraakkenmerken. Om het beeld van de stoornis overzichtelijk te houden, ligt het accent op FAS als gevolg van een CVA of trauma aan het hoofd en worden andere oorzaken niet behandeld. Er zijn geen beperkingen gemaakt bij het zoeken naar literatuur, omdat er weinig informatie over FAS voorhanden is. Kernvragen bij deze review zijn de vier hierboven genoemde vragen: (1) Welke zijn de diagnostische fonetische en fonologische kenmerken? (2) Maken kenmerken van FAS onderdeel uit van verbale apraxie, afasie of dysartrie? (3) Welke spraakmechanismen zijn gestoord bij FAS? en (4) welke neurologische afwijkingen liggen aan FAS ten grondslag?

2. Diagnostische kenmerken van FAS

Verskillende factoren dragen bij aan de problemen met het bepalen van de diagnostische kenmerken van FAS. Een daarvan is dat voor de analyse van individuele gevallen verschillende benaderingen zijn gebruikt: er zijn studies gedaan met behulp van beschrijvende oordelen van luisteraars, studies waarbij fonetische transcripties zijn geanalyseerd en studies die de akoestische kenmerken van het spraakpatroon van een patiënt instrumenteel hebben geanalyseerd. Het gebruikte spraakmateriaal varieert sterk, wat

directe onderlinge vergelijking bemoeilijkt. Ook het doel van de studies wisselt: sommige onderzoekers hebben geprobeerd te bepalen of de kenmerken van de spraak van een patiënt overeenkwamen met een bepaalde vreemde taal, anderen hebben deze kenmerken vergeleken met de moedertaal van de patiënt. Bovendien varieert het aantal verschillende moedertalen van de onderzochte patiënten, zodat moeilijk te bepalen is of de verschillen tussen de studies veroorzaakt worden door de verstoring van verschillende mechanismen bij patiënten of door de verschillende fonetisch-fonologische structuren van de onderzochte talen (Blumstein & Kurowski, 2006). Laures-Gore et al. (2006) geven aan dat het definiëren van FAS bemoeilijkt wordt door de heterogeniteit van de pathofysiologie en van de spraakkenmerken die gevonden worden bij FAS-patiënten.

Een van de hoofdkenmerken van FAS is het verschijnen van een nieuw spraakpatroon dat niet kan worden toegeschreven aan een eerder geleerd accent of aan een bestaand(e) taal of dialect (Ryalls & Whiteside, 2006). Wanneer het vreemde accent een deel van de spreek-/luisteromgeving van de patiënt was voorafgaand aan het CVA, is niet duidelijk of dit gezien kan worden als voorbeeld van FAS. Daarom is het van belang om patiënten die eerder langere tijd aan een tweede taal of dialect zijn blootgesteld, uit te sluiten van onderzoek wanneer het ogenschijnlijk vreemde accent overeenkomt met deze eerdere taal (Blumstein & Kurowski, 2006).

Diagnostiek

Gurd & Coleman (2006) bespreken in hun overzichtsartikel enkele procedures die van toepassing zijn bij de diagnosticering van FAS:

- klinisch onderzoek naar de spraakstoornis van de FAS-patiënt kan gebruik maken van standaardtests voor dysartrie, afasie en verbale apraxie. Hiermee kunnen specifieke cognitieve gebreken gevonden worden (Gurd & Coleman, 2006);
- het gebruik van taken waarbij niet-bestaande woorden moeten worden herhaald, is van belang voor het testen van snelle auditief-fonetische omzetting, benodigd voor de productie van representaties die niet zijn opgeslagen (Varley, Whiteside, Hammill & Cooper, 2006);
- Varley et al. (2006) onderstrepen het belang van onderzoek naar het woordlengte-effect. Dit is nodig om postlexicale outputbuffers van de spraak aan te spreken: het samenvoegen van spraak gebeurt op een seriële manier (segment voor segment). Er is dus een tijdelijke buffer nodig om representaties van de spraak op te slaan totdat het proces voltooid is;
- Gurd & Coleman (2006) geven aan dat onderzoek naar de beweging van lippen en tong kan bepalen of de patiënt motorische problemen met de articulatie heeft. Dit is een belangrijk aspect bij een eerste onderzoek en wordt vaak vergeten;
- Blumstein & Kurowski (2006) verduidelijken het belang van het grondig bepalen van de geschiedenis van de patiënt: aan welke accenten is de patiënt eerder

- blootgesteld? Wanneer een patiënt een eerder geleerd accent laat zien, is dit een exclusiecriteria voor FAS;
- met signaalanalyse software kan een analyse van de spraak worden gemaakt: met behulp van deze software kunnen akoestisch-fonetische analyses worden uitgevoerd om specifieke aspecten van de spraakstoornis te verhelderen (Gurd & Coleman, 2006);
 - het vergelijken van de spraak van een FAS-patiënt met een controlegroep die gematcht is op leeftijd, geslacht en dialect en met opnames van de patiënt zelf voorafgaand aan het CVA, vermindert de subjectiviteit van het onderzoek. Het hardop lezen van een tekst is hierbij het meest geschikt, omdat dit preciezer hertest kan worden (Gurd & Coleman, 2006);
 - om de ritmische aspecten van de spraak te onderzoeken, kan de tijd tussen syllaben gemeten worden. Miller, Lowit & O’Sullivan (2006) maken gebruik van de Pair-wise Variability Index (PVI), die de grootte van het verschil tussen volle en gereduceerde klinkers bekijkt (hoe kleiner het verschil tussen de klinkerduren, hoe lager de PVI). Deze index is gevoelig voor verschillen tussen talen met syllabe-isochronie en talen met klemtoonischronie;
 - hoewel beeldvormende technieken (CT-scan, MRI, fMRI) bijdragen aan het inzicht in neurologische oorzaken, bieden deze nog onvoldoende differentiatie ten opzichte van andere taal- en spraakstoornissen (Gurd & Coleman, 2006).

Variaties in de normale spraakproductie

In de normale spraakproductie bestaat grote variatie in de manier waarop de verschillende spraaksegmenten worden gearticuleerd. Dit wordt bepaald door de emotionele toestand, linguïstische en sociale context, leeftijd, regionaal accent en individuele verschillen. Deze variaties hebben geen consistent effect op de spraakverstaanbaarheid, maar dragen wel bij aan de linguïstische en pragmatische betekenis van de spraak en verschaffen informatie over de identiteit en achtergrond van de spreker.

Daarnaast bestaan er verschillen in de suprasegmentele kenmerken van de spraak. Deze verschillen ontstaan door veranderingen in de intonatie. Afwijkingen in prosodie kunnen worden geassocieerd met verschillen in emotionele staat (bijvoorbeeld woede, verdriet etc.). Intonatie heeft tevens een linguïstisch doel: het leggen van lexicale en empathische nadruk en het aangeven van pragmatische functies. Zowel de articulatie van spraaksegmenten als de intonatie varieert per regionaal accent en per taal. De kenmerken van FAS vertonen grote gelijkenis met de fonetische en fonologische kenmerken die het onderscheid aangeven tussen talen en dialecten van een taal (Scott, Clegg, Rudge & Burgess, 2006).

