

CANADIAN JOURNAL OF SPEECH-LANGUAGE PATHOLOGY & AUDIOLOGY | CJSPLA

Volume 47, No. 1, 2023

REVUE CANADIENNE D'ORTHOPHONIE ET D'AUDIOLOGIE | RCOA

Volume 47, No. 1, 2023



Speech-Language &
Audiology Canada

Orthophonie et
Audiologie Canada

Communicating care
La communication à coeur

Caractéristiques des troubles de la déglutition et de la parole associés à la dystrophie musculaire oculopharyngée et leurs impacts fonctionnels : une revue systématique
MYRIAM BRETON, KIM GAGNON, AUDREY BEAUMONT, VINCENT MARTEL-SAUVAGEAU

La prise en charge des troubles du marquage grammatical du temps dans l'aphasie :
une revue systématique
CÉLIA ERICSON, EVODIE SCHAFFNER, MARION FOSSARD

Acoustical and Perceptual Voice Characteristics in Adults With Early- and Late-Onset
Auditory Neuropathy Spectrum Disorder
KAVASSERY VENKATESWARAN NISHA, PRATEEK LOKWANI, PRASHANTH PRABHU

Innovation sociale en orthophonie : coconstruction avec le milieu communautaire d'une
formation pour des moniteurs de camps de jour et de loisirs
JESSICA SYLVAIN, ÉLIANE MORISSETTE, SARAH MARTIN-ROY, MARIE GRANDISSON,
FRANCINE JULIEN-GAUTHIER, CHANTAL DESMARAIS

The Development of a Standardized Videofluoroscopic Swallow Study Barium Mixing
Protocol: A Consensus-Based Approach
VERONICA RODRIGUEZ, ELISSA GRECO, JULIE THEURER, GINA MILLS, KATE HUTCHESON,
ROSEMARY MARTINO

CJSLPA EDITORIAL TEAM

EDITORIAL REVIEW BOARD

EDITOR-IN-CHIEF

David H. McFarland, Ph.D.
Université de Montréal

EDITORS

Lisa M. D. Archibald, Ph.D.
The University of Western Ontario

Paola Colozzo, Ph.D., RSLP
University of British Columbia

Véronique Delvaux, Ph.D.
Université de Mons

Chantal Desmarais, Ph.D.
Université Laval

Victoria Duda, Ph.D.
Université de Montréal

Amanda Hampton Wray, Ph.D., CCC-SLP
University of Pittsburgh

Mathieu Hotton, Ph.D.
Université Laval

Jennifer Kent-Walsh, Ph.D., CCC-SLP, S-LP(C)
University of Central Florida

Josée Lagacé, Ph.D.
Université d'Ottawa

Karine Marcotte, Ph.D.
Université de Montréal

Bonnie Martin-Harris, Ph.D., CCC-SLP, BCS-S
Northwestern University

Stefano Rezzonico, Ph.D.
Université de Montréal

Vincent Martel-Sauvageau, Ph.D.
Université Laval

Natacha Trudeau, Ph.D.
Université de Montréal

Emily Zimmerman, Ph.D., CCC-SLP
Northeastern University

Lorraine Baqué Millet, Ph.D.

François Bergeron, Ph.D.

Simona Maria Brambati, Ph.D.

Monique Charest, Ph.D.

Barbara Jane Cunningham, Ph.D.

Cécile Fougerson, Ph.D.

Philippe Fournier, Ph.D., FAAA

Hillary Ganek, Ph.D., CCC-SLP, LSLC Cert. AVT

Soha N. Garadat, Ph.D.

Kendrea L. (Focht) Garand, Ph.D.,

CScD, CCC-SLP, BCS-S, CBIS

Alain Ghio, Ph.D.

Bernard Grela, Ph.D.

Celia Harding, Ph.D., FRCSLT

Bernard Harmegnies, Ph.D.

Denyse Hayward, Ph.D.

Ellen Hickey, Ph.D.

Lisa N. Kelchner, Ph.D., CCC/SLP, BCS-S

Amineh Koravand, Ph.D.

Elaine Kwok, Ph.D.

Maureen A. Lefton-Greif, Ph.D.,

CCC-SLP, BCS-S

Andrea MacLeod, Ph.D.

Maxime Maheu, Ph.D.

Laurence Martin, Ph.D.

Katlyn McGrattan, Ph.D., CCC-SLP

Trelani Milburn-Chapman, Ph.D.

Laura Monetta, Ph.D.

Dominique Morsomme, Ph.D.

Mahchid Namazi, Ph.D.

Flora Nassrallah, Ph.D.

Britt Pados, Ph.D., R.N.

Kathleen Peets, Ed.D.

Michelle Phoenix, Ph.D.

Claire Pillot-Loiseau, Ph.D.

Melissa Polonenko, Ph.D.

Angela Roberts, Ph.D.

Elizabeth Rochon, Ph.D.

Phaedra Royle, Ph.D.

Grant D. Searchfield, Ph.D., MNZAS

Douglas Shiller, Ph.D.

Tijana Simic, Ph.D.

Meg Simione, Ph.D., CCC-SLP

Veronica Smith, Ph.D.

Sigfrid Soli, Ph.D.

Michelle S. Troche, Ph.D., CCC-SLP

Ingrid Verduyck, Ph.D.

Erin Wilson, Ph.D., CCC-SLP

Catherine Wiseman-Hakes, Ph.D., CCC-SLP

Jennifer C. Wong, S-LP(C)

EDITORIAL ASSISTANTS

Karen Lowry, M.Sc.
Simone Poulin, M.P.O.
Chantal Roberge, rév. a.

TRANSLATION

Simone Poulin, M.P.O.
Vincent Roxborough
Victor Loewen, M.A.

LAYOUT AND DESIGN

Yoana Ilcheva

CJSLPA REVIEWERS

Reviewers for this issue included: Carole Anglade, Heather Bonilha, Bernard Brais, Véronique Delvaux, Rebecca Leonard, Christelle Maillart, Marianne Paul, Claire Pillot-Loiseau, Simone Poulin, and Elizabeth Rochon.

VISION AND MISSION OF SPEECH-LANGUAGE AND AUDIOLOGY CANADA

VISION

The unified national voice of speech-language pathology and audiology.

MISSION

Advancing the professions of speech-language pathology and audiology and empowering members and associates to optimize communication, health and education outcomes for all.

INDEXING

CJSLPA is indexed by:

- CINAHL – Cumulative Index to Nursing and Allied Health Literature
- Elsevier Bibliographic Databases (SCOPUS)
- ProQuest – CSA Linguistics and Language Behavior Abstracts (LLBA)
- PsycInfo
- Thomson Gale – Academic Onefile
- EBSCO Publishing Inc. (CINAHL Plus with full text)
- Directory of Open Access Journals (DOAJ)



ISSN 1913-2020

SCOPE AND PURPOSE OF CJSLPA

SCOPE

The Canadian Journal of Speech-Language Pathology and Audiology (CJSLPA) is a peer-reviewed, online journal of clinical practice for audiologists, speech-language pathologists and researchers.

CJSLPA is an open access journal, which means that all articles are available on the internet to all users immediately upon publication. Users are allowed to read, download, copy, distribute, print, search, or link to the full texts of the articles, or use them for any other lawful purpose. CJSLPA does not charge publication or processing fees.

PURPOSE

The purpose of CJSLPA is to disseminate current knowledge pertaining to hearing, balance and vestibular function, feeding/swallowing, speech, language and social communication across the lifespan with direct application to Canadian audiology and/or speech-language pathology.

COPYRIGHT

© 2023 Speech-Language & Audiology Canada

All rights reserved. No part of this document may be reprinted, reproduced, stored in a retrieval system or transcribed in any manner (electronic, mechanical, photocopy or otherwise) without written permission from SAC. To obtain permission, contact pubs@sac-oac.ca. To cite, give appropriate credit by referencing SAC, the document name, publication date, article title, volume number, issue number and page number(s) if applicable.

CJSLPA is published by Speech-Language and Audiology Canada (SAC). Publications Agreement Number: # 40036109.

1000-1 Nicholas St., Ottawa, ON K1N 7B7 | 800.259.8519 | www.cjslpa.ca | www.sac-oac.ca

MEMBRES DE L'ÉQUIPE DE RÉDACTION DE LA RCOA

COMITÉ DE RÉVISION DE LA RÉDACTION

RÉDACTEUR EN CHEF

David H. McFarland, Ph.D.
Université de Montréal

RÉDACTEURS ET RÉDACTRICES

Lisa M. D. Archibald, Ph.D.
The University of Western Ontario

Paola Colozzo, Ph.D., RSLP
University of British Columbia

Véronique Delvaux, Ph.D.
Université de Mons

Chantal Desmarais, Ph.D.
Université Laval

Victoria Duda, Ph.D.
Université de Montréal

Amanda Hampton Wray, Ph.D., CCC-SLP
University of Pittsburgh

Mathieu Hotton, Ph.D.
Université Laval

Jennifer Kent-Walsh, Ph.D., CCC-SLP, S-LP(C)
University of Central Florida

Josée Lagacé, Ph.D.
Université d'Ottawa

Karine Marcotte, Ph.D.
Université de Montréal

Bonnie Martin-Harris, Ph.D., CCC-SLP, BCS-S
Northwestern University

Stefano Rezzonico, Ph.D.
Université de Montréal

Vincent Martel-Sauvageau, Ph.D.
Université Laval

Natacha Trudeau, Ph.D.
Université de Montréal

Emily Zimmerman, Ph.D., CCC-SLP
Northeastern University

Lorraine Baqué Millet, Ph.D.

François Bergeron, Ph.D.

Simona Maria Brambati, Ph.D.

Monique Charest, Ph.D.

Barbara Jane Cunningham, Ph.D.

Cécile Fougerson, Ph.D.

Philippe Fournier, Ph.D., FAAA

Hillary Ganek, Ph.D., CCC-SLP, LSL Cert. AVT

Soha N. Garadat, Ph.D.

Kendrea L. (Focht) Garand, Ph.D.,

CScD, CCC-SLP, BCS-S, CBIS

Alain Ghio, Ph.D.

Bernard Grella, Ph.D.

Celia Harding, Ph.D., FRCSLT

Bernard Harmegnies, Ph.D.

Denyse Hayward, Ph.D.

Ellen Hickey, Ph.D.

Lisa N. Kelchner, Ph.D., CCC/SLP, BCS-S

Amineh Koravand, Ph.D.

Elaine Kwok, Ph.D.

Maureen A. Lefton-Greif, Ph.D.,

CCC-SLP, BCS-S

Andrea MacLeod, Ph.D.

Maxime Maheu, Ph.D.

Laurence Martin, Ph.D.

Katlyn McGrattan, Ph.D., CCC-SLP

Trelani Milburn-Chapman, Ph.D.

Laura Monetta, Ph.D.

Dominique Morsomme, Ph.D.

Mahchid Namazi, Ph.D.

Flora Nassrallah, Ph.D.

Britt Pados, Ph.D., R.N.

Kathleen Peets, Ed.D.

Michelle Phoenix, Ph.D.

Claire Pillot-Loiseau, Ph.D.

Melissa Polonenko, Ph.D.

Angela Roberts, Ph.D.

Elizabeth Rochon, Ph.D.

Phaedra Royle, Ph.D.

Grant D. Searchfield, Ph.D., MNZAS

Douglas Shiller, Ph.D.

Tijana Simic, Ph.D.

Meg Simione, Ph.D., CCC-SLP

Veronica Smith, Ph.D.

Sigfrid Soli, Ph.D.

Michelle S. Troche, Ph.D., CCC-SLP

Ingrid Verduyck, Ph.D.

Erin Wilson, Ph.D., CCC-SLP

Catherine Wiseman-Hakes, Ph.D., CCC-SLP

Jennifer C. Wong, S-LP(C)

ASSISTANTES À LA RÉDACTION

Karen Lowry, M.Sc.

Simone Poulin, M.P.O.

Chantal Roberge, rév. a.

TRADUCTION

Simone Poulin, M.P.O.

Vincent Roxborough

Victor Loewen, M.A.

MISE EN PAGE ET CONCEPTION

Yoana Ilcheva

RÉVISEURS ET RÉVISEURES DE LA RCOA

Les personnes suivantes ont agi à titre de réviseur ou réviseure pour ce numéro : Carole Anglade, Heather Bonilha, Bernard Brais, Véronique Delvaux, Rebecca Leonard, Christelle Maillart, Marianne Paul, Claire Pillot-Loiseau, Simone Poulin et Elizabeth Rochon.

VISION ET MISSION D'ORTHOPHONIE ET AUDIOLOGIE CANADA

VISION

Porte-parole de l'orthophonie et de l'audiologie à l'échelle nationale.

MISSION

Faire progresser les professions de l'orthophonie et de l'audiologie et donner aux membres et associés et associées les moyens d'optimiser les résultats en matière de communication, de santé et d'éducation pour tous et toutes.

INDEXATION

La RCOA est indexée dans :

- CINAHL – Cumulative Index to Nursing and Allied Health Literature
- Elsevier Bibliographic Databases (SCOPUS)
- ProQuest – CSA Linguistics and Language Behavior Abstracts (LLBA)
- PsycInfo
- Thomson Gale – Academic Onefile
- EBSCO Publishing Inc. (CINAHL Plus with full text)
- Directory of Open Access Journals (DOAJ)



ISSN 1913-2020

MISSION ET BUT DE LA RCOA

MISSION

La revue canadienne d'orthophonie et d'audiologie (RCOA) est une revue révisée par les pairs sur la pratique clinique, qui est disponible en ligne et qui est destinée aux audiologistes, orthophonistes et chercheurs et chercheuses.

La RCOA est une revue en accès libre, ce qui signifie que tous les articles sont disponibles sur Internet dès leur publication, et ce, pour tous les utilisateurs et toutes les utilisatrices. Les utilisateurs et utilisatrices ont l'autorisation de lire, de télécharger, de copier, de distribuer, d'imprimer, de rechercher ou de fournir le lien vers le contenu intégral des articles, ou encore, d'utiliser les articles à toutes autres fins légales. La RCOA ne charge aucuns frais pour le traitement ou la publication des manuscrits.