Spraakkenmerken van FAS

De naam “Foreign Accent Syndrome” is eigenlijk ongelukkig gekozen omdat uit verschillende studies blijkt dat de kenmerken van het syndroom niet de fonetisch-fonologische

wijzigingen betreffen die overeenkomen met een bepaalde vreemde taal of een dialect. Daar komt bij dat de oordelen, gebaseerd op de waarneming van eenzelfde patiënt, van zowel leken als fonetici opvallend inconsistent zijn. Luisteraars komen vaak niet overeen in het soort accent dat ze aan iemand met FAS toekennen. Er worden verschillende talen gekoppeld aan het accent dat een patiënt heeft (Moen, 2000). Ingram, McCormack & Kennedy (1992) rapporteren dat aan hun Engelstalige Australische patiënt, een Aziatisch, Zweeds of Duits accent werd toegekend. Moen (2000) beschrijft een Engelstalige patiënt die zowel Italiaans, Pools als Tsjechisch zou klinken. De oordelen van luisteraars over de spraakpatronen variëren vaak tussen de verschillende taalfamilies, die verschillen in fonetische en fonologische systemen. Luisteraars schrijven een accent meestal toe aan een taal die voor hen vreemd is, ongeacht of de luisteraar ervaring heeft met verschillende talen (Blumstein & Kurowski, 2006).

Verschillende aspecten dragen bij aan de waarneming van een vreemd accent, waaronder afwijkingen in klemtoon, ritme en intonatie en veranderingen in de productie van consonanten en klinkers en syllabestructuur (Moen, 2000; Van Borsel et al., 2005).

Fridriksson et al. (2005) en Miller et al. (2006) geven aan om een vreemd accent waar te nemen, de kenmerken die daarvoor zorgen niet constant of steeds in dezelfde vorm aanwezig hoeven te zijn. Bovendien dragen niet alle kenmerken die worden waargenomen als niet behorende tot de moedertaal, in gelijke mate bij aan de indruk van een vreemd accent. Een opvallend kenmerk voor de ene luisteraar hoeft dit niet voor een andere luisteraar te zijn.

Meerdere onderzoekers concluderen dat FAS niet de verwerving van een bepaald vreemd accent betreft maar een algemeen vreemd accent (Avila, González, Parcet & Belloch, 2004); er blijken veel overeenkomsten in de beschreven kenmerken van de spraak van deze patiënten (Blumstein et al., 1987).

FAS wordt gekenmerkt door stoornissen in segmentatie en in de prosodie die resulteren in de perceptie van een vreemd accent (Blumstein et al., 1987; Moen, 2000; Fridriksson et al., 2005). Uit analyses van de spraak van FAS-patiënten zijn overeenkomstige kenmerken gevonden die onderverdeeld kunnen worden in veranderingen in de productie van klinkers, consonanten en suprasegmentele kenmerken (Moen, 2000). De volgende kenmerken worden gerapporteerd bij FAS:

- afwijkingen in klemtoon, ritme en intonatie (zowel op woord- als zinsniveau);
- afwijkingen in de timing van de articulatie;
- veranderingen in de plaats of manier van articulatie;
- veranderingen in het stemhebbend maken van consonanten;
- veranderingen in de articulatie van klinkers;
- veranderingen in structuur van de syllabe (invoegen van een schwa, verlengen van stilte-intervallen tussen woorden, blokkeren op initiële consonanten en reductie van syllaben zonder klemtoon);
- slechte overgangen tussen woordgrenzen.

Deze fouten in de articulatie en de prosodie zijn sporadisch en niet consistent (Blumstein et al., 1987; Moen, 2000).

Veranderingen in de klankproductie

Veranderingen in de productie van klinkers

Afwijkingen in de productie van klinkers betreffen vooral veranderingen in de lengte en de spanning (Blumstein et al., 1987; Kurowski et al., 1996; Moen, 2000).

Miller et al. (2006) vinden in de analyse van de spraak van hun casus EJC¹ dat de afwijkende productie van klinkers als enige categorie significant gerelateerd was aan het vreemde accent.

Veranderingen in de productie van consonanten

Veranderingen in de plaats van articulatie lijken niet universeel bij FAS, veranderingen in de manier van articulatie wel. Deze kunnen betreffen: het stoppen van fricatieven, plosieven produceren als fricatieven, het vervangen van trijklanken (als /r/) door zeer korte klanken en het vervangen van trijklanken en zeer korte klanken door fricatieven. Daarnaast komt het onjuist stemhebbend maken van stemloze consonanten en andersom (stemhebbend wordt stemloos) voor en extreem vroege steminzet bij stemhebbende stopklanken (Moen, 2000).

Veranderingen in suprasegmentele kenmerken

In bijna alle literatuur wordt een stoornis in de talige prosodie gerapporteerd als kenmerk van het spraakpatroon van FAS-patiënten. Blumstein & Kurowski (2006) melden in hun artikel dat bij 93% van de FAS-patiënten sprake is van een stoornis in de prosodie. Zij beschouwen FAS als een spraakstoornis die in de eerste plaats een stoornis betreft in de linguïstische prosodie. Ze beschrijven deze stoornis als afwijkingen in toonhoogte en in de meer algemene kenmerken van prosodie, waaronder ritme, timing, toonhoogte en intonatie. De stoornis in de prosodie wordt gezien als linguïstisch en niet als een algemene stoornis in de prosodie, omdat FAS-patiënten meestal geen of een minimale stoornis hebben in de productie van affectieve prosodie. Een stoornis in de linguïstische prosodie heeft volgens Blumstein & Kurowski (2006) het meeste effect op:

- de productie van klinkers (duur en spanning);
- klemtoonpatronen van woorden die zowel het algehele spraakritme beïnvloeden als de syllabestructuur en de fonetische kenmerken van klinkers en medeklinkers in de directe omgeving;
- zowel lokale toonhoogtebewegingen als globale intonatiepatronen.

¹ EJC: 60-jarige vrouw, FAS als gevolg van een laesie in de rechterhemisfeer na een bloeding tussen de twee binnenste hersenvliezen (Miller et al., 2006).

Een afwijkend intonatiepatroon lijkt universeel aanwezig bij FAS. Moen (2000) rapporteert de volgende bevindingen:

- verminderd(e) bereik en variabiliteit van de pieken en dalen van de intonatiecontouren;
- een vrij vlakke grondfrequentie met daarentegen grote afwijkingen in toonhoogte op bepaalde (verkeerde) plaatsen;
- het nalaten om woorden die een accent zouden moeten hebben te benadrukken of het leggen van juist teveel accenten;
- verminderde toonhoogtebeweging bij vraagzinnen;
- stijgende toonhoogtebewegingen op plaatsen waar deze zouden moeten dalen;
- het gebruik van syllabe-isochronie in plaats van klemtoonisochronie.