BUT

Le but de la RCOA est de diffuser les connaissances actuelles relatives à l'audition, à la fonction vestibulaire et à l'équilibre, à l'alimentation/déglutition, à la parole, au langage et à la communication sociale qui ont une application directe aux domaines de l'orthophonie et de l'audiologie du Canada, et ce, pour tous les âges de la vie.

DROIT D'AUTEUR

© 2023 Orthophonie et Audiologie Canada

Tous droits réservés. Il est interdit de réimprimer, reproduire, mettre en mémoire pour extraction ou transcrire de quelque façon que ce soit (électroniquement, mécaniquement, par photocopie ou autrement) une partie quelconque de cette publication sans l'autorisation écrite d'OAC. Pour obtenir la permission, veuillez contacter pubs@sac-oac.ca. Pour citer ce document, veuillez mentionner la référence complète, ce qui inclut OAC, le nom du document, la date de publication, le titre de l'article, le numéro du volume et de la publication ainsi que les numéros de pages, si applicable.

La RCOA est publiée par Orthophonie et Audiologie Canada (OAC). Numéro de publication : # 40036109.

1, rue Nicholas, bureau 1000, Ottawa (Ontario) K1N 7B7 | 800.259.8519 | www.cjslpa.ca | www.oac-sac.ca

TABLE OF CONTENTS

TABLE DES MATIÈRES

ARTICLE 1	1
Characteristics and Functional Impacts of Swallowing and Speech Disorders Associated with Oculopharyngeal Muscular Dystrophy: A Systematic Review	
MYRIAM BRETON, KIM GAGNON, AUDREY BEAUMONT, VINCENT MARTEL-SAUVAGEAU	

ARTICLE 2	19
Treatment of Verb Tense Inflection Disorders in Aphasia: A Systematic Review	
CÉLIA ERICSON, EVODIE SCHAFFNER, MARION FOSSARD	

ARTICLE 3	37
Acoustical and Perceptual Voice Characteristics in Adults With Early- and Late-Onset Auditory Neuropathy Spectrum Disorder	
KAVASSERY VENKATESWARAN NISHA, PRATEEK LOKWANI, PRASHANTH PRABHU	

ARTICLE 4	55
Social Innovation in Speech-Language Pathology: Coconstruction of a Training Program for Day-Camp, Counsellors With Community Partners	
JESSICA SYLVAIN, ÉLIANE MORISSETTE, SARAH MARTIN-ROY, MARIE GRANDISSON, FRANCINE JULIEN-GAUTHIER, CHANTAL DESMARAIS	

ARTICLE 5	67
The Development of a Standardized Videofluoroscopic Swallow Study Barium Mixing Protocol: A Consensus-Based Approach	
VERONICA RODRIGUEZ, ELISSA GRECO, JULIE THEURER, GINA MILLS, KATE HUTCHESON, ROSEMARY MARTINO	

ARTICLE 1	1
Caractéristiques des troubles de la déglutition et de la parole associés à la dystrophie musculaire oculopharyngée et leurs impacts fonctionnels : une revue systématique	
MYRIAM BRETON, KIM GAGNON, AUDREY BEAUMONT, VINCENT MARTEL-SAUVAGEAU	

ARTICLE 2	19
La prise en charge des troubles du marquage grammatical du temps dans l'aphasie : une revue systématique	
CÉLIA ERICSON, EVODIE SCHAFFNER, MARION FOSSARD	

ARTICLE 3	37
Caractéristiques acoustiques et perceptuelles de la voix d'adultes atteints d'un trouble du spectre de la neuropathie auditive apparu de façon précoce et tardive	
KAVASSERY VENKATESWARAN NISHA, PRATEEK LOKWANI, PRASHANTH PRABHU	

ARTICLE 4	55
Innovation sociale en orthophonie : coconstruction avec le milieu communautaire d'une formation pour des moniteurs de camps de jour et de loisirs	
JESSICA SYLVAIN, ÉLIANE MORISSETTE, SARAH MARTIN-ROY, MARIE GRANDISSON, FRANCINE JULIEN-GAUTHIER, CHANTAL DESMARAIS	

ARTICLE 5	67
Création d'un protocole standardisé de mélanges de baryum pour l'évaluation de la déglutition par vidéofluoroscopie : une approche fondée sur le consensus	
VERONICA RODRIGUEZ, ELISSA GRECO, JULIE THEURER, GINA MILLS, KATE HUTCHESON, ROSEMARY MARTINO	



Caractéristiques des troubles de la déglutition et de la parole associés à la dystrophie musculaire oculopharyngée et leurs impacts fonctionnels : une revue systématique



Characteristics and Functional Impacts of Swallowing and Speech Disorders Associated with Oculopharyngeal Muscular Dystrophy: A Systematic Review

MOTS-CLÉS
DYSTROPHIE MUSCULAIRE OCULOPHARYNGÉE
DÉGLUTITION
PAROLE

Myriam Breton
 Kim Gagnon
 Audrey Beaumont
 Vincent Martel-Sauvageau

Myriam Breton¹, Kim Gagnon¹, Audrey Beaumont¹ et Vincent Martel-Sauvageau^{1,2}

¹Département de réadaptation, Université Laval, Québec, QC, CANADA

²Centre interdisciplinaire de recherche en réadaptation et intégration sociale, Québec, QC, CANADA

Abrégé

La dystrophie musculaire oculopharyngée est une maladie à forte prévalence au Québec, atteignant 1 personne sur 1000. Il existe, à ce jour, peu de ressources récentes, complètes et synthétisées rapportant les caractéristiques des troubles de la déglutition et de la parole associés à la maladie, et à l'impact fonctionnel de ces caractéristiques chez les personnes en étant atteintes. L'objectif de cette étude est de documenter ces caractéristiques et leurs impacts fonctionnels. Une revue systématique de la littérature sur la dystrophie musculaire oculopharyngée et ses caractéristiques a été effectuée entre juillet et novembre 2020. La qualité méthodologique des articles a été évaluée à l'aide de l'outil *QualSyst Tool*. Au total, 20 articles ont été retenus desquels les données portant sur les caractéristiques de la déglutition ou de la parole, ainsi que leurs impacts fonctionnels ont été extraites. La présence d'une dysphagie pharyngée est majoritairement rapportée. De son côté, la parole est caractérisée par une intensité vocale réduite, la présence d'une dysphonie, une hypernasalité et certaines difficultés articulatoires. Les caractéristiques ressorties mettent en lumière un tableau clinique de trouble de la parole d'origine structurelle caractérisé par l'hypotonie et la faiblesse musculaire. La présente étude constitue un outil de grande utilité pour orienter la pratique des différents professionnels susceptibles d'œuvrer auprès de la clientèle atteinte de la dystrophie musculaire oculopharyngée.

Rédacteur en chef:
 David H. McFarland

Abstract

Oculopharyngeal muscular dystrophy is a highly prevalent disease in the province of Québec, affecting 1 in 1,000 people. To date, there are few comprehensive and synthesized resources reporting the characteristics and functional impacts of swallowing and speech disorders associated with this disease. This study aimed to document these characteristics and functional impacts. A systematic review of the literature was conducted on oculopharyngeal muscular dystrophy and its characteristics between July and November 2020. The QualSyst Tool was used to assess the articles' methodological qualities. Twenty articles were selected and data on swallowing or speech characteristics associated with oculopharyngeal muscular dystrophy and their functional impacts were extracted from them. Pharyngeal swallowing impairments were reported in most cases. Speech was characterized by reduced vocal loudness, dysphonia, hypernasality, and some articulatory difficulties. These speech characteristics reveal that speech disorders associated with oculopharyngeal muscular dystrophy match a clinical presentation of speech disorders of structural origin characterized by hypotonia and muscle weakness. This study is a useful tool for guiding the practice of the various professionals likely to work with clients with oculopharyngeal muscular dystrophy.

Les maladies neuromusculaires regroupent un large ensemble de pathologies génétiques ou acquises pouvant affecter les systèmes nerveux central et périphérique, les fibres musculaires, ainsi que les jonctions neuromusculaires qui contrôlent les fibres musculaires (Raz et Raz, 2014). Bien que ces maladies soient caractérisées par une grande hétérogénéité, que ce soit en raison de leurs causes, de leurs symptômes, de leur sévérité ou de leur âge d'apparition (Plourde et al., s. d.), celles-ci entraînent, au fil de leur progression, une altération importante de la qualité de vie des personnes qui en souffrent (Kurtz et al., 2019; Nadeau, 2018).

Parmi ces maladies, on compte la dystrophie musculaire oculopharyngée (DMOP), une maladie neuromusculaire évolutive caractérisée par un affaiblissement et une dégénérescence progressive des muscles volontaires (Dystrophie musculaire Canada, s. d.). La DMOP touche une personne sur 100 000 mondialement (Witting et al., 2014). Cette maladie est donc considérée comme rare, à l'exception de quelques berceaux où elle est plus courante tels que dans les communautés juives boukhariennes d'Asie centrale (Blumen et al., 1997) et chez les individus d'ascendance canadienne-française de la province de Québec. En effet, la prévalence de la DMOP au Québec est de 1 sur 1000 (Brais et al., 1995), ce qui rend cette maladie beaucoup plus commune en sol québécois qu'ailleurs dans le monde. Cette prévalence élevée pourrait être expliquée par un effet fondateur (Brais et al., 1998), engendré lorsqu'une population est formée par la migration d'un nombre restreint d'individus en provenance d'une population mère (Dystrophie Musculaire Canada, s. d.). Cet effet aurait été initié en 1648 lorsque trois sœurs en provenance de la France, atteintes de la DMOP, auraient immigré en Nouvelle-France pour s'y installer et fonder leur famille (Codère et al., 2001). Ces dernières auraient eu une descendance nombreuse qui expliquerait la fréquence de la DMOP au Québec. Notons qu'un des fils d'une des trois sœurs se serait installé dans la région de Montmagny-L'Islet, région ayant, d'ailleurs, une très forte prévalence de DMOP (Codère et al., 2001). Dans la majorité des cas au Québec et ailleurs dans le monde, le mode de transmission de la DMOP est autosomique dominant (Brais et al., 1999), ce qui implique que lorsqu'un des parents en est atteint, il y a une chance sur deux que la maladie soit transmise à l'enfant. En effet, puisque la DMOP est associée à un gène dominant, toutes les personnes qui portent le gène modifié développent la maladie. Cependant, il existe également une seconde forme, plus rare, de type autosomique récessif (Brais, 2011). Dans ce cas, les deux parents doivent être porteurs de la mutation et transmettre le gène muté pour que la maladie puisse se déclarer chez leur enfant. Pour les deux types de transmission, la protéine en cause est

la PABPN1 située sur le chromosome 14q11.2, qui est plus longue que la normale en raison de l'ajout d'une courte expansion d'une chaîne d'alanines causée par la mutation (Brais et al., 1998).

Les symptômes de la DMOP se manifestent généralement entre l'âge de 45 et 60 ans et la maladie touche autant les hommes que les femmes (Association française contre les myopathies, 1995). La DMOP est caractérisée par un affaissement bilatéral de la paupière supérieure causé par une faiblesse musculaire au niveau des muscles releveurs de la paupière supérieure (ptose) et un affaiblissement des muscles oropharyngés qui entraîne une dysphagie (Brais, 2011). La dysphagie figure d'ailleurs parmi les critères requis afin de pouvoir poser le diagnostic, en plus d'un historique familial de DMOP et de la ptose de la paupière supérieure (Bouchard et al., 1997). La faiblesse musculaire peut progressivement atteindre d'autres parties du corps, entraînant notamment une dégénérescence des muscles volontaires proximaux (Brais, 2009). Les critères d'exclusion de diagnostic sont la présence de myotonie ou d'ophtalmoplégie externe sévère avant l'âge de 60 ans (Bouchard et al., 1997).

Les caractéristiques oropharyngées associées à la maladie placent les personnes souffrant de DMOP parmi la clientèle avec laquelle les orthophonistes interviennent. Il est donc impératif que ces professionnels soient en mesure de bien connaître les atteintes de la maladie qui relèvent de leur champ de compétences, d'autant plus ces symptômes sont susceptibles d'interférer avec la communication et l'alimentation des patients et ainsi d'altérer leur qualité de vie (Kurtz et al., 2019; Nadeau, 2018).

Cependant, avant d'offrir une prise en charge adaptée aux patients, le diagnostic approprié doit avoir été posé. Malgré la présence de certains centres et cliniques de réadaptation spécialisés dans les maladies neuromusculaires au Québec, Nadeau (2018) suggère qu'en raison de leur situation géographique, il est fort possible que les personnes présentant des symptômes associés à la DMOP soient plutôt amenées à consulter des professionnels de la santé de la première et de la deuxième ligne, qui ne connaissent peu, voire pas du tout cette maladie. Bon nombre d'études (Aryani et al., 2017; Mensah et al., 2014; Young et Durant-Jones, 1997) ont d'ailleurs montré qu'il arrive que le diagnostic de DMOP soit posé tardivement ou qu'il soit plutôt confondu avec une autre maladie, telle que la myasthénie grave, dans laquelle une faiblesse des muscles oculomoteurs et des membres, de la dysphagie et un affaissement des paupières peuvent également être observés (Aryani et al., 2017). Certaines

manifestations normales de la vieillesse, dont l'affaiblissement des paupières et l'atrophie des muscles, peuvent-elles aussi être confondues avec les symptômes de la DMOP (Raz et Raz, 2014). Des études ont d'ailleurs suggéré qu'une meilleure connaissance de la DMOP mènerait au diagnostic plus rapidement et éviterait aux patients de subir plusieurs examens médicaux non nécessaires (Agarwal et al., 2012; Belliveau et ten Hove, 2014), tels que des endoscopies œsogastroduodénales répétées effectuées afin d'évaluer l'intégrité des structures du système digestif supérieur. Il apparaît donc primordial que les orthophonistes travaillant en première ou deuxième ligne et qui sont susceptibles de rencontrer cette clientèle dans leur pratique soient en mesure de reconnaître rapidement les caractéristiques pathologiques de la DMOP sur la physiologie de la communication et de la déglutition. Cette amélioration des connaissances clinique pourra permettre de proposer une prise en charge rapide et bien adaptée aux besoins des patients et ainsi limiter les impacts de la maladie sur leur qualité de vie et leur bien-être.