Moen (2000) geeft aan dat deze bevindingen wijzen op een verminderd vermogen bij FAS-patiënten tot controle van stembandrillingen en coördinatie van de articulatie. Zij geeft tevens aan dat bij FAS sprake kan zijn van een afwijkend klemtoonpatroon en veranderingen in ritme.

De variatie in spraakpatronen van de verschillende patiënten kan duiden op verschillende onderliggende mechanismen die betrokken zijn (zie paragraaf (6) Neurologische basis van FAS). Een andere verklaring voor de variatie zou kunnen zijn dat er verschil in ernst van de stoornis bestaat bij de patiënten, zoals bij andere neurologische stoornissen. Er is dan één syndroom met een variatie in de ernst ervan. Wanneer dit het geval is, zouden bepaalde kenmerken van het spraakpatroon zich in alle gevallen voor moeten doen, terwijl andere kenmerken bij sommige gevallen wel voorkomen en bij andere niet. Eerder werd aangegeven dat bij (bijna) alle FAS-patiënten veranderingen in de timing en het ritme van spreken zijn gevonden, welke de nadruk en kwantiteit van de spraak beïnvloeden. Deze veranderingen vallen op in de productie van segmenten, vooral bij klinkers. Grote veranderingen in intonatie die buiten de verwachte toonhoogtebewegingen vallen (aan het eind van een frase of zin) komen echter niet in alle gevallen voor. Deze grote toonhoogtebewegingen doen zich sporadisch voor maar zijn zo ongewoon en opvallend dat ze wel worden gezien als dominant kenmerk van FAS (Blumstein & Kurowski, 2006).

Wat maakt het vreemde accent vreemd?

Een aantal aspecten zijn genoemd die zouden bijdragen aan de waarneming van een vreemd accent. Monrad-Krohn suggereert in 1947 dat de waarneming van een vreemd accent voornamelijk wordt veroorzaakt door een afwijkende prosodie bij FAS. Kurowski et al. geven in 1996 aan dat FAS-patiënten over het algemeen overeenkomstige fonetische kenmerken laten zien die vooral een afwijkende klinker- en consonantproductie betreffen. Het zijn deze kenmerken die zorgen voor de impressie van een vreemd accent. Dankovicová et al. (2001) menen dat niet alleen een afwijkende prosodie kenmerkend is voor de spraak bij FAS. Zij geven aan dat tevens de

articulatie is aangedaan, waarbij over het algemeen de uitspraak van klinkers meer afwijkt dan die van consonanten. Miller et al. (2006) geven aan dat de spraakkenmerken van casus EJC die perceptueel het sterkst gerelateerd waren aan de oordelen van luisteraars over een vreemd accent, veranderingen waren in klinkers en beklemtoning en het invoegen van klinkers. Deze veranderingen komen akoestisch gezien overeen met duur, toonhoogte, de overgang van syllaben en ritmische verstoringen.

Hoewel de statistieken van de luisteraars als groep deze algemene resultaten suggereren, kan het zijn dat een individuele luisteraar andere factoren beschouwt als bepalend voor het vreemde accent. Wanneer een luisteraar zich een beeld heeft gevormd van de spraak van een bepaalde persoon, blijft deze totale impressie bestaan. Kenmerken die niet met deze impressie overeen komen, worden aan de kant geschoven of opnieuw geïnterpreteerd binnen het algemene beeld.

Wat wordt beschouwd als vreemd is onderhevig aan individuele verschillen. Dit geeft aan dat bij het labelen en de interpretatie van FAS sterk rekening moet worden gehouden met de perceptie en de ervaring van de luisteraars (Miller et al., 2006).

Akoestische analyse van de spraak

Naast onderzoek gebaseerd op waarnemingen zijn er studies die zich richten op de akoestische kenmerken van de spraak van FAS-patiënten. Ook deze akoestische analyses van het spraakpatroon geven aan dat dit geen enkel spoor bevat van het akoestisch-fonetische patroon van een bepaalde taal of een bepaald dialect. Dit kan worden onderzocht door een eigenschap van een taal, bijvoorbeeld 'voice onset time', te vergelijken met die eigenschap in het spraakpatroon van een FAS-patiënt en te bekijken of deze overeenkomen. Uit het onderzoek van Blumstein et al. (1987) blijkt dat hun Engelstalige patiënt met een schijnbaar Frans accent een patroon van steminzet bij stopklanken liet zien dat overeenkwam met het Engels, niet met het Frans. Akoestische analyses leveren weinig bewijs voor de aanwezigheid van kenmerken die bij een toegekend buitenlands accent horen (Blumstein & Kurowski, 2006).

Uitzonderlijke kenmerken bij FAS

Ook wat betreft de spraakkenmerken bij FAS zijn uitzonderingen bekend. Ryalls & Whiteside (2006) beschrijven een Amerikaans-Engelse vrouw (TN) die een klein infarct in de linkerhemisfeer had doorgemaakt. In eerste instantie was sprake van een verlies van de spraak. Binnen twee maanden na het infarct herstelde de spraak maar deze werd gekenmerkt door een Brits-/Australisch-Engels klinkend accent. TN voldeed aan de vier door Whitaker (1982) beschreven hoofdsymptomen van FAS. Haar spraak week gedeeltelijk af van de kenmerken die normaal gesproken bij FAS worden beschreven: de grondfrequentie van de spraak was verhoogd van minder dan 150 Hz naar meer dan 200 Hz. Ryalls & Whiteside (2006) suggereren dat de verhoging van de grondfrequentie veroorzaakt kan zijn door een toegenomen spanning in het gebied van de stembanden en

dat deze spanning de waarneming van een vreemd accent verklaart. Deze verandering rondom de stembanden kan de afwijking in de productie van enkele klinkers verklaren.

FAS en een differentiaaldiagnose

Zoals eerder opgemerkt, is het bepalen van wat FAS precies inhoudt lastig. Hoewel onderzoek naar bestaande gevallen erop duidt dat patiënten met FAS overeenkomstige fonetische kenmerken laten zien, blijkt toch dat het patroon en de mate van deze afwijkende kenmerken per patiënt verschilt. Daarnaast blijkt dat FAS in de meeste gevallen voorkomt in combinatie met andere neurogene (spraak)stoornissen als afasie, dysartrie en verbale apraxie. Aronson (1990) deed een onderzoek naar 25 patiënten met FAS. Hieruit blijkt dat dit syndroom bij 70% van hen samenging met een van de eerder genoemde andere neurogene stoornissen. Coleman & Gurd (2006) vinden in hun onderzoek onder Engelse logopedisten dat bij de 30 gevallen van FAS veelal sprake was van bijkomende spraak- en taalstoornissen: bij 63% van de patiënten was tevens sprake van afasie, bij 26% van verbale apraxie en bij 13% van dysartrie. De symptomen die zich bij FAS voordoen, kunnen bij andere stoornissen worden ingedeeld. Hierdoor wordt FAS door sommige onderzoekers gezien als onderdeel of secundair verschijnsel van een andere (spraak)stoornis (Blumstein & Kurowski, 2006).

Een manier om de spraakafwijkingen die zich specifiek bij FAS voordoen te specificeren, is door het spraakpatroon bij FAS te vergelijken met het spraakpatroon bij andere spraakstoornissen. Het belangrijkste en opvallende verschil hierbij is dat de spraak van FAS-patiënten klinkt als een vreemd accent terwijl de spraak bij andere spraakstoornissen gestoord klinkt. De spraakkenmerken van een FAS-patiënt passen binnen de eigenschappen van een bepaalde taal. De spraakkenmerken van bijvoorbeeld verbale apraxie of dysartrie verstoren de fonetische eigenschappen/kenmerken van alle talen (Gurd et al., 1988; Moen, 2000; Blumstein & Kurowski, 2006).

De verstoorde articulatie van een FAS-patiënt onderscheidt zich van andere articulatiestoornissen doordat deze sporadisch is en doordat de spraak voornamelijk de karakteristieken bevat van bestaande natuurlijke talen. De gebreken die zich bij andere spraakstoornissen voordoen, komen niet voor in natuurlijke talen, in ieder geval niet gegeneraliseerd (Gurd et al., 1988; Moen, 2000). Deze hypothese is bevestigd door akoestische en perceptuele analyse van de gebreken fonetische gebreken bij patiënten (Blumstein & Kurowski, 2006). De diagnose FAS wordt bevestigd door het feit dat deze patiënten fouten maken die door moedertaalsprekers normaal gesproken niet worden gemaakt. Bovendien worden fouten in de spraak door normale moedertaalsprekers waargenomen en verbeterd, FAS-patiënten doen dit sporadisch (Gurd et al., 1988).

FAS versus dysartrie

Goodglass (1993) beschrijft dysartrie als gebreken in de articulatie die veroorzaakt zijn door gestoorde motorische kracht, gestoorde coördinatie of door structurele gebreken

van het articulatorische apparaat. Dysartrische spraak kenmerkt zich vaak door moeilijke articulatie met onduidelijke opeenvolging van klanken, verkeerde pauzes, veelal hypernasaliteit en soms vlakke intonatie (Gurd et al., 1988). Deze gebreken ontstaan als gevolg van stoornissen in de hogere motorische neuronen en veroorzaken motorische zwakte (Scott et al., 2006). Belangrijk om op te merken is dat de gebreken in geval van dysartrie zich onder alle condities voordoen. De gebreken in de spraak die zich bij FAS voordoen zijn niet constant, ze doen zich voor met tussenpozen. Dit feit ondersteunt het onderscheid tussen FAS en dysartrie en geeft tevens aan dat FAS geen onderdeel van dysartrie is. Daarnaast kan dysartrische spraak de fonetische kenmerken van een taal schenden, waardoor deze door een luisteraar wordt waargenomen als pathologisch en niet als vreemd (Blumstein & Kurowski, 2006).

FAS versus afasie

Blumstein & Kurowski (2006) vergelijken FAS met een niet-vloeiende afasie die wordt veroorzaakt door een laesie in de linkerhemisfeer. Beide stoornissen laten afwijkingen zien in de prosodie betreffende de intonatie. Maar terwijl veel FAS-patiënten een intonatiecontour op zinsniveau laten horen dat vreemd klinkt, is de spraak bij patiënten met een afasie van Broca monotoon met een beperkt bereik van de grondfrequentie. Op klankniveau vertonen FAS-patiënten een aantal afwijkende kenmerken in de productie van klinkers, terwijl afasiepatiënten vooral stoornissen vertonen in de productie van consonanten. Ook in dit geval geldt dat de spraak van afasiepatiënten gestoord klinkt (geen enkele taal heeft een monotoon intonatiesysteem) terwijl de spraak van FAS-patiënten vreemd klinkt (een intonatiepatroon op zinsniveau met rijzende toon kan een eigenschap van een taal zijn).

FAS versus verbale apraxie

De spraak bij FAS komt het meest overeen met verbale apraxie (Moen, 2000; Mariën et al., 2006). Daarom wordt gesuggereerd dat FAS een subtype is hiervan (Mariën et al., 2006). Verbale apraxie wordt door Dharmaperwira-Prins (2002) gedefinieerd als een stoornis in het programmeren van de spraakmusculatuur voor de bewuste productie van fonemen en het programmeren van de achtereenvolgende spierbewegingen voor de bewuste productie van woorden. De gebreken bij verbale apraxie ontstaan als gevolg van problemen in de motorische/fonetische uitvoering van de spraakproductie (Scott et al., 2006). De articulatie bij apractische spraak is verstoord als gevolg van herhaling, het weglaten, vervangen en toevoegen van klanken en problemen met de opeenvolging van de spraak (Moen, 2000; Blumstein & Kurowski, 2006). FAS-patiënten laten maar weinig van deze symptomen zien (Gurd et al., 1988). Zij laten vaak vervorming van individuele spraakklanken zien, gecombineerd met een afwijkende prosodie. In tegenstelling tot FAS-patiënten spreken patiënten met een verbale apraxie vaak niet vloeiend (Moen, 2000). Bovendien zijn de gebreken bij patiënten met verbale apraxie vaak zo ernstig dat de spraak bijna onverstaanbaar wordt. Bij FAS-patiënten is dit niet het geval. FAS zou daarom een milde vorm of subtype van verbale

apraxie betreffen (Moen, 2000; Moen, 2006). Varley et al. (2006) stellen op basis van hun eigen onderzoek dat FAS en verbale apraxie een overeenkomstige onderliggende stoornis hebben maar dat ze verschillen in de compensatiemechanismen die gebruikt kunnen worden om de controle van de spraak te beïnvloeden (zie ook Moen, 2000). Fridriksson et al. (2005) rapporteren de volgende oorzaken van FAS: een gestoorde toegang tot verbaalmotorische patronen, een milde vorm van verbale apraxie en een algehele grotere spierspanning in het vocale apparaat.

Onderzoekers zijn nog bezig met het juist definiëren van verbale apraxie en het onderscheiden van deze stoornis van dysartrie en afasie. Eerder werd al opgemerkt dat in geval van dysartrie sprake is van motorische zwakte. Dit moet uitgesloten worden om de diagnose verbale apraxie te kunnen stellen (Scott et al., 2006). Verbale apraxie wordt vooral geassocieerd met afasie van Broca. Verschillende onderzoekers geven aan dat de articulatorische gebreken van beide stoornissen nauwelijks van elkaar kunnen worden onderscheiden (Blumstein & Kurowski, 2006).