D'ailleurs, le manque de connaissances sur la maladie semble être une source d'insatisfaction importante chez les patients. En effet, dans une récente étude, Kurtz et al. (2019) se sont intéressés à l'expérience vécue par les patients souffrant de la DMOP. Ceux-ci ont notamment rapporté avoir accès à peu d'informations sur la maladie, notamment sur les symptômes associés, le pronostic ainsi que les traitements disponibles. Plusieurs participants ont aussi mentionné que le manque de connaissances des professionnels de la santé sur la DMOP avait entraîné des conséquences adverses sur leur condition, telles que le fait de ne pas avoir été informés des interventions disponibles pour diminuer les symptômes de dysphagie.

Or, malgré la littérature grandissante sur le sujet, peu d'études se sont consacrées spécifiquement sur les caractéristiques de la déglutition et de la communication de la DMOP, ainsi qu'à leurs impacts fonctionnels pour les patients. Ainsi, les orthophonistes œuvrant auprès de cette clientèle désirent accroître leurs connaissances sur cette problématique détiennent peu de ressources présentant l'information à jour, complète et synthétisée afin d'avoir un portrait global des manifestations de la maladie relevant de leur expertise.

Dans le but de fournir des informations récentes sur la DMOP à l'intention des professionnels – notamment les orthophonistes – œuvrant dans le domaine de la santé et des services sociaux, l'objectif de cette revue systématique est de caractériser l'impact des formes récessive et dominante de la DMOP sur la déglutition et la

communication des personnes en étant atteintes, ainsi que l'impact fonctionnel que peuvent avoir ces déficits.

Méthodologie

Stratégie de recherche

Afin de répondre à l'objectif de la présente étude, une revue systématique de la littérature a été effectuée. Une recherche documentaire a été réalisée entre juillet et novembre 2020 dans les bases de données CINAHL, PUBMED et PsycINFO. La syntaxe de recherche utilisée était la suivante :

(oculopharyngeal muscular dystrophy OR OPMD) AND (dysphagia OR swallowing OR dysarthria OR aphasia OR apraxia of speech OR language OR speech OR speech disorder OR language disorder OR articulation disorder OR swallowing disorder OR voice disorder OR dysphonia OR intelligibility OR communication disorder OR communication aid OR alternative communication OR alternative and augmentative communication OR AAC OR quality of life OR QOL OR functional impairment).

La liste de références des articles sélectionnés a également été examinée pour trouver des articles supplémentaires.

Critères de sélection

Pour être inclus dans cette étude, les articles sélectionnés devaient : 1) Être conduits auprès de participants atteints de la DMOP selon sa définition typique; 2) Présenter une description adéquate d'une ou de plusieurs variables d'intérêt : des atteintes de la déglutition, de la communication, ou des impacts fonctionnels de ces atteintes; 3) Être rédigés en français ou en anglais; 4) Faire l'objet d'une révision par les pairs; 5) Être rédigés après 1998. La recherche a été restreinte de 1998 à 2020 puisque 1998 correspond à l'année de publication de l'étude de Brais et al. (1998), dans laquelle le gène responsable de la DMOP a été identifié, rendant maintenant possible la confirmation génétique du diagnostic. Notons que l'on entend par « selon sa définition typique » que les participants ont reçu la confirmation génétique (Brais et al., 1998) ou que les évidences physiologiques et l'historique familial sont suffisamment solides pour la pose du diagnostic (Bouchard et al., 1997).

Procédure de sélection

Deux des auteures de l'étude ont procédé à la lecture des titres et des résumés des articles afin d'en évaluer leur admissibilité selon les critères de sélection mentionnés précédemment. Par la suite, les articles potentiels ont été lus dans leur intégralité pour déterminer s'ils répondaient aux

critères de sélection préalablement définis. Les désaccords ont été résolus par la discussion jusqu'à ce qu'un consensus entre les auteures soit atteint assurant ainsi un accord interjuge pour l'ensemble des articles sélectionnés.

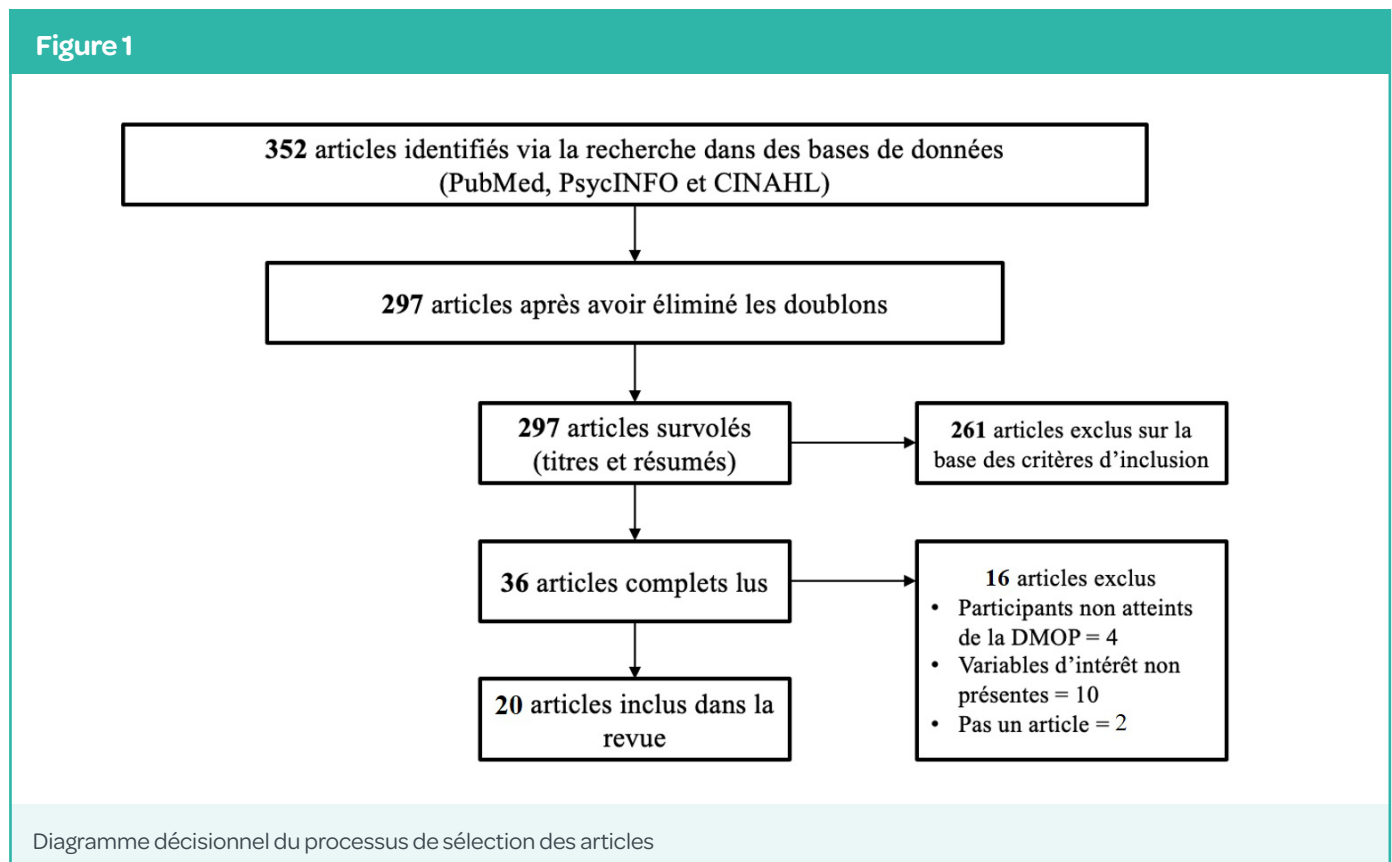
Évaluation de la qualité méthodologique

L'évaluation de la qualité méthodologique des 20 articles sélectionnés a été effectuée par deux des auteures à l'aide du *QualSyst Tool* (Kmet et al., 2004). Une procédure de calibration entre les deux auteures a été effectuée pour l'évaluation de la qualité méthodologique. La grille de vérification pour les études quantitatives et celle pour les études qualitatives ont été employées afin de correspondre aux devis des articles sélectionnés. La grille de vérification pour les études quantitatives comporte 14 critères qui portent sur la définition de l'objectif et du devis d'étude, de la qualité méthodologique, du détail et de la clarté des résultats, ainsi que sur la justification et le détail de l'analyse. Pour ce qui est des études qualitatives, les critères, au nombre de 10, portent sur la définition de l'objectif et du devis de l'étude, la connexion à un cadre théorique et à un contexte clair, la qualité méthodologique, l'usage de procédures de vérification, l'appui des résultats pour supporter les conclusions, ainsi que la présence d'une réflexion pour accompagner les conclusions. Considérant

les divers devis quantitatifs des articles sélectionnés, certains critères ont été retirés avec la case non applicable en fonction des études. Un score de qualité a été obtenu en divisant le score total par la somme totale possible. La qualité méthodologique a donc été classée selon le barème suivant (Kmet et al., 2004) : un score de 0,8 et plus est considéré comme une qualité élevée, un score de 0,7 à 0,79 est considéré comme une qualité bonne, un score de 0,5 à 0,69 est considéré comme une qualité faible et un score de 0,49 et moins est considéré comme une mauvaise qualité. Le détail des scores de qualité pour chaque article, par critère, est présenté en Annexe.

Sélection des articles

Au total, 352 articles ont été ciblés via la recherche dans les bases de données. À la suite de l'élimination des doublons, 297 articles ont été explorés afin de les évaluer sur la base des critères d'inclusion. À la fin du processus, 20 articles ont été inclus dans la revue de littérature. Aucun article portant sur les habiletés langagières n'a pu être conservé, car aucun ne respectait les critères de sélection. Les articles sélectionnés abordent, pour leur part, les impacts de la DMOP sur la déglutition ou la parole, ou les impacts fonctionnels de ces déficits. La **figure 1** présente le diagramme décisionnel du processus de sélection des articles.



Extraction des données

Les résultats ont été extraits et répertoriés en deux tableaux (**tableau 1** et **tableau 2**) comprenant les variables suivantes : devis, caractéristiques des participants, type de mesures, caractéristiques de la dysphagie, de la parole, impacts fonctionnels et score de la qualité. Deux des auteures de cette étude ont procédé à l'extraction des données via un processus de consensus systématique. Les données ont par la suite été réduites et synthétisées par un troisième auteur et sont présentées dans les tableaux.

Parmi les articles inclus dans la présente revue systématique, notons que seuls deux articles s'intéressent spécifiquement à la forme récessive de la DMOP, soit l'étude de cas de Werling et al. (2015) et l'étude quantitative descriptive de Blumen et al. (2009). Ces deux articles n'ont pas été inclus dans les tableaux des résultats afin d'éviter les confusions entre les tableaux cliniques des deux formes de DMOP, soit la forme dominante, qui est la plus commune, et la forme récessive, qui est plus rare. Les données de ces deux articles sont plutôt présentées sous forme de bref texte.

Résultats

Sur les 20 articles retenus, 8 ont un devis de type étude de cas, 2 sont de nature qualitative, et le reste est de nature quantitative variée. Les articles datent de 2000 à 2020.

Forme autosomique dominante

Déglutition

Le **tableau 1** présente les caractéristiques de la dysphagie chez les personnes atteintes de la DMOP ainsi que leurs impacts fonctionnels chez ces personnes. Les résultats y étant rapportés montrent que, dans la vaste majorité des études recensées, une faiblesse orofaciale affectant la phase orale de la déglutition et une dysphagie pharyngée sont rapportées. Cette dernière est principalement caractérisée par un temps de déglutition prolongé, des résidus pharyngés post-déglutition dans les vallécules et/ou les sinus piriformes, des raclements de gorge, des régurgitations orales et nasales, des étouffements avec les solides, les liquides et/ou la salive et des aspirations. Bien que moins fréquentes, les manifestations suivantes peuvent aussi être observées : de multiples déglutitions requises par bolus, un volume de bolus par déglutition plus petit, la présence de sécrétions pharyngées importantes, une accumulation de salive dans les sinus piriformes, de la toux et une sensation de blocage pharyngé.

De plus, les résultats permettent de constater qu'il est fréquent que la sécurité liée aux voies respiratoires soit compromise dans la DMOP, principalement en raison

d'une fermeture glottique incomplète secondaire à une mobilité réduite des plis vocaux. On observe également une diminution ou un retard dans l'ouverture du segment pharyngo-œsophagien. En ce sens, deux études ont également relevé une diminution de l'amplitude et de la vitesse du mouvement d'antériorisation et d'élévation laryngée. Malgré la prédominance des symptômes pharyngés rapportés dans les études recensées, il est à noter que des symptômes oraux peuvent également être observés, tels qu'une difficulté à mastiquer et un temps de mastication plus long (Kroon et al., 2020).

Près de la moitié des études de cette revue systématique se sont intéressées à l'impact fonctionnel des caractéristiques de la déglutition chez les personnes atteintes de la DMOP. De ces études, les impacts principaux suivants ont été soulevés : de l'évitement alimentaire (Krause-Bachand et Koopman, 2008; Kurtz et al., 2019); des peurs reliées à l'alimentation, telles qu'une peur de s'étouffer (Krause-Bachand et Koopman, 2008; Kurtz et al., 2019); des adaptations apportées aux habitudes alimentaires, telles que manger avant de quitter la maison et éviter de parler lors des repas (Krause-Bachand et Koopman, 2008) ainsi qu'une perte de poids (Escudé et al., 2005; London et al., 2017).