Een op zichzelf staand syndroom of onderdeel van een andere stoornis?

FAS wordt traditioneel gezien als een op zichzelf staand syndroom. Echter, onderzoek heeft tot nu toe geen samenhangend systeem van fouten in de spraak kunnen identificeren en de stoornis evenmin duidelijk kunnen onderscheiden van verbale apraxie (Mariën et al., 2006).

Kurowski et al. (1996) concluderen in hun artikel dat FAS mogelijk niet een op zichzelf staand syndroom is omdat er geen consistente set eigenschappen bij het syndroom lijkt te kunnen worden geïdentificeerd, er geen specifieke laesielocatie lijkt te zijn en er geen overeenkomstig onderliggend mechanisme gevonden kan worden dat ten grondslag ligt aan de symptomen. In 2006 concluderen Blumstein & Kurowski echter op basis van verscheidene casestudies dat FAS wel een op zichzelf staand syndroom is dat zich onderscheidt van verbale apraxie, dysartrie en afasie. Zij menen dat FAS primair een stoornis in de linguïstische prosodie betreft. Daarnaast geven ze aan dat FAS ontstaat als gevolg van schade aan het motorisch taal-/spraakstelsel in de dominante hemisfeer. Deze hypothese moet volgens de onderzoekers nog wel verder getest worden.

Miller et al. (2006) beschouwen FAS niet als een op zichzelf staand syndroom: FAS kan ontstaan als gevolg van een uiteenlopende reeks laesielocaties en verstoring (als gevolg van veel voorkomende verworven spraakstoornissen zoals dysartrie en verbale apraxie) van diverse subsystemen die betrokken zijn bij spraak. Zij zien de waarneming van een vreemd accent als bijproduct van de perceptie van de luisteraar.

Toekomstig onderzoek zal dus uit moeten wijzen of FAS een op zichzelf staand syndroom is.

Gestoorde spraakmechanismen bij FAS

Het bepalen van welke onderliggende mechanismen gestoord zijn bij FAS is een uitdaging omdat slechts een aantal single case studies van FAS bekend zijn. Daarnaast

is niet eens bij alle studies een gedetailleerde laesielokalisatie beschikbaar. Volgens Moen (2000) is het bepalen van de verstoorde spraakprocessen van FAS afhankelijk van het theoretische kader dat je gebruikt als basis voor je verklaring. Volgens haar bestaan er op dit moment drie verklaringen die zijn gevormd vanuit verschillende theoretische kaders: fonetische setting, mechanismen voor de controle van het motorische spraakgedrag, en cognitieve verwerking. Deze verklaringen spreken elkaar niet tegen, zij vullen elkaar eerder aan.

Verklaring vanuit de fonetische setting

De fonetische setting betreft de controle van de verschillende onderdelen van het vocale apparaat op basis van specifieke musculaire aanpassingen tijdens de spraak. Sommige segmentele en suprasegmentele afwijkingen van de spraak bij FAS worden veroorzaakt door veranderingen in de fonetische settings van het vocale apparaat. De afwijkende segmenten worden gezien als het resultaat van een verandering in de 'fonetische achtergrond' tijdens het spreken onafhankelijk van de fonologische structuur van de taal. Specifieke fonetische settings karakteriseren zowel de uitspraak van een bepaalde taal als de uitspraak van een bepaald individu. Een voorbeeld is sterkere of zwakkere musculaire spanning van het vocale apparaat die het bereik van de beweging van de tong tijdens de articulatie van individuele klanken kan beïnvloeden. Dit is vooral waarneembaar bij de articulatie van klinkers. Een afwijkende productie van klinkers is kenmerkend voor de spraak van FAS-patiënten. Verandering in het bereik van de tongbeweging kan dus leiden tot een perceptueel afwijkende klinkerproductie bij FAS in vergelijking met de premorbide klinkerproductie. Op dit moment zijn er nog geen gegevens bekend van fysiologisch onderzoek bij FAS-patiënten naar eventueel afwijkende fonetische settings (Moen, 2000).

Verklaring vanuit de mechanismen voor de controle van het motorische spraakgedrag

FAS is geclassificeerd als een apractische conditie. In geval van verbale apraxie heeft de patiënt moeite met de controle van de bewegingen van het vocale apparaat tijdens de spraak. Er is geen sprake van significante zwakte, traagheid of ongecoördineerdheid in reflexen en automatische handelingen. Prosodische veranderingen kunnen voorkomen bij het articulatorische probleem, eventueel als compensatie hiervoor. Zowel een patiënt met verbale apraxie als een FAS-patiënt heeft moeite met de controle en coördinatie van laryngeale en supralaryngeale activiteit en bewegingen. In geval van verbale apraxie verslechtert hierdoor de verstaanbaarheid. Dit is bij FAS niet het geval. FAS zou daarom een milde vorm of subtype van verbale apraxie zijn (Moen, 2000).

Verklaring vanuit de cognitieve verwerking

Whiteside & Varley (1998) bespreken in hun artikelen een cognitief model dat het speciale type verbale apraxie bij FAS verklaart. Zij gaan hierbij uit van de veronderstelling dat verbaalmotorische patronen opgehaald kunnen worden uit een opslag, de directe route, of dat ze elke keer opnieuw berekend worden, de indirecte route.

De directe route betreft de directe toegang tot een mentale opslag van syllaben, de indirecte route betreft de on-line subsyllabische codering.

Whiteside & Varley (1998) veronderstellen dat bij verbale apraxie de directe route is aangedaan, zodat er een defect ontstaat in de directe fonetische codering. Een apractische patiënt kan dit niet compenseren met verhoogde efficiëntie van de indirecte route. Volgens deze onderzoekers zijn er echter patiënten die wel efficiënt kunnen compenseren via de indirecte route. Deze patiënten laten een reductie in vloeiendheid zien en een vermindering van co-articulatie: FAS-patiënten.

Neurologische basis van FAS

FAS is een relatief zeldzame stoornis in vergelijking met andere neurologische stoornissen. Mariën et al. (2006) geven aan dat er slechts 31 patiënten met dit syndroom bekend zijn. Coleman & Gurd (2006) rapporteren naar aanleiding van hun onderzoek onder 100 Engelse logopedisten dat 20% van hen samen 30 gevallen van FAS hadden gezien tijdens gemiddeld 14 werkjaren. De meeste gevallen werden gezien na 1994, met een piek in 2002. Coleman & Gurd (2006) vonden via PubMed (zoekterm "FAS") 19 publicaties van 1985 tot 2004. Het aantal mannen en vrouwen met FAS blijkt bijna gelijk (de gerapporteerd verhouding is 1:1.17). De aanvangsleeftijd van het syndroom ligt bij mannen lager dan bij vrouwen.

FAS is een spraakstoornis met een neurogene basis (Blumstein & Kurowski, 2006; Coleman & Gurd, 2006; Varley et al., 2006). De veranderingen in de spraak van de patiënt zijn plotseling en subtiel. Er zijn verschillende oorzaken voor het ontstaan van FAS gesuggereerd. Coleman & Gurd (2006) beweren dat FAS door verschillende neurologische aandoeningen kan ontstaan, waaronder een CVA of trauma aan het hoofd.

De schade aan de hersenen die FAS tot gevolg heeft, bevindt zich in veel gevallen in de linker hemisfeer. Lokalisatie van de laesie bij FAS-patiënten met behulp van een CT-scan of autopsie laat een overlap zien tussen laesielocaties die veelal geassocieerd worden met Broca afasie en mutisme (Gurd et al., 1988).

De neurologische schade die leidt tot FAS, betreft in de meeste gevallen een CVA. Er zijn ook gevallen van FAS bekend als gevolg van een trauma aan het hoofd en multiple sclerose (Bakker, Apeldoorn & Metz, 2004). Luzzi et al. (2008) beschrijven een vrouw waarbij FAS een vroeg symptoom is van een progressieve, degeneratieve ziekte van de hersenen (primaire progressieve niet-vloeiende afasie).

Veel patiënten die FAS ontwikkelen, zijn de eerste tijd na het neurologisch accident sprakeloos (mutisme). FAS ontstaat dan kort nadat de spraak is teruggekeerd. Dit wijst erop dat de stoornis geen compensatie of aanpassing betreft als gevolg van stem- of spraakproblemen maar dat het een directe uiting is van schade aan de bij spraak betrokken onderliggende neurale mechanismen (Kurowski et al., 1996).

De gerapporteerde gevallen van FAS laten een variëteit aan laesielocaties en aan de grootte hiervan zien (Varley et al., 2006). Genoemd worden: precentrale winding,

premotorische middelste frontale winding, subcorticale pre- en postrolandische windingen links en pariëtaalkwab links (Roth et al., 1997), focale schade aan de basale ganglia en/of omringend gebied, corticale schade aan de premotorische en motorische delen in de linkerhemisfeer en gelokaliseerde afname van de bloedtoevoer in de linker mediale frontaalkwab (Fridriksson et al., 2005) en links fronto-pariëtaal (Mariën et al., 2006).

Schiff, Alexander, Naeser & Galaburda (1983) suggereren de volgende locaties van de onderliggende laesie. Laesies bij de linker precentrale winding (primaire motorische cortex) kunnen de motorische controle van de spraakmusculatuur verstoren. Laesies bij de pars opercularis (inferieure frontale winding van de associatiecortex) kunnen de organisatie van bewegingen die nodig zijn voor de spraakproductie verstoren.

Gurd et al. (1988) bespreken casus M.J. die de theorie van Schiff et al. (1983) bevestigt: schade aan het corticaal-subcorticale circuit (betrokken bij spraakproductie) kan leiden tot FAS. M.J. bleek een laesie in de linker basale ganglia te hebben. De spraak van M.J. werd gekenmerkt door een vreemd klinkend accent, niet door één vreemd accent specifiek. Uit een fonetische analyse 3 en 8 weken post-onset bleek een niet consequente, verkeerde productie van vooral consonanten en enkele klinkers, een laag spreektempo veroorzaakt door lange pauzes en een toonhoogtecontour en ritme binnen de normale range.

Het is in dit geval niet duidelijk welke rol kan worden toegeschreven aan de verschillende delen van het corticaal-subcorticale circuit en welke specifieke pathologische mechanismen kunnen worden geassocieerd met welke functionele gebreken in de spraakproductie bij FAS.

Volgens Gurd et al. (1988) kunnen vergelijkbare spraakafwijkingen ook veroorzaakt worden door verstoring van de banen in de onderliggende witte massa die de linker inferieure frontale winding verbindt met de aangrenzende inferieure motorische cortex, verstoring van de verbinding tussen de cortex en de diepe subcorticale grijze massa, of door een diepe laesie in de witte massa (bij het anterieure gedeelte van de capsula interna) die de banen verstoort van de cortex naar het striatum, de thalamus, de pons en het cerebellum.

Fridriksson et al. (2005) beschrijven casus SB. Zij suggereren dat deze FAS-patiënt een compensatiereactie laat zien op een gestoorde regulatie van de motorische spraak. Na een CVA in de linkerhemisfeer werd bij deze patiënt FAS gediagnosticeerd. Op het moment dat het onderzoek plaatsvond, bestond het accent van SB uit onjuist gebruik van de klank /r/ (insertie en deletie) en een soms afwijkende productie van klinkers. Er was geen sprake van verbale apraxie of dysartrie en SB vertoonde tevens geen afwijkingen in geheugen of taal (dus geen afasie) aan. Uit de MRI-scan bleek een kleine laesie in het linker putamen. Zijn corticale taalgebieden leken intact.

Deze casus komt overeen met de bewering van Blumstein & Kurowski (2006) dat in geval van FAS een netwerk van motorische spraak is aangedaan. De toegenomen activatie in het linker motorisch gebied kan een compensatie zijn voor de schade aan het putamen. Het putamen speelt waarschijnlijk een rol in de motorische controle

(eventueel specifiek bij spraak): een laesie in het putamen kan de controle verstoren van de motorische spraakbewegingen. Fridriksson et al. (2005) concluderen dat FAS kan ontstaan als gevolg van een kleine laesie die selectief de motorische controle van de spraak verstoort. De hersenen kunnen dit compenseren door andere delen van het corticale motorische spraaknetwerk extra te activeren.

Overeenkomsten in laesielocaties bij FAS

FAS lijkt dus te kunnen ontstaan door schade aan zowel corticale als subcorticale structuren. Deze variatie indiceert dat verstoring van verschillende neurologische mechanismen bijdraagt aan het syndroom (Laures-Gore et al., 2006). Wanneer ervan uit wordt gegaan dat een focale laesie eerder een netwerk verstoort dan een geïsoleerd gebied met een bepaalde functie, lijkt het erop dat FAS-patiënten een neuropathologisch patroon laten zien waarin bepaalde overeenkomsten zitten (Blumstein & Kurowski, 2006).