Parole

Le **tableau 2** présente les caractéristiques de la parole par composante (respiration, phonation, résonance, articulation prosodie), ainsi que les impacts fonctionnels qui en découlent chez les personnes atteintes de la DMOP. Comme tous les articles inclus dans ce tableau font également partie du **tableau 1**, les caractéristiques des études (devis, participants, qualité) ne sont pas reprises dans le **tableau 2**. Les résultats rapportés dans ce tableau montrent que la composante respiratoire n'est pas déficitaire, bien qu'elle soit très peu étudiée. La phonation chez les patients atteints de la DMOP est caractérisée principalement par une intensité vocale réduite et par une qualité vocale altérée (voix enrôlée ou moins claire). La résonance est caractérisée par une hypernasalité fréquente. Certaines difficultés articulatoires sont également notées. L'impact fonctionnel des difficultés en lien avec la parole pour les personnes atteintes de la DMOP est encore une fois peu étudié. Notons tout de même que des difficultés à se faire comprendre, un besoin de répéter ses propos et une réduction de l'intelligibilité ont été rapportés dans la littérature. Les patients atteints de la DMOP présenteraient donc fréquemment un trouble de la parole d'origine structurelle, caractérisé par de l'hypotonie et de la faiblesse musculaire. Notons que la présentation symptomatologique peut être analogue à celle typiquement

Tableau 1						
Caractéristiques de la dysphagie et leurs impacts fonctionnels chez les personnes atteintes de la dystrophie musculaire oculopharyngée						
Auteurs (année)	Devis (type d'étude)	Nombre (par genre) et âge moyen ± écart-type des participants	Types de mesures	Caractéristiques de la dysphagie	Impacts fonctionnels	Score de qualité
Kurtz et al. (2019)	Observationnelle transversale	N = 25 (10H, 15F) AM = 63 ± 10	Observationnelles	<p><i>Déficits physiologiques</i></p> <p>Faiblesse musculaire faciale</p> <p><i>Signes et symptômes</i></p> <p>Étouffements</p> <p>Racllements de gorge et toux</p> <p>Régurgitations nasales et orales</p>	<p>Temps de repas prolongé</p> <p>Évitement alimentaire</p> <p>Peur de s'étouffer</p>	1,00
Tabor et al. (2018)	Observationnelle transversale	N = 22 (11 H, 11F) AM = 63 ± 11	Instrumentales	<p><i>Déficits physiologiques</i></p> <p>Fermeture incomplète du vestibule laryngé</p> <p><i>Signes et symptômes</i></p> <p>Aspirations silencieuses</p> <p>Étouffements</p> <p>Résidus pharyngés post-déglutition</p>		0,92

Tableau 1 (suite)

Chen et al. (2018)	Étude de cas	N = 1 (1F) A = 53	Instrumentales	<p><i>Déficits physiologiques</i></p> <p>Fermeture incomplète du vestibule laryngé</p> <p>Élévation laryngée diminuée</p> <p>Ouverture du segment pharyngo-œsophagien diminuée</p> <p>Ouverture du segment pharyngo-œsophagien retardée</p> <p><i>Signes et symptômes</i></p> <p>Accumulation de salive dans les sinus piriformes</p> <p>Temps de déglutition prolongé</p> <p>Résidus pharyngés post-déglutition</p>	0,67
Waito et al. (2018)	Observationnelle transversale	N = 11 (4H, 7F) AM = 57 ± n.d.	Instrumentales	<p><i>Déficits physiologiques</i></p> <p>Diminution de la pression appliquée par le pharynx sur le bolus</p> <p><i>Signes et symptômes</i></p> <p>Résidus pharyngés post-déglutition</p> <p>Multiples déglutitions requises par bolus</p>	1,00
Neel et al. (2015)	Observationnelle transversale	N = 13 (4H, 9F) AM = 60 ± n.d.	Instrumentales et observationnelles	<p><i>Déficits physiologiques</i></p> <p>Faiblesse linguale</p>	0,82

Tableau 1 (suite)

Youssef et al. (2017)	Observationnelle transversale	N = 113 (55H, 58F) AM = 66 ± 8	Observationnelles	<p><i>Déficits physiologiques</i> Difficultés à mastiquer (rare)</p> <p><i>Signes et symptômes</i> Résidus pharyngés post déglutition Racllements de gorge et toux Augmentation des sécrétions pharyngées Étouffements Régurgitations nasales (rare)</p>		0,90
Brisson et al. (2020)	Observationnelle par série de cas uniques	N = 339 (166H, 167F) AM : n.d.	Observationnelles	<p><i>Signes et symptômes</i> Augmentation des sécrétions pharyngées</p>		0,94
Youssef (2016)	Observationnelle transversale	N = 89 (40H, 49F) AM = 66 ± 9	Observationnelles		Sévérité de la dysphagie qui est un prédicteur du fonctionnement social	1,00
Palmer et al. (2010)	Observationnelle transversale	N = 11 (3H, 8F) AM = 61 ± n.d.	Instrumentales et observationnelles	<p><i>Déficits physiologiques</i> Faiblesse linguale</p> <p><i>Signes et symptômes</i> Diminution du volume de bolus par déglutition Temps de déglutition prolongé</p>	Qualité de vie plus faible	0,88
Manjaly et al. (2012)	Observationnelle transversale	N = 9 (2H, 7F) AM = 60 ± n.d.	Instrumentales	<p><i>Déficits physiologiques</i> Diminution de la contraction pharyngée Diminution de l'ouverture du segment pharyngo-œsophagien</p>		0,95

Tableau 1 (suite)

Bumm et al. (2009)	Étude de cas	N = 1 (1H) A = 57	Instrumentales et observationnelles	<p><i>Déficits physiologiques</i></p> Fermeture glottique incomplète Diminution du réflexe de toux Xérostomie	0,67
				<p><i>Signes et symptômes</i></p> Aspiration per- et post-déglutition Sensation de blocage pharyngé	
Krause-Bachand et Koopman (2008)	Observationnelle transversale	N = 10 (5H, 5F) AM = 63 ± n.d.	Observationnelles		0,95
				Allongement de la durée des repas Évitement alimentaire Changement des habitudes alimentaires Peurs liées à l'alimentation	
Kroon et al. (2020)	Observationnelle longitudinale	N = 48 (23H, 25F) AM = 61 ± 9	Instrumentales et observationnelles	<p><i>Signes et symptômes</i></p> Temps de mastication prolongé Temps de déglutition prolongé Diminution du volume de bolus par déglutition Résidus pharyngés post-déglutition Aspiration silencieuse sur les liquides clairs	0,95
Nagashima et al. (2000)	Étude de cas	N = 4 (3H, 1F) AM = 63 ± n.d.	Instrumentales et observationnelles	<p><i>Déficits physiologiques</i></p> Diminution de l'ouverture du segment pharyngo-œsophagien	0,94
				<p><i>Signes et symptômes</i></p> Résidus pharyngés post-déglutition	

Tableau 1 (suite)

Blumen et al. (2013)	Étude de cas	N = 5 (1H, 4F) AM = 67 ± n.d.	Instrumentales et observationnelles	<i>Déficits physiologiques</i> Absence de réflexe nauséeux <i>Signes et symptômes</i> Accumulation de salive dans l'hypopharynx Aspirations Temps de déglutition prolongé		0,75
Escudié et al. (2005)	Étude de cas	N = 1 (1F) A = 67	Observationnelles	<i>Déficits physiologiques</i> Faiblesse vélaire <i>Signes et symptômes</i> Dysphagie progressive sur les solides puis sur les liquides	Perte de poids	0,69
Tung et al. (2011)	Étude de cas	N = 1 (1H) A = 55	Observationnelles	<i>Signes et symptômes</i> Dysphagie progressive sur les solides puis sur les liquides		0,56
London et al. (2017)	Étude de cas	N = 1 (1F) A = 60	Instrumentales et observationnelles	<i>Déficits physiologiques</i> Faiblesse orofaciale Fermeture glottique incomplète	Perte de poids	0,81

Note. A = âge du participant dans les études de cas (1 seul participant); AM = Âge moyen; H = Hommes; F = Femmes; n.d. = non-disponible.

Tableau 2

Caractéristiques de la parole et leurs impacts fonctionnels chez les personnes atteintes de la dystrophie musculaire oculopharyngée

Auteurs (année)	Caractéristiques de la parole					Impacts fonctionnels
	Respiration	Phonation (voix)	Résonance	Articulation	Prosodie	
Kurtz et al. (2019)		Hypophonie Qualité vocale altérée				
Neel et al. (2015)	(Préservée)		(Préservée)	Diminution de la vitesse articulaire		Difficultés à se faire comprendre
Brisson et al. (2020)		Qualité vocale altérée				
Kroon et al. (2020)		Hypophonie Diminution de la durée phonatoire maximale	Hypernasalité	Imprécision articulaire Diminution de la vitesse articulaire		Réduction de l'intelligibilité
Nagashima et al. (2000)			Hypernasalité			
Blumen et al. (2013)		Qualité vocale altérée				
Escudié et al. (2005)			Hypernasalité			
Tung et al. (2011)		Hypophonie Qualité vocale altérée				
London et al. (2017)			Hypernasalité			

Note. Les caractéristiques détaillées des études (devis, participants, qualité) n'ont pas été inscrites dans ce tableau étant donné qu'elles sont déjà présentes dans le tableau 1.

observée dans la dysarthrie flasque, compte tenu de la physiopathologie similaire (Duffy, 2019). Néanmoins, la DMOP n'engendrant pas d'atteintes neurologiques à proprement parler, l'utilisation du terme *dysarthrie* demeure à éviter, ce dernier, par définition, étant d'origine neurologique.

Forme autosomique récessive

Deux articles se sont intéressés à la forme récessive de la DMOP : l'étude de cas de Werling et al. (2015) et l'étude quantitative descriptive de Blumen et al. (2009). L'article de Blumen et al. (2009) s'est vu attribuer un score de qualité de 0,75 et celui de Werling et al. (2015) de 0,61. L'article de Blumen et al. (2009) rapporte un début des symptômes précoce, soit avant l'âge de 35 ans. Les symptômes mentionnés en lien avec la déglutition sont la présence de dysphagie, d'aspirations récurrentes et d'une perte de poids, alors que sur le plan de la parole, la présence de dysphonie est signalée. L'étude de cas de Werling et al. (2015) rapporte, quant à elle, des symptômes en lien avec la déglutition tels qu'une dysphagie avec les solides et les liquides, une difficulté à avaler la salive, des régurgitations nasales et une toux fréquente avec présence de mucosités dans la cavité orale. Les mesures instrumentales soulèvent une asymétrie de la cavité pharyngée, une hypotension sévère de l'hypopharynx et une relaxation incomplète du segment pharyngo-œsophagien lors de la phase pharyngée.

Discussion

Cette revue systématique avait pour objectif de documenter les caractéristiques de la déglutition et de la parole des personnes atteintes de la DMOP, ainsi que l'impact fonctionnel de ces atteintes. La poursuite de cet objectif avait pour but de fournir des informations récentes et complètes sur la DMOP à l'intention des différents professionnels œuvrant auprès de cette clientèle.

Forces et limites de l'étude

À notre connaissance, cette recension systématique s'avère être la première étude s'intéressant à la fois aux caractéristiques de la déglutition et de la parole dans la DMOP, ainsi qu'à leurs impacts fonctionnels sur la vie des personnes atteintes. En dressant un portrait complet des caractéristiques orthophoniques présentes dans la maladie, cette étude constitue une ressource novatrice permettant d'accroître les connaissances et ainsi d'orienter la démarche clinique d'évaluation des orthophonistes œuvrant auprès de cette clientèle. D'ailleurs, dans la lignée d'une poursuite de la prise en charge de la clientèle atteinte de la DMOP, la présente revue a permis de constater qu'aucune étude assez récente portant sur l'efficacité des

interventions orthophoniques auprès d'adultes atteints de la DMOP n'existe.

À ce sujet, dans l'étude de Kurtz et al. (2019), la majorité des patients interrogés entretenait des attitudes négatives quant aux interventions chirurgicales actuellement disponibles, dont la dilatation ou la myotomie du muscle cricopharyngé, une composante du segment pharyngo-œsophagien. Les principales critiques rapportées par les patients étaient que ces interventions n'entraînent qu'un bénéfice partiel et que celui-ci est souvent limité dans le temps. L'efficacité limitée de ces interventions peut notamment s'expliquer par le fait qu'elles ont pour objectif d'ouvrir le segment pharyngo-œsophagien. Cette ouverture a pour but, notamment, de pallier une ouverture partielle ou absente du segment pharyngo-œsophagien qui cause la présence de stases pharyngées ou un blocage du bol alimentaire. Ainsi, ces procédures n'ont pas d'impact direct sur les autres déficits physiologiques sous-jacents pouvant contribuer à la dysphagie oropharyngée, tels qu'une altération de la propulsion linguale, de la contraction pharyngée ou de la fermeture du vestibule laryngé (Logemann, 1983). Coiffier et al. (2006) ont d'ailleurs démontré que le tiers des patients de leur étude ayant subi une myotomie cricopharyngée ayant diminué la présence de symptômes de dysphagie a observé une récurrence de ces derniers, trois ans après la chirurgie. De plus, parmi les patients interrogés par Kurtz et al. (2019), 32 % des personnes ont affirmé qu'ils considéreraient subir une intervention invasive pour traiter leur dysphagie seulement si leurs symptômes devenaient sévères à un tel point que leurs stratégies compensatoires ne seraient plus efficaces. Ainsi, les interventions chirurgicales ne constituent pas toujours le premier choix de traitement des patients pour diminuer les symptômes de dysphagie, bien qu'elles puissent néanmoins avoir des impacts positifs sur l'alimentation des patients. Ces témoignages réitèrent donc l'importance de l'implication des orthophonistes auprès de cette clientèle et renforcent la nécessité d'accroître leurs connaissances sur la DMOP afin qu'ils soient en mesure de mieux accompagner les personnes qui en souffrent. En effet, les interventions orthophoniques en réadaptation pour la dysphagie ont habituellement pour objectif le maintien de la physiologie de la déglutition, visant ainsi une diminution des impacts de la dysphagie à long terme sans interventions chirurgicales, ce qui répond, en partie, aux critiques des patients. Quelques auteurs ont souligné que certaines techniques de réadaptation connues pourraient s'avérer prometteuses. En ce sens, Chen et al. (2018) soulignent que l'exercice de Shaker (Shaker et al., 1997) et la manœuvre de Mendelson (Lazarus, 2013) peuvent s'avérer bénéfiques pour diminuer les symptômes de la dysphagie

puisqu'elles contribuent à améliorer l'élévation du larynx, l'ouverture cricopharyngée et l'inversion de l'épiglotte. La manœuvre de Masako (Lazarus, 2013) pourrait également être indiquée puisqu'en renforçant le muscle à la base de la langue et en améliorant la coordination entre l'os hyoïde et le larynx, cette manœuvre contribuerait à améliorer la pression appliquée par le pharynx sur le bolus (Fujiu et Logemann, 1996). Malgré la pertinence théorique de ces techniques, il s'avère important de noter que leur efficacité dans la DMOP n'a pas été démontrée empiriquement. Rappelons que bon nombre d'études ont relevé l'insatisfaction des patients quant aux traitements chirurgicaux proposés pour intervenir sur les symptômes de la DMOP (Coiffier et al., 2006; Kurtz et al., 2019). Il s'avère donc impératif que des études subséquentes, présentant une qualité méthodologique suffisante, s'intéressent à l'efficacité des interventions orthophoniques pouvant être mises en place auprès de cette clientèle.