Bijna alle bekende gevallen van FAS zijn ontstaan uit een anterieure laesie in de linkerhemisfeer. De meeste patiënten hebben kleinere laesies in het gebied van Broca, het onderliggend aangrenzend gebied en/of de middelste frontale winding. Er zijn tevens gevallen bekend waarbij de laesie zich voordoet in subcorticaal gebied (basale ganglia) (Blumstein & Kurowski, 2006). Verschillende onderzoekers (Kurowski et al., 1996; Dankovicová et al., 2001; Mariën et al., 2006) beweren dat de laesie die FAS veroorzaakt zich voordoet in de primair motorische cortex, de frontaal motorische associatiecortex of het striatum van de hemisfeer die dominant is voor taal. Deze bevindingen suggereren dat FAS ontstaat door schade aan het motorische systeem van de spraakoutput, waarbij de primair motorische cortex en cortico-corticale verbindingen of cortico-subcorticale projecties zijn aangedaan (Blumstein & Kurowski, 2006).

Bewijs tegen linkerhemisfeerpathologie bij FAS

Verschillende gevallen doen echter de linkerhemisfeerpathologie van het spraakmotorische systeem in twijfel trekken: er is een aantal patiënten met FAS bekend waarbij de laesie zich in de rechterhemisfeer bevindt (Blumstein & Kurowski, 2006).

Dankovicová et al. (2001) beschrijven bijvoorbeeld een casus waarbij sterk sprake lijkt te zijn van FAS. Hun patiënt ontwikkelde na een bloeding in de rechterhemisfeer een milde dysartrie en een Schots klinkend accent. De affectieve prosodie (normaal geassocieerd met de rechterhemisfeer) was niet aangedaan. Wanneer de vrouw probeerde om het accent te veranderen, werd haar spraak onduidelijk en minder vloeiend. Omdat de onderzoekers beschikten over een opname van de spraak van de vrouw voorafgaand aan het CVA, konden ze deze vergelijken met haar spraak hierna. Hieruit bleek een afwijkende productie van enkele klinkers en consonanten: klinkers werden over het geheel meer frontaal gemaakt en verkort in tweelettergrepige woorden, consonanten werden eerder juist verlengd. De gehele timing tussen klinkers en consonanten was aangedaan.

De lokalisatie van FAS in de rechterhemisfeer kan verklaard worden door een afwijkende dominantie bij patiënten. Deze patiënten zouden een laesie in de

rechterhemisfeer hebben die FAS veroorzaakt, in dezelfde gebieden als patiënten met een laesie in de linkerhemisfeer. Dit blijkt inderdaad het geval te zijn bij de verschillende cases waarbij de laesie zich voordoet in de rechterhemisfeer (Blumstein & Kurowski, 2006).

De rol van het cerebellum

FAS komt klinisch en anatomisch het meest overeen met verbale apraxie. Eerder werd deze vorm van apraxie ook wel “atactische afasie” of “corticale dysartrie” genoemd. Dit suggereert dat verbale apraxie overeenkomsten heeft met atactische dysartrie. De motorische symptomen van de spraak bij cerebellaire pathologie (langzaam, monotoon, staccato, aftastend en inconsistente verkeerde articulatie) komen hier inderdaad mee overeen. Daarnaast blijkt uit experimenten dat de ‘voice onset time’ en de productie en discriminatie van de lengte van klinkers is aangedaan bij zowel FAS, verbale apraxie en verbale ataxie. Mariën et al. (2006) beweren dat dit verstoorde proces van planning en coördinatie van de articulatie erop wijst dat FAS, verbale apraxie en atactische dysartrie enkele pathofysiologische mechanismen delen. Zij geven aan dat het cerebellum een rol speelt bij verschillende spraak- en taalprocessen en dat er nauwe verbindingen zijn tussen het rechter cerebellum en de motorische spraakcentra van de voor taal dominante hemisfeer. De onderzoekers veronderstellen dat het rechtercerebellum betrokken is bij stoornissen in de motorische planning van de spraak.

Mariën et al. (2006) bespreken hierop een patiënt met een corticale laesie in het linker fronto-pariëtale gebied. Bij de vrouw werd de diagnose FAS gesteld. Afasie en dysartrie werden uitgesloten. Drie jaar na het CVA waren de FAS-symptomen geheel verdwenen en had de vrouw slechts nog milde symptomen van verbale apraxie. Uit beeldvormend onderzoek bij deze casus bleek inderdaad een parallel tussen afname van de onvoldoende doorstroming in het rechtercerebellum en het klinische herstel van de FAS-symptomen drie jaar na het CVA.

Dit geeft volgens Mariën et al. (2006) aan dat FAS en verbale apraxie kunnen ontstaan als gevolg van een onderbreking van de functionele verbinding tussen de bovenste en onderste motorische spraakcentra. De resultaten ondersteunen de visie dat het cerebellum betrokken is bij stoornissen in de motorische planning van de spraak.

De hier samengevatte evidentie suggereert dat FAS een neurologische stoornis is. FAS hoeft niet per definitie een linkerhemisfeerprobleem te betreffen: de lateralisatie van de stoornis per individu kan geassocieerd worden met de voor taal en spraak dominante hemisfeer. Een individu met een rechterhemisfeerdominantie zal in geval van FAS een laesie rechts zal laten zien.

De laatste jaren is gebleken uit beeldvormend onderzoek dat taal- en spraakfuncties waarschijnlijk niet op een plaats gelokaliseerd zijn, maar dat deze functies gefaciliteerd worden door een netwerk in de hersenen (Gazzaniga, Ivry & Mangun, 2002). Het feit dat taal en spraak gefaciliteerd worden door een netwerk kan verklaren waarom FAS veroorzaakt kan worden door verschillende laesielocaties. Welke afwijkingen zich in de spraak voordoen, wordt dan bepaald door het gedeelte van

het netwerk in de hersenen dat verstoord is. Verschillen tussen patiënten worden veroorzaakt door variatie in ernst en plaats van de verstoring. Dit is ook terug te zien bij andere neurologische taal- en spraakstoornissen: verschillende laesielocaties veroorzaken bijvoorbeeld verschillende afatische symptomen.

Conclusie

Doel van deze review was het overzichtelijk in kaart brengen van de grote diversiteit aan casusbeschrijvingen en onderzoeksresultaten met betrekking tot FAS.

De belangrijkste conclusies van deze review zijn dat er (a) te weinig informatie over FAS voorhanden is om tot een duidelijke beschrijving van het syndroom te komen en (b) op dit moment geen consensus is met betrekking tot dit syndroom.

FAS wordt over het algemeen gezien als een neurogene, motorische spraakstoornis die resulteert in afwijkingen in de spraak die door luisteraars worden waargenomen als een vreemd accent. Het is een relatief zeldzame stoornis. Verondersteld wordt dat FAS wordt veroorzaakt door een verstoring van een netwerk van hersenstructuren die betrokken zijn bij de motorische planning van de spraak. De veranderingen in de spraak die FAS veroorzaken, betreffen afwijkingen in de productie van klinkers en consonanten en afwijkingen in suprasegmentele kenmerken.