La présente étude avait également pour objectif de décrire les impacts fonctionnels des difficultés de parole et de déglutition chez les personnes atteintes de la DMOP. Les résultats nous permettent de mettre de l'avant certains impacts fonctionnels considérables, notamment sur les plans psychologique et social. Or, il est pertinent de noter que parmi les vingt études recensées, moins de la moitié d'entre elles se sont intéressées aux réels impacts fonctionnels chez les personnes souffrant de la DMOP. Ainsi, bien que les résultats mettent en lumière certains de ces impacts, il est pertinent de se demander si ceux-ci sont réellement représentatifs de l'expérience vécue des personnes atteintes de la maladie, et la manière dont ces derniers influent sur la qualité de vie. Pourtant, bon nombre de chercheurs soulignent l'importance de s'intéresser à la qualité de vie afin d'avoir un portrait complet de la problématique vécue par les personnes atteintes, et ainsi pouvoir offrir une prise en charge adaptée à leurs besoins (Waito et al., 2018; Yousof, 2016). En effet, il est primordial de connaître l'étendue des difficultés vécues par les patients pour mettre en place une intervention ciblée et individualisée. Yousof (2016) souligne d'ailleurs que l'identification des facteurs influençant la qualité de vie favorise la mise en place des interventions permettant de l'améliorer, ce qui est d'autant plus pertinent dans le cas d'une maladie pour laquelle il n'existe pas encore de traitement curatif. En ce sens, il est essentiel que de plus en plus d'études futures se penchent sur cette variable.

Finalement, relevons que les études actuellement disponibles en lien avec les caractéristiques de la déglutition et de la parole dans la DMOP sont peu nombreuses. De plus, une majorité d'entre elles ont comme devis l'étude

de cas, qui n'implique pas la même force d'évidence que des études avec un nombre plus élevé de participants, ce qui peut représenter une limite quant à la généralisation possible des résultats. Par ailleurs, lors de l'évaluation de la force d'évidence, la présence de divers devis ne répondant pas à tous les critères de la grille d'évaluation du *QualSyst Tool* a mené les auteurs à avoir recours à de multiples reprises aux cases non applicables ce qui peut avoir influencé favorablement les forces d'évidence.

Implications cliniques

En dressant un portrait de l'état des connaissances actuelles sur les caractéristiques de la déglutition et de la parole ainsi que de leurs impacts fonctionnels dans la DMOP, la présente étude constitue une ressource permettant aux différents professionnels d'accroître leur compréhension de la problématique et ainsi d'être en mesure d'arrimer leur pratique clinique avec les évidences scientifiques disponibles. Rappelons que plusieurs études (Aryani et al., 2017; Mensah et al., 2014; Young et Durant-Jones, 1997) soulèvent le manque de connaissances des professionnels de première et de deuxième lignes (p. ex. les orthophonistes) quant au dépistage de la DMOP chez les patients. Ainsi, les professionnels qui sont plus informés sur la maladie et ses caractéristiques pourront mieux accompagner les patients atteints de la DMOP.

De surcroît, peu d'études se sont avancées sur le tableau clinique des troubles de la parole chez les personnes atteintes de la DMOP. Cependant, à la lumière des données relevées sur les caractéristiques de la parole et du mécanisme oral périphérique, et des marqueurs de Duffy (2019), un tableau clinique analogue à celui de la dysarthrie flasque serait le plus probable, résultat qui est soutenu par Neel et al. (2015). En effet, ces derniers mentionnent que les caractéristiques de la voix et de la parole des personnes atteintes de la DMOP sont similaires à celles de la dysarthrie flasque. La connaissance de ce tableau clinique par les professionnels pourrait certainement orienter les interventions réalisées par ces derniers.

Conclusion

Les caractéristiques concernant la déglutition et la parole des personnes atteintes de la DMOP demeurent souvent documentées de manière très sommaire dans la littérature; il arrive donc qu'il soit difficile pour les membres des équipes spécialisées qui prennent en charge ces patients de bien les informer sur les déficits qu'ils risquent de rencontrer au fil de l'évolution de la maladie. Ainsi, les résultats de la présente étude permettent d'offrir un portrait des caractéristiques de la déglutition et de la parole, ainsi que de leurs impacts fonctionnels chez les patients atteints

de la DMOP. Cela représente un outil de grande utilité pour tous les membres des équipes multidisciplinaires impliqués auprès de ces patients.

Références

Agarwal, P. K., Mansfield, D. C., Mehan, D., Salman, R. A. S., Davenport, R. J., Connor, M., Metcalfe, R. et Petty, R. (2012). Delayed diagnosis of oculopharyngeal muscular dystrophy in Scotland. *British Journal of Ophthalmology*, 96(2), 281–283. <https://doi.org/10.1136/bjo.2010.200378>

Aryani, O., Akbari, M., Aghsaei-Fard, M., Mirmohammad-Sadeghi, A. et Yadegari, S. (2017). Oculopharyngeal muscular dystrophy misdiagnosed as myasthenia gravis: Case report and review of literature. *Iranian Journal of Neurology*, 16(2), 98–99. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC5526785/>

Association française contre les myopathies. (1995). Dystrophie musculaire oculopharyngée. *Monographies Myoline*, Juin, 1–62.

Belliveau, M. J. et ten Hove, M. W. (2014). Neglected conditions: Oculopharyngeal muscular dystrophy. *Canadian Medical Association Journal*, 186(6), 453. <https://doi.org/10.1503/cmaj.114-0025>

Blumen, S. C., Bouchard, J.-P., Brais, B., Carasso, R. L., Paleacu, D., Drory, V. E., Chantal, S., Blumen, N. et Braverman, I. (2009). Cognitive impairment and reduced life span of oculopharyngeal muscular dystrophy homozygotes. *Neurology*, 73(8), 596–601. <https://doi.org/10.1212/WNL.0b013e3181b388a3>

Blumen, S. C., Kesler, A., Dabby, R., Shalev, S., Morad, C., Almog, Y., Zoldan, J., Benninger, F., Drory, V. E., Gurevich, M., Sadeh, M., Brais, B. et Braverman, I. (2013). Oculopharyngeal muscular dystrophy among Bulgarian jews: A new cluster? *Israel Medical Association Journal*, 15(12), 748–752. <https://www.ima.org.il/MedicinelMAJ/viewarticle.aspx?aid=3320>

Blumen, S. C., Nisipeanu, P., Sadeh, M., Asherov, A., Blumen, N., Wirguin, Y., Khilkevich, O., Carasso, R. L. et Korczyn, A. D. (1997). Epidemiology and inheritance of oculopharyngeal muscular dystrophy in Israel. *Neuromuscular Disorders*, 7(1), S38–S40. [https://doi.org/10.1016/S0960-8966\(97\)00080-1](https://doi.org/10.1016/S0960-8966(97)00080-1)

Bouchard, J.-P., Brais, B., Brunet, D., Gould, P. V. et Rouleau, G. A. (1997). Recent studies on oculopharyngeal muscular dystrophy in Quebec. *Neuromuscular Disorders*, 7(1), S22–S29. [https://doi.org/10.1016/S0960-8966\(97\)00077-1](https://doi.org/10.1016/S0960-8966(97)00077-1)

Brais, B. (2009). Oculopharyngeal muscular dystrophy: A polyaniline myopathy. *Current Neurology and Neuroscience Reports*, 9(1), 76–82. <https://doi.org/10.1007/s11910-009-0012-y>

Brais, B. (2011). Oculopharyngeal muscular dystrophy. Dans R. C. Griggs et A. A. Amato (dir.), *Handbook of clinical neurology* (vol. 101, p. 181-192). Elsevier. <https://doi.org/10.1016/B978-0-08-045031-5.00014-1>

Brais, B., Bouchard, J.-P., Xie, Y.-G., Rochefort, D. L., Chrétien, N., Tomé, F. M. S., Lafrenière, R. G., Rommens, J. M., Uyama, E., Nohira, O., Blumen, S., Korczyn, A. D., Heutink, P., Mathieu, J., Duranceau, A., Codère, F., Fardeau, M. et Rouleau, G. A. (1998). Short GCG expansions in the PABP2 gene cause oculopharyngeal muscular dystrophy. *Nature Genetics*, 18, 164–167. <https://doi.org/10.1038/1038/>

Brais, B., Rouleau, G. A., Bouchard, J.-P., Fardeau, M., et Tomé, F. M. S. (1999). Oculopharyngeal Muscular Dystrophy. *Seminars in Neurology*, 19(1), 59–66. <https://doi.org/10.1002/9781119973331.ch11ng0298-164>

Brais, B., Xie, Y.-G., Sanson, M., Morgan, K., Weissenbach, J., Korczyn, A. D., Blumen, S. C., Fardeau, M., Tomé, F. M. S., Bouchard, J.-P. et Rouleau, G. A. (1995). The oculopharyngeal muscular dystrophy locus maps to the region of the cardiac α and β myosin heavy chain genes on chromosome 14q11.2-q13. *Human Molecular Genetics*, 4(3), 429–434. <https://doi.org/10.1093/hmg/4.3.429>

Brisson, J. D., Gagnon, C., Brais, B., Côté, I. et Mathieu, J. (2020). A study of impairments in oculopharyngeal muscular dystrophy. *Muscle and Nerve*, 62(2), 201–207. <https://doi.org/10.1002/mus.26888>

Bumm, K., Zenker, M. et Bozzato, A. (2009). Oculopharyngeal muscular dystrophy as a rare differential diagnosis for unexplained dysphagia: A case report. *Cases Journal*, 2, Article 94. <https://doi.org/10.1186/1757-1626-2-94>

Chen, A. W.-G., Wu, S.-L., Cheng, W.-L., Chuang, C.-S., Chen, C.-H., Chen, M.-K. et Liu, C.-S. (2018). Dysphagia with fatal choking in oculopharyngeal muscular dystrophy: Case report. *Medicine*, 97(43), Article e12935. <https://doi.org/10.1097/MD.00000000000012935>

Codère, F., Brais, B., Rouleau, G. et Lafontaine, E. (2001). Oculopharyngeal muscular dystrophy: What's new? *Orbit*, 20(4), 259–266. <https://doi.org/10.1076/orbi.20.4.259.2617>

Coiffier, L., Périé, S., Laforêt, P., Eymard, B. et St Guilly, J. L. (2006). Long-term results of cricopharyngeal myotomy in oculopharyngeal muscular dystrophy. *Otolaryngology – Head and Neck Surgery*, 135(2), 218–222. <https://doi.org/10.1016/j.otohns.2006.03.015>

Duffy, J. (2019). *Motor speech disorders: Substrates, differential diagnosis, and management* (4^e éd., p. 90-118). Elsevier.

Dystrophie musculaire Canada. (s. d.). *Un guide des maladies neuromusculaires*. https://www.virtualhospice.ca/Assets/line_30pdf_20081216140555.pdf

Escudé, L., Payen, J. L., Thiry-Escudé, I., Carreiro, M., Trémelet, L. et Seigneuric, C. (2005). Dystrophie musculaire oculopharyngée révélée par une dysphagie. *La Revue de Médecine Interne*, 26(9), 759–762. <https://doi.org/10.1016/j.revmed.2005.05.009>

Fujii, M. et Logemann, J. A. (1996). Effect of a tongue-holding maneuver on posterior pharyngeal wall movement during deglutition. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 5(1), 23–30. <https://doi.org/10.1044/1058-0360.0501.23>

Kmet, L. M., Lee, R. C. et Cook, L. S. (2004). *Standard quality assessment criteria for evaluating primary research papers from a variety of fields*. Education and Research Archive. <https://doi.org/10.7939/R37M04F16>

Krause-Bachand, J. et Koopman, W. J. (2008). Living with oculopharyngeal muscular dystrophy: A phenomenological study. *Canadian Journal of Neuroscience Nursing*, 30(1), 35–39. https://www.researchgate.net/profile/Wilma-Koopman/publication/5420988_Living_with_oculopharyngeal_muscular_dystrophy_a_phenomenological_study/links/58fa29b0a6fdcc5376f90f68/Living-with-oculopharyngeal-muscular-dystrophy-a-phenomenological-study.pdf

Kroon, R. H. M. J. M., Horlings, C. G. C., de Swart, B. J. M., van Engelen, B. G. M. et Kalf, J. G. (2020). Swallowing, chewing and speaking: Frequently impaired in oculopharyngeal muscular dystrophy. *Journal of Neuromuscular Diseases*, 7(4), 483–494. <https://doi.org/10.3233/JND-200511>

Kurtz, N. S., Côté, C., Heatwole, C., Gagnon, C. et Youssouf, S. (2019). Patient-reported disease burden in oculopharyngeal muscular dystrophy. *Muscle and Nerve*, 60(6), 724–731. <https://doi.org/10.1002/mus.26712>

Lazarus, C. (2013). Mendelson maneuver and Masako maneuver. Dans R. Shaker, C. Easterling, P. Belafsky et G. Postma (dir.), *Manual of Diagnostic and Therapeutic Techniques for Disorders of Deglutition* (p. 269–280). Springer. https://doi.org/10.1007/978-1-4614-3779-6_14

Logemann, J. A. (1983). *Evaluation and treatment of swallowing disorders*. College-Hill Press.

London, F., Benzidi, Y., Vermersch, P. et Tard, C. (2017). Myogenic abnormalities in intensive care can hide an uncommon diagnosis. *Acta Neurologica Belgica*, 117(3), 789–790. <https://doi.org/10.1007/s13760-017-0756-0>

Manjaly, J. G., Vaughan-Shaw, P. G., Dale, O. T., Tyler, S., Corlett, J. C. R. et Frost, R. A. (2012). Cricopharyngeal dilatation for the long-term treatment of dysphagia in oculopharyngeal muscular dystrophy. *Dysphagia*, 27(2), 216–220. <https://doi.org/10.1007/s00455-011-9356-y>

Mensah, A., Witting, N., Duno, M., Milea, D. et Vissing, J. (2014). Delayed diagnosis of oculopharyngeal muscular dystrophy in Denmark: From initial ptosis to genetic testing. *Acta Ophthalmologica*, 92(3), 247–249. <https://doi.org/10.1111/aos.12243>

Nadeau, D. (2018). *La dystrophie musculaire oculopharyngée : mieux connaître pour un accompagnement adapté* [essai de maîtrise, Université de Sherbrooke].

Nagashima, T., Kato, H., Kase, M., Maguchi, S., Mizutani, Y., Matsuda, K., Chuma, T., Mano, Y., Goto, Y.-I., Minami, N., Nonaka, I. et Nagashima, K. (2000). Oculopharyngeal muscular dystrophy in a Japanese family with a short GCG expansion (GCG)_n in PABP2 gene. *Neuromuscular Disorders*, 10(3), 173–177. [https://doi.org/10.1016/S0960-8966\(99\)00104-2](https://doi.org/10.1016/S0960-8966(99)00104-2)

Neel, A. T., Palmer, P. M., Sprouls, G. et Morrison, L. (2015). Muscle weakness and speech in oculopharyngeal muscular dystrophy. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 58(1), 1–12. <https://doi.org/10.1044/2014-JSLHR-S-13-0172>

Palmer, P. M., Neel, A. T., Sprouls, G. et Morrison, L. (2010). Swallow characteristics in patients with oculopharyngeal muscular dystrophy. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 53(6), 1567–1578. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2010\)09-0068](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2010)09-0068)

- Plourde, A., Brais, B., Bouchard, N., Boulard, A., Carrière, M., Chouinard, M.-C., Gagnon, C., Larouche, A., Leclerc, N., Mathieu, J., Bouchard, P. et Murray, G. (s. d.). *La dystrophie musculaire oculopharyngée (DMOP)*. Dystrophie musculaire Canada. <https://muscle.ca/wp-content/uploads/2019/10/DystrophieMusculaireOculopharyngée-F.pdf>
- Raz, Y. et Raz, V. (2014). Oculopharyngeal muscular dystrophy as a paradigm for muscle aging. *Frontiers in Aging Neuroscience*, 6, 1–5. <https://doi.org/10.3389/fnagi.2014.00317>
- Shaker, R., Kern, M., Bardan, E., Taylor, A., Stewart, E. T., Hoffmann, R. G., Arndorfer, R. C., Hofmann, C. et Bonnevier, J. (1997). Augmentation of deglutitive upper esophageal sphincter opening in the elderly by exercise. *American Journal of Physiology - Gastrointestinal and Liver Physiology*, 272(6), 1518–1522. <https://doi.org/10.1152/ajpgi.1997.272.6.G1518>
- Tabor, L. C., K. Plowman, E., Romero-Clark, C. et Youssef, S. (2018). Oropharyngeal dysphagia profiles in individuals with oculopharyngeal muscular dystrophy. *Neurogastroenterology and Motility*, 30(4), Article e13251. <https://doi.org/10.1111/nmo.13251>
- Tung, J. D., Oh, S.-R., Gruber, A. B., Barton, J. J. S., Briemberg, H. R. et Kikkawa, D. O. (2011). The man who could not see what he could not eat. *Survey of Ophthalmology*, 56(5), 461–465. <https://doi.org/10.1016/j.survophthal.2010.11.007>
- Waito, A. A., Steele, C. M., Peladeau-Pigeon, M., Genge, A. et Argov, Z. (2018). A preliminary videofluoroscopic investigation of swallowing physiology and function in individuals with oculopharyngeal muscular dystrophy. *Dysphagia*, 33(6), 789–802. <https://doi.org/10.1007/s00455-018-9904-9>
- Werling, S., Schrank, B., Eckardt, A. J., Hauburger, A., Deschauer, M. et Müller, M. (2015). Oculopharyngeal muscular dystrophy as a rare cause of dysphagia. *Annals of Gastroenterology*, 28(2), 291–293. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC4367226/>
- Witting, N., Mensah, A., Køber, L., Bundgaard, H., Petri, H., Duno, M., Milea, D. et Vissing, J. (2014). Ocular, bulbar, limb, and cardiopulmonary involvement in oculopharyngeal muscular dystrophy. *Acta Neurologica Scandinavica*, 130(2), 125–130. <https://doi.org/10.1111/ane.12244>
- Young, E. C. et Durant-Jones, L. (1997). Gradual onset of dysphagia: A study of patients with oculopharyngeal muscular dystrophy. *Dysphagia*, 12(4), 196–201. <https://doi.org/10.1007/PL00009536>
- Youssef, S. (2016). The relationship between physical symptoms and health-related quality of life in oculopharyngeal muscular dystrophy. *Muscle & Nerve*, 53(5), 694–699. <https://doi.org/10.1002/mus.24932>
- Youssef, S., Romero-Clark, C., Warner, T. et Plowman, E. (2017). Dysphagia-related quality of life in oculopharyngeal muscular dystrophy: Psychometric properties of the SWAL-QOL instrument. *Muscle and Nerve*, 56(1), 28–35. <https://doi.org/10.1002/mus.25441>

Notes des auteur(e)s

Les demandes au sujet de cet article doivent être acheminées à Vincent Martel-Sauvageau, Université Laval, 1050, avenue de la médecine, bureau VND-4477, Québec, QC, Canada, G1V 0A6. Courriel : **Vincent.Martel-Sauvageau@fmed.ulaval.ca**

Déclaration

Les auteur(e)s déclarent n'avoir aucun conflit d'intérêts, financiers ou autres.

Annexe

Évaluation de la qualité méthodologique des articles															
Auteurs (année)	La question / l'objectif de recherche est-il suffisamment décrit?	Le devis de l'étude est-il clair et approprié?	La méthode de sélection des groupes ou la source des données analysées est-elle décrite et appropriée?	Les caractéristiques des participants sont-elles suffisamment décrites?	Les participants ont-ils été répartis dans les groupes de façon aléatoire, et si oui, la technique utilisée est-elle décrite?	Si une procédure à l'aveugle était possible pour les expérimentateurs, a-t-elle été utilisée?	Si une procédure à l'aveugle était possible pour les participants, a-t-elle été utilisée?	Les mesures expérimentales et les mesures d'exposition sont-elles bien définies et robustes?	La taille d'échantillon est-elle appropriée?	Les méthodes d'analyse sont-elles décrites et appropriées?	Est-ce qu'une estimation de la variance est rapportée pour les résultats principaux?	Les variables confondantes possibles ont-elles été contrôlées?	Les résultats sont-ils suffisamment détaillés?	Les résultats supportent-ils les conclusions posées?	Total (%)
Kurtz et al. (2019)	2	2	S.O.	2	2	S.O.	S.O.	2	2	2	S.O.	2	2	2	20/20 (100)
Tabor et al. (2018)	2	2	2	2	S.O.	2	S.O.	2	2	2	1	1	2	2	22/24 (92)
Chen et al. (2018)	0	2	S.O.	1	S.O.	S.O.	S.O.	S.O.	S.O.	S.O.	S.O.	1	2	2	8/12 (67)
Waito et al. (2018)	2	2	2	2	S.O.	2	S.O.	2	2	2	2	2	2	2	24/24 (100)
Neel et al. (2015)	2	2	0	2	S.O.	0	S.O.	2	2	2	2	S.O.	2	2	18/22 (82)
Youssof et al. (2017)	2	2	2	2	S.O.	S.O.	S.O.	0	2	2	2	S.O.	2	2	18/20 (90)

Évaluation de la qualité méthodologique des articles (suite)															
Brisson et al. (2020)	2	2	2	2	S.O.	S.O.	S.O.	S.O.	2	2	S.O.	1	S.O.	S.O.	17/18 (94)
Youssof (2016)	2	2	2	2	S.O.	S.O.	S.O.	2	2	2	2	2	2	2	22/22 (100)
Palmer et al. (2010)	2	2	2	2	S.O.	0	S.O.	2	2	2	2	1	2	2	21/24 (88)
Manjaly et al. (2012)	2	2	2	2	S.O.	S.O.	S.O.	2	2	2	2	1	2	2	21/22 (95)
Bumm et al. (2009)	1	2	2	2	S.O.	S.O.	S.O.	2	S.O.	2	S.O.	1	0	0	12/18 (67)
Krause-Bachand et Koopman (2008)	2	2	S.O.	2	1	S.O.	S.O.	2	2	2	S.O.	2	2	2	19/20 (95)
Kroon et al. (2020)	2	2	2	2	S.O.	S.O.	S.O.	2	S.O.	2	2	1	2	2	19/20 (95)
Nagashima et al. (2000)	2	2	2	2	S.O.	S.O.	S.O.	2	S.O.	1	S.O.	S.O.	2	2	15/16 (94)
Blumen et al. (2013)	1	2	2	1	S.O.	S.O.	S.O.	2	S.O.	1	S.O.	S.O.	1	2	12/16 (75)
Escudié et al. (2005)	0	2	1	2	S.O.	S.O.	S.O.	2	S.O.	1	S.O.	S.O.	2	1	11/16 (69)
Tung et al. (2011)	0	2	0	1	S.O.	S.O.	S.O.	1	S.O.	1	S.O.	S.O.	2	2	9/16 (56)
London et al. (2017)	2	2	1	2	S.O.	S.O.	S.O.	2	S.O.	1	S.O.	S.O.	1	2	13/16 (81)

Note. 2 = Oui; 1 = Partiellement; 0 = Non; S.O. = Sans objet pour l'étude.



La prise en charge des troubles du marquage grammatical du temps dans l'aphasie : une revue systématique



Treatment of Verb Tense Inflection Disorders in Aphasia: A Systematic Review

MOTS-CLÉS

APHASIE

TRAITEMENT

RÉFÉRENCE
TEMPORELLE

CONJUGAISON

MORPHOLOGIE
FLEXIONNELLE

Célia Ericson
Evodie Schaffner
Marion Fossard

Célia Ericson, Evodie
Schaffner et Marion Fossard

Institut des Sciences
logopédiques, Université de
Neuchâtel, Neuchâtel, SUISSE

Abrégé

Après un accident vasculaire cérébral, il n'est pas rare que les personnes souffrant d'aphasie présentent des difficultés de référence temporelle par l'usage de la morphologie flexionnelle verbale. Un tel déficit engendre un défi majeur lors de la communication, car il ne permet pas à la personne aphasique de situer dans le temps (passé, présent, futur), à travers la flexion des verbes, les événements qu'il relate, et ce, même plusieurs années après la lésion cérébrale. La mise en place d'un traitement adapté est donc indiquée, mais les pistes de prise en charge sont peu nombreuses et leur efficacité n'est pas toujours mesurée de manière approfondie. Dans le cadre de cette étude, une recension systématique a été menée afin de répondre à trois objectifs : (a) présenter et résumer les études ayant proposé des traitements visant l'amélioration du marquage grammatical de la référence temporelle chez des individus devenus aphasiques consécutivement à un accident vasculaire cérébral; (b) identifier le ou les processus sous-jacents entraînés; (c) examiner l'efficacité immédiate et à long terme de ces traitements ainsi que la généralisation à d'autres contextes. Trois bases de données ont été explorées et 11 études, regroupant trois types de traitements (phonologique, sémantique et mixte), ont été recensées et analysées. Les résultats indiquent que les traitements de type sémantique et mixte sont les plus efficaces pour améliorer le marquage grammatical du temps dans des tâches entraînées. Le transfert à des contextes plus écologiques et le maintien des acquis dans le temps sont plutôt favorisés par les traitements de type sémantique.

Rédactrice :
Karine Marcotte

Rédacteur en chef :
David H. McFarland

Abstract

After a stroke, some people with aphasia have difficulties using inflectional morphology of verbs to refer to time (past, present, future). Such a deficit creates a major challenge in communication because it does not allow the person with aphasia to situate the events that they relate in time through verbal inflection, and this can persist several years after the brain injury. Therefore, an adapted treatment is indicated, but such treatments are few and their effectiveness is not always thoroughly measured. In this study, a systematic review was conducted to address three objectives: (a) outline and summarize studies that have proposed treatments to improve grammatical time marking by people with aphasia following stroke, (b) identify the underlying processes involved, and (c) examine immediate and long-term efficacy of these treatments and generalizability to other settings. Three databases were searched and 11 studies were identified and analyzed, grouping three types of treatments (phonological, semantic, and mixed). The results indicate that semantic and mixed treatments are the most effective in improving grammatical marking of tense in trained tasks. Transfer to natural contexts and maintenance of learning over time were highest with semantic treatments.