De vraag welke hersenstructuren zijn aangedaan bij FAS en of dit specifiek linkerhemisfeerpathologie betreft, blijft bestaan. Evenals de vraag welke specifieke spraakkenmerken kunnen worden toegeschreven aan de stoornis en of het een op zichzelf staand syndroom is.

FAS is een stoornis waar relatief nog maar kort belangstelling voor is en waar nog te weinig (vergelijkend) onderzoek naar is gedaan. Voor een goede beschrijving van FAS is nader onderzoek nodig dat uitgaat van eenzelfde benadering, om tot vergelijkbare resultaten en een eenduidig antwoord te komen. Daarnaast zijn de ontwikkelingen in beeldvormend onderzoek van belang. Meer mogelijkheden op het gebied van onderzoek naar hersenstructuren zal ervoor zorgen dat de onderliggende neurale mechanismen die FAS veroorzaken, opgehelderd worden.

Literatuurreferenties

- Aronson, A. E. (1990). *Clinical voice disorder: an interdisciplinary approach*. New York: Thieme.
- Avila, C., González, J., Parcet, M., & Belloch, V. (2004). Selective alteration of native, but not second language articulation in a patient with foreign accent syndrome. *Clinical Neuroscience and Neuropathology* 15 (14): 2267-2270.
- Bakker, J. I., Apeldoorn, S., & Metz, L. M. (2004). Foreign accent syndrome in a patient with multiple sclerosis. *The Canadian Journal of Neurological Sciences*, 31, 271-272.

- Blumstein, S. E., Alexander, M. P., Ryalls, J. H., Katz, W., & Dworetzky, B. (1987). On the nature of the foreign accent syndrome: a case study. *Brain and language*, *31*, 215-244.
- Blumstein, S. E. & Kurowski, K. (2006). The foreign accent syndrome: a perspective. *Journal of Neurolinguistics*, *19*, 346-355.
- Coleman, J. & Gurd, J. (2006). Introduction to the theme issue on foreign accent syndrome (Guest editorial). *Journal of Neurolinguistics*, *19*, 341-345.
- Dankovicová, J., Gurd, J. M., Marshall, J. C., MacMahon, M. K. C., Stuart-Smiths, J., Coleman, J. S., & Slater, A. (2001). Aspects of non-native pronunciation in a case of altered accent following stroke (foreign accent syndrome). *Clinical Linguistics & Phonetics*, *15* (3): 195-218.
- Dharmaperwira-Prins, R. (2002). *Dysarthrie en verbale apraxie*. Lisse: Swets & Zeitlinger B. V.
- Fridriksson, J., Ryalls, J., Rorden, C., Morgan, P. S., George, M. S., & Baylis, G. C. (2005). Brain damage and cortical compensation in foreign accent syndrome. *Neurocase*, *11*, 319-324.
- Gazzaniga, M. S., Ivry, R. B., & Mangun, G.R. (2002). *Cognitive neuroscience: the biology of the mind*. New York: W.W. Norton & Company, Inc.
- Goodglass, H. (1993). *Understanding aphasia*. New York: Academic Press.
- Gurd, J. M., Bessell, N. J., Bladon, R. A. W., & Bamford, J.M. (1988). A case of foreign accent syndrome, with follow-up clinical, neuropsychological and phonetic descriptions. *Neuropsychologia*, *26* (2): 237-251.
- Gurd, J. M. & Coleman, J. S. (2006). Foreign accent syndrome: best practice, theoretical issues and outstanding questions. *Journal of Neurolinguistics*, *19*, 424-429.
- Ingram, J. C. L., McCormack, P. F., & Kennedy, M. (1992). Phonetic analysis of a case of foreign accent syndrome. *Journal of Phonetics*, *20*, 457-474.
- Kurowski, K. M., Blumstein, S. E., & Alexander, M. (1996). The foreign accent syndrome: a reconsideration. *Brain and Language*, *54*, 1-25.
- Laures-Gore, J., Contado Henson, J., Weismer, G., & Rambow, M. (2006). Two cases of foreign accent syndrome: an acousticphonetic description. *Clinical Linguistics & Phonetics*, *20* (10): 781-790.
- Luzzi, S., Viticchi, G., Piccirilli, M., Fabi, K., Pesallaccia, M., Bartolini, M., Provinciali, L., & Snowden, J.S. (2008). Foreign accent syndrome as the initial sign of primary progressive aphasia. *Journal of Neurology, Neurosurgery & Psychiatry*, *79*, 79-81.
- Mariën, P., Verhoeven, J., Engelborghs, S., Rooker, S., Pickut, B. A., & De Deyn, P.P. (2006). A role for the cerebellum in motor speech planning: evidence from foreign accent syndrome. *Clinical Neurology and Neurosurgery*, *108*, 518-522.
- Miller, N., Lowit, A., & O'Sullivan, H. (2006). What makes acquired foreign accent syndrome foreign?. *Journal of Neurolinguistics*, *19*, 385-409.
- Moen, I. (2000). Foreign accent syndrome: a review of contemporary explanations. *Aphasiology*, *14* (1): 5-15.
- Moen, I. (2006). Analysis of a case of the foreign accent syndrome in terms of the framework of gestural phonology. *Journal of Neurolinguistics*, *19*, 410-423.
- Roth, E. J., Fink, K., Cherney, L. R., & Hall, K. D. (1997). Reversion to a previously learned foreign accent after stroke. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation*, *78*, 550-552.
- Ryalls, J. & Whiteside, J. (2006). An atypical case of Foreign Accent Syndrome. *Clinical Linguistics & Phonetics* *20* (2/3): 157-162.
- Schiff, H. B., Alexander, M. P., Naeser, M. A., & Galaburda, A. M. (1983). Aphemia: clinical-anatomic correlations. *Archives of Neurology*, *40*, 720-727.

- Scott, S. K., Clegg, F., Rudge, P., & Burgess, P. (2006). Foreign accent syndrome, speech rhythm and the functional neuronatomy of speech production. *Journal of Neurolinguistics*, *19*, 370-384.
- Van Borsel, J., Janssens, L., & Santens, P. (2005). Foreign accent syndrome: An organic disorder?. *Journal of Communication Disorders*, *38*, 421-429.
- Varley, R., Whiteside, S., Hammill, C., & Cooper, K. (2006). Phases in speech encoding and foreign accent syndrome. *Journal of Neurolinguistics*, *19*, 356-369.
- Whitaker, H. (1982). Levels of impairment in disorders of speech. In: *Neuropsychology and Cognition—Volume 1: Proceedings of the NATO Advanced Study Institute on Neuropsychology and Cognition*, (R. Malatesha & L. Hartlage (Eds.)), The Hague, Netherlands: Martinus Nijhoff Publishers.
- Whiteside, S. P. & Varley, R. A. (1998). A reconceptualisation of apraxia of speech: a synthesis of evidence. *Cortex*, *34*, 221-231.