La notion de temporalité est essentielle à l'être humain pour structurer ses expériences. D'un point de vue linguistique, la temporalité s'exprime principalement par des marqueurs temporels (adverbiaux et désinence verbale¹) décrivant les événements selon trois points de référence sur l'axe temporel : le passé, le présent et le futur. Ces marqueurs temporels permettent ainsi de situer les événements du discours comme étant simultanés (présent), précédant (passé) ou suivant (futur) le moment d'énonciation (Reichenbach, 1947). La désinence verbale de temps est l'un des principaux moyens qu'un grand nombre de langues, dont le français, exploite afin de permettre la localisation d'événements sur l'axe temporel. En français, la désinence verbale exprime le temps (passé, présent, futur), mais également l'aspect grammatical pour les temps du passé, soit la manière d'exprimer un procès comme achevé (ex. il a mangé) ou en cours (ex. il mangeait).

Bien que la référence au temps par la flexion des verbes se fasse pour la majorité des gens de manière automatisée, elle représente un aspect fréquemment atteint chez les personnes devenues aphasiques à la suite d'un accident vasculaire cérébral (post-AVC). Un tel déficit a principalement été décrit lors d'aphasies non fluentes (Bastiaanse, 2013; Bastiaanse et al., 2011; Clahsen et Ali, 2009; Faroqi-Shah et Dickey, 2009), mais a également été reconnu lors d'aphasies fluentes (Auclair-Ouellet et al., 2019; Edwards, 2005; Ericson, 2020; Fyndanis et al., 2018) ainsi que dans la maladie d'Alzheimer (Cortese et al., 2006; Walenski et al., 2009).

Le verbe occupe un rôle central pour l'informativité des phrases puisqu'il transmet des informations sémantiques et syntaxiques essentielles. De ce fait, les erreurs de flexions peuvent perturber la structure de la phrase et, par conséquent, nuire à l'informativité du discours (Bastiaanse et al., 2006). Il a d'ailleurs été montré que la capacité de production de verbes est un meilleur prédicteur que la production de noms pour évaluer les compétences communicatives des participants et participantes aphasiques (Rofes et al., 2015).

Ces trois dernières décennies, les erreurs en morphologie verbale ont suscité beaucoup d'intérêt dans le domaine de la recherche et plusieurs modèles psycholinguistiques et hypothèses ont vu le jour. Toutefois, la grande majorité de ces travaux a été fondée sur des recherches s'intéressant principalement à la conjugaison de l'anglais avec des patrons de conjugaison uniques (-ed pour le passé; -will + infinitif pour le futur) rendant compte de la grande majorité des verbes, les autres patrons étant utilisés de manière plutôt erratique. Ainsi, ces modèles et

hypothèses ne sont pas toujours applicables à d'autres langues ayant une morphologie plus complexe, comme le français (Auclair-Ouellet, 2015).

Qu'ils soient cognitivistes (c.-à-d. modèles dualistes [Pinker, 1998; Ullman et al., 1997]) ou connexionnistes (Joanisse et Seidenberg, 1999; McClelland et Patterson, 2002; Rumelhart et McClelland, 1986), la plupart des modèles s'intéressant à la flexion verbale soutiennent que les difficultés de flexion sont propres au type d'aphasie et résultent de perturbations des processus dits de *bas niveau*, soit au niveau de l'encodage morphophonologique de la forme verbale. Ainsi, les difficultés découleraient principalement d'un déficit phonologique général ou d'un déficit d'affixation (processus d'encodage morphophonologique qui consiste à concaténer une base verbale et un ou plusieurs affixes). Plus spécifiquement, les modèles dualistes proposent que l'« aire de Broca » soit responsable de la mise en exécution des règles de morphologie régulière (Clahsen, 1999; Pinker, 1998; Ullman et al., 1997). Étant donné leur localisation lésionnelle, les aphasies non fluentes seraient ainsi caractérisées par des déficits plus importants en flexion de verbes réguliers par rapport aux verbes irréguliers, alors que lors d'aphasies fluentes, le patron inverse serait observé (Tyler et al., 2002; Ullman, 2004, 2005, 2016; Ullman et al., 1997). Les modèles connexionnistes, quant à eux, proposent un continuum phonologico-sémantique avec une plus grande dépendance au traitement phonologique pour les verbes réguliers et une plus grande implication des mécanismes sémantiques pour les verbes irréguliers (Braber et al., 2005; Joanisse et Seidenberg, 1999; McClelland et Patterson, 2002; Rumelhart et McClelland, 1986). Ainsi, les personnes présentant une aphasie non fluente, caractérisée par une atteinte phonologique marquée, auraient plus de difficultés à fléchir les verbes réguliers (Bird et al., 2003; Braber et al., 2005; Joanisse et Seidenberg, 1999). Cependant, ce patron n'est pas absolu étant donné que les personnes présentant un déficit phonologique ne produisent pas toutes des erreurs morphologiques (Miceli et al., 2004). De plus, loin d'être systématique, cette dichotomie stricte entre verbes réguliers et irréguliers n'a pas toujours pu être reproduite et a été critiquée (Auclair-Ouellet et al., 2019; Patterson et Holland, 2014; pour une méta-analyse, voir Faroqi-Shah, 2007).

D'après les modèles dualistes et connexionnistes, les opérations sémantiques et syntaxiques qui précèdent l'encodage morphophonologique seraient relativement épargnées. Pourtant, il a été démontré que lors d'atteinte phasique, la morphologie verbale est sélectivement plus altérée lorsqu'elle fait référence à des concepts sémantiques tels que le temps, que lorsqu'elle marque

¹ morphème flexionnel lié au verbe

des règles syntaxiques telles que l'accord sujet-verbe (Arabatzis et Edwards, 2002; Faroqi-Shah et Dickey, 2009; Faroqi-Shah et Thompson, 2007; Friedmann et Grodzinsky, 1997; Kok et al., 2007; Wenzlaff et Clahsen, 2004). En d'autres termes, certaines personnes aphasiques auraient de la difficulté à traduire l'information conceptuelle en morphème lié au verbe (Bastiaanse, 2008; Burchert et al., 2005). Cette difficulté accrue lors de l'expression de notions sémantiques, telles que le temps, serait expliquée par la charge nécessaire au traitement de l'intention conceptuelle qui s'ajouterait à celle de la formulation syntaxique (Avrutin, 2000).

Certaines études postulent ainsi que les erreurs de flexion temporelle résultent d'une atteinte située en amont dans le modèle, c'est-à-dire au niveau des processus préphonologiques ou morphosémantiques. Partant de modèles de la production du langage (Bock et Levelt, 1994; Levelt et al., 1999), Faroqi-Shah et Thompson (2003, 2004, 2007) ont proposé l'hypothèse *Diacritical Encoding and Retrieval* (DER) qui situe l'origine des difficultés de flexion temporelle non pas au niveau de l'affixation, mais au niveau des traits diacritiques (paramètres grammaticaux traduisant des informations conceptuelles en une représentation tangible telle que les morphèmes flexionnels). Par exemple, en français, le verbe « chanter » sera réalisé phonologiquement comme « chante », « chantait » ou « chantera » selon le paramétrage des traits diacritiques de temps (« présent », « passé » ou « futur »). Ces derniers étant identiques pour les verbes réguliers et irréguliers, des difficultés équivalentes sont attendues pour les deux types de verbes. En effet, selon les auteures, les erreurs de flexion verbale découleraient d'un défaut de paramétrage des traits diacritiques : l'affixe verbal récupéré ne correspondrait pas aux caractéristiques encodées par le message conceptuel (Faroqi-Shah et Thompson, 2004, 2007). Ainsi, dans le cas d'un déficit d'emploi des traits diacritiques de temps, le participant ou la participante produirait un temps verbal erroné à la place d'un temps verbal adéquat avec lequel il serait en compétition (Faroqi-Shah, 2007).

De manière plus spécifique, certains travaux mettent en évidence des difficultés accrues pour le trait diacritique de temps faisant référence au passé par rapport à ceux référant au présent et au futur (Bastiaanse et al., 2011; Bos et Bastiaanse, 2014; Bos et al., 2014; Dragoy et Bastiaanse, 2013; Jonkers et de Bruin, 2009; Kljajevic et Bastiaanse, 2011; Koukouloti et Bastiaanse, 2020). La *PAst Discourse Linking Hypothesis* (PADILIH) explique cette dissociation entre les différents temps verbaux par la charge cognitive accrue nécessaire pour la référence au passé en raison d'un « lien référentiel » (c.-à-d. la relation devant être faite lorsque le

point de la parole et le point de l'événement ne coïncident pas [Zagona, 2003]) qui doit être établi au niveau du discours pour les temps du passé (Bastiaanse, 2008, 2013). Ce « lien référentiel » n'est pas nécessaire pour la référence au présent (le point de la parole et le point de l'événement coïncident) ni pour la référence au futur, laquelle est analysée comme une sous-classe du présent en vertu du fait qu'une référence à un événement futur ne peut pas être faite, l'événement n'ayant pas encore eu lieu (Zagona, 2003, 2013). D'après plusieurs études, les patrons d'erreurs diffèrent selon le type d'aphasie : les participants et participantes avec une aphasie non fluente produiraient de manière prédominante des erreurs de substitutions en dehors du cadre temporel de la cible (c.-à-d. que les formes verbales du passé seraient remplacées par les formes verbales du présent; Bastiaanse, 2008; Bastiaanse et al., 2011; Bos et Bastiaanse, 2014; Dragoy et Bastiaanse, 2013; Jonkers et de Bruin, 2009; Kljajevic et Bastiaanse, 2011), alors que les participants et participantes avec une aphasie fluente feraient majoritairement des erreurs dans le cadre temporel de la cible (c.-à-d. que le temps imperfectif du passé serait remplacé par le temps perfectif du passé; Bos et Bastiaanse, 2014; Kljajevic et Bastiaanse, 2011). Toutefois, d'autres auteurs proposent que ce lien référentiel au niveau du discours ne serait pas restreint aux événements passés, mais qu'il serait aussi nécessaire lors de la projection d'événements futurs. Ainsi, les personnes aphasiques présenteraient également des difficultés accrues lors de la référence au futur en comparaison aux temps du présent (Burchert et al., 2005; Dickey et al., 2008; Faroqi-Shah et Dickey, 2009; Faroqi-Shah et Friedman, 2015; Faroqi-Shah et Thompson, 2004, 2007; Fyndanis et al., 2018; Nerantzini et al., 2020; Wenzlaff et Clahsen, 2004).

Les différents modèles présentés se focalisent sur certains éléments impliqués dans le marquage grammatical de la référence temporelle tels que la régularité des formes verbales (modèles dualistes et connexionnistes), les traits diacritiques (hypothèse *Diacritical Encoding and Retrieval*) ou le temps de référence (*PAst Discourse Linking Hypothesis*). Néanmoins, aucun de ces modèles ne fait l'unanimité quant à la localisation de l'origine fonctionnelle des troubles du marquage grammatical de la référence temporelle. Au vu des variabilités interindividuelles de chaque cas clinique (Beeson et Robey, 2006; Faure et Blanc-Garin, 1995), il est bien probable qu'il n'existe pas qu'une seule et unique origine fonctionnelle responsable des déficits en morphologie flexionnelle verbale, mais bien différentes origines en fonction de l'atteinte phasique.

Une façon de s'intéresser aux différentes origines fonctionnelles des déficits est d'examiner les effets d'une prise en charge conçue spécifiquement pour remédier à un ou plusieurs processus qui seraient « déficients ». L'hypothèse étant qu'un traitement qui cible directement le déficit sous-jacent est plus susceptible de produire des gains significatifs en matière de traitement et de généralisation, par rapport à un traitement qui ne cible pas la source sous-jacente des erreurs (Coppens et Patterson, 2017; Faroqi-Shah, 2008).

Ainsi, il serait pertinent de regarder de plus près les effets d'un traitement spécifique chez des personnes aphasiques en phase chronique. Le facteur de chronicité est intéressant dans la mesure où il permet de limiter l'effet de la récupération spontanée, attestant ainsi de l'efficacité d'une prise en charge adaptée.

La plupart des études s'intéressant à la prise en charge de la production des verbes en aphasiologie se sont concentrées sur l'amélioration de la récupération lexicale des verbes et de la structure des phrases (Faroqi-Shah et Baker, 2017; Poirier et al., 2021). Toutefois, quelques études se sont penchées sur la prise en charge des troubles du marquage grammatical du temps dans l'aphasie. Une récente revue systématique de la littérature (Valinejad et al., 2022) s'est notamment intéressée aux traitements de la morphologie verbale du temps chez les participantes et participants aphasiques non fluents souffrant d'un agrammatisme. Bien que les auteurs de cette revue présentent différentes prises en charge conçues pour remédier aux troubles du marquage grammatical du temps lors d'aphasie non fluente, aucune relation n'a été faite entre les processus « déficients » qui seraient responsables des difficultés en flexion verbale et la prise en charge de ces troubles.

Une prise en charge orthophonique adaptée et individualisée en fonction de l'origine fonctionnelle des difficultés rencontrées devrait pouvoir être proposée à chaque participant ou participante, et ce, afin d'améliorer sa qualité de vie « communicationnelle ». La principale question de recherche à laquelle nous répondons dans le cadre de cette recension est donc de savoir quels types de thérapie adopter pour maximiser l'efficacité (transfert à d'autres contextes, maintien) d'une thérapie axée sur le marquage grammatical du temps chez des personnes aphasiques post-AVC en phase chronique.

Plus précisément, la présente revue de littérature vise à répondre à trois objectifs spécifiques (a) présenter et résumer les études ayant proposé des traitements visant l'amélioration du marquage grammatical de la référence

temporelle chez des personnes aphasiques (fluentes et non fluentes); (b) identifier le ou les processus sous-jacents entraînés lors des différentes thérapies proposées; (c) examiner l'efficacité immédiate et à long terme de ces traitements ainsi que leur généralisation à d'autres contextes.

Méthode

La présente recension s'est inspirée des lignes directrices de la déclaration du *Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses* (PRISMA; Page et al., 2021) et du *Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses literature search extension* (PRISMA-S; Rethlefsen et al., 2021) pour la rédaction de recensions systématiques d'études évaluant l'efficacité d'interventions en santé.

Stratégie de recherche

Trois bases de données ont été consultées : *PubMed* (NCBI), *Scopus* et *speechBITE*. Une recherche documentaire exhaustive a été initialement effectuée le 8 mars 2021, puis mise à jour le 15 janvier 2022.

Des mots-clés relatifs à la rééducation, à la cible du traitement et à la population concernée ont été utilisés et combinés de la manière suivante : (rehabilitati* OR readaptation OR reeducation OR training OR intervention OR treatment OR therapy OR remediati* OR recovery) AND (morpholog* OR {verb production} OR {verb tense} OR tense OR {verb* inflection} OR {tense morphology} OR inflection) AND (aphasi* OR agrammati* OR paragrammati*). Les troncations et les termes MeSH (c.-à-d. *Medical Subject Headings* destinés à l'indexation d'articles scientifiques) ont été personnalisés en fonction des particularités de chaque base de données. La recherche systématique a été limitée aux articles rédigés en anglais ou en français. Aucune restriction concernant la date de publication, le statut de publication, le type de mesures d'efficacité, la sévérité de l'aphasie ou le type d'aphasie n'a été appliquée.

Des recherches complémentaires ont été effectuées dans *Google Scholar* afin d'identifier d'autres études qui n'auraient pas été identifiées par la consultation des bases de données et qui répondraient aux critères d'admissibilité décrits dans le **tableau 1**.

Sélection des études et extraction des données

Une fois les références identifiées par les bases de données exportées dans un fichier Excel, les doublons ont été supprimés manuellement par la première auteure.

La première phase de sélection a consisté en la lecture sélective des titres et des résumés pour vérifier la

Tableau 1		
Critères d'admissibilité considérés dans la recension systématique		
Critères de sélection	Inclusion	Exclusion
Population	Sujets aphasiques chroniques post-AVC	Sujets présentant d'autres pathologies (p. ex. dégénératives, traumatismes craniocérébraux, tumeurs, handicaps psychiatriques)
Intervention	Thérapies ciblant le traitement du marquage grammatical de la référence temporelle (incluant la remédiation d'au moins 2 temps verbaux)	Thérapies ciblant d'autres déficits langagiers (p. ex. récupération du verbe, structure de la phrase) Traitements médicamenteux, chirurgicaux ou incluant des techniques d'électrostimulation cérébrale
Types de manuscrits	Études expérimentales (prétests, post-tests et groupes contrôles) Études quasi expérimentales (conditions de comparaison ou de contrôle)	Recensions d'écrits Rapports de conférences
Langues de publication	Anglais et français	Autres langues

Note. AVC = Accident vasculaire cérébral.

pertinence des articles par rapport aux critères d'inclusion et d'exclusion présentés dans le **tableau 1**. Dans un second temps, la lecture du texte intégral a permis d'exclure les articles ne répondant pas précisément aux critères d'admissibilité. Ces deux étapes du processus de sélection pour les 371 études conservées ont fait l'objet d'une analyse indépendante par deux examinatrices. Les désaccords ont été résolus par discussion entre les deux examinatrices.

Les données relatives aux caractéristiques des participants, au design expérimental, aux modalités du traitement, ainsi qu'à l'efficacité du traitement ont été extraites à l'aide d'un tableau d'extraction standardisé. Lorsque ces informations n'étaient pas clairement identifiables, elles étaient considérées comme non rapportées.

Évaluation de la qualité méthodologique et de la force de l'évidence

La qualité méthodologique de chaque étude a été évaluée indépendamment par deux examinatrices à l'aide de l'échelle *Single-Case Experimental Design* (SCED; Tate et al., 2008) permettant de valider l'effet d'une thérapie portant sur un ou plusieurs sujets, en fonction : (a) des comportements cibles; (b) de la conception de l'étude; (c) des mesures de base avant le traitement; (d) de l'échantillonnage des comportements durant la thérapie; (e) des données brutes obtenues; (f) de la fiabilité inter-évaluateurs; (g) de l'indépendance des évaluateurs; (h) des analyses statistiques; (i) de la réplication de l'étude et (j) de la généralisation à des éléments non entraînés ou à d'autres

domaines associés à la vie du participant. La qualité méthodologique a été définie selon le score à l'échelle *Single-Case Experimental Design* comme : *rigoureuse* (c.-à-d. 8 à 10/10), *moyenne* (c.-à-d. 5 à 7/10) ou *faible* (c.-à-d. 1 à 4/10) (Health Evidence, 2018).

Pour chaque traitement, la force de l'évidence a été déterminée selon les critères de Briss et al. (2000), qui suggèrent un niveau de force pour un ensemble d'études en fonction de leur qualité méthodologique et de la pertinence de leur conception. La force des preuves d'un traitement est jugée *forte* s'il existe au moins deux études dont l'exécution et la conception conviennent; *suffisante* s'il n'existe qu'une seule étude dont l'exécution et la conception conviennent; *avis d'expert* si la qualité de l'exécution et de la conception varie; ou *insuffisante* s'il n'y a pas assez d'études et si les conceptions ou les exécutions sont insuffisantes.

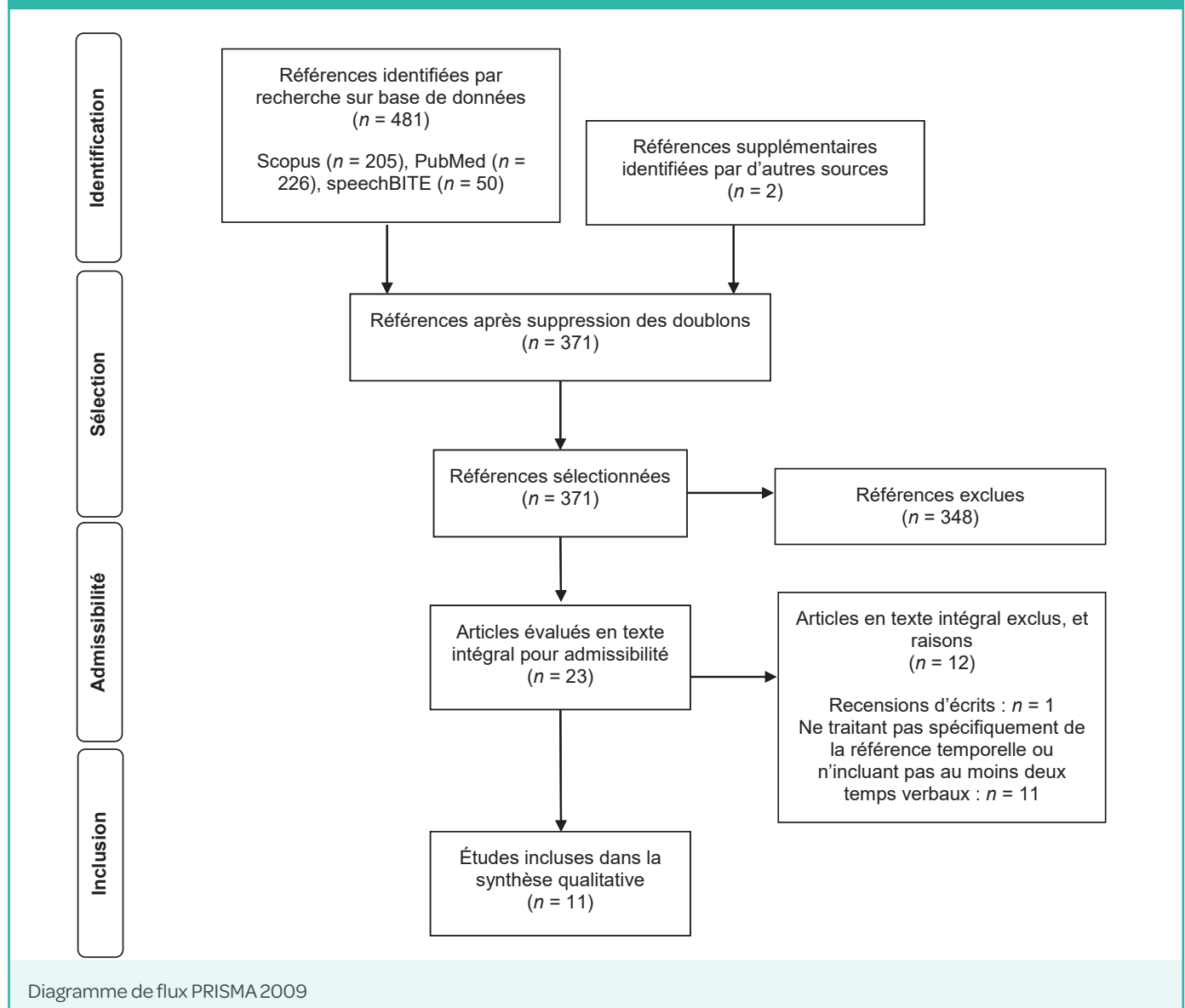
Résultats

Les recherches dans les bases de données ainsi que dans d'autres sources ont permis d'identifier 483 références. Après suppression des doublons ($n = 112$), la lecture du titre et des résumés a permis d'exclure 348 références qui ne répondaient pas aux critères d'admissibilité. Finalement, la lecture intégrale du texte a permis de retenir 11 études (voir la **figure 1**).

Caractéristiques des études

Les caractéristiques des 11 études recensées sont rapportées dans le **tableau 2**. Les traitements impliquent un total de 30 participantes et participants atteints

Figure 1



Note. Traduction française originale, tirée de Gedda (2015)

d'aphasie en phase chronique (>1 année post-AVC; une même personne EA a participé à 4 des 11 études recensées). Vingt-sept participantes et participants présentent une forme d'aphasie non fluente, alors que trois souffrent d'aphasie fluente. La grande majorité des études (8/11) concernent des participantes et participants anglophones, alors que deux études (Dashti et al., 2018; 2021) ont été menées sur des participantes et participants persanophones et une étude (Wieczorek et al., 2011) sur des germanophones.

Chaque étude a utilisé des tests langagiers afin d'évaluer les troubles phasiques des personnes, mais

moins de la moitié des études (5/11) ont attesté des capacités initiales en morphologie flexionnelle verbale en utilisant un test de flexion de verbes. Quatre études ont évalué les compétences en morphologie flexionnelle verbale dans des tâches de discours, en calculant les ratios de verbes fléchis ainsi que de diversité et de précision des temps. Toutefois, bien que ces évaluations apportent une indication sur les capacités en morphologie flexionnelle verbale des participants et participantes, elles ne permettent pas de localiser de manière précise l'origine sous-jacente de ces troubles (c.-à-d. : déficit au niveau de l'encodage de l'information temporelle et/ou perturbation dans la sélection des traits

Tableau 2

Caractéristiques des traitements rapportés dans les études incluses dans la revue systématique

Référence	Participant(s)		Évaluation des capacités initiales en morphologie flexionnelle verbale	Traitement		Temps verbaux entraînés	Intensité		
	Nombre et type d'aphasie	Délai post-AVC		Type	Nom ^a		Fréquence (sessions par semaine)	Durée par session	Nombre total de sessions
Mitchum et al. (1993)	1 NF	> 6 ans	-	M	Construction du « cadre » grammatical	PA, PR, FU	-	2 h	7
Mitchum et Berndt (1994)	1 F	> 7 ans	-	M	Construction du « cadre » grammatical	PA, PR, FU	-	2 h	10
Weinrich et al. (1997)	3 NF	> 3 ans	-	M	C-VIC	PA, PR, FU	1 à 2	-	13 à 15
Weinrich et al. (1999)	1 NF	> 13 ans	-	M	C-VIC	PA, PR, FU	2	1 h	24 puis 32
Boser et al. (2000)	1 NF	> 13 ans	-	M	C-VIC	PA, PR, FU	2	1 h	24
Wieczorek et al. (2011)	2 F, 2 NF	1,5 à 6,1 ans	-	M	Traitement du temps en production orale	PA, PR, FU	5	30 min	10
Faroqi-Shah et Virion (2009)	2 NF	2 et 4,9 ans	discours narratif (BDAE ^b); <i>Verb Inflection Test</i> ^c	M	CILT	PA, PR, FU	-	2 à 3 h	10
Faroqi-Shah (2008)	2 NF	1 et 9 ans	discours narratif (BDAE ^b); séquences imagées ^d ; <i>Verb Inflection Test</i> ^c	P	Traitement morphophonologique	PA, PR, FU	4 à 5	1 à 2 h	12 à 18

Tableau 2 (suite)

Faroqi-Shah (2008)	3 NF	3 et 6 ans	discours narratif (BDAE ^b); séquences imagées ^d ; <i>Verb Inflection Test</i> ^c	S	Traitement morphosémantique	PA, PR, FU	4 à 5	1 à 2 h	12 à 18
Faroqi-Shah (2013)	6 NF	1,3 à 7 ans	discours narratif (BDAE ^b); séquences imagées ^d ; <i>Verb Inflection Test</i> ^c	S	Traitement morphosémantique	PA, PR, FU	4	1 à 2 h	24
Dashti et al. (2018)	2 NF	1 et 4 ans	<i>Verb Inflection Test</i> ^c	S	Traitement morphosémantique	PA, PR	3 à 4	30 à 45 min	15
Dashti et al. (2021)	4 NF	1 à 13 ans	discours narratif (BAT ^e); <i>Verb Inflection Test</i> ^c	S	Traitement morphosémantique	PA, PR, FU	3 à 4	30 à 45 min	15

Note. AVC = Accident vasculaire-cérébral; NF = non-fluent; F = fluent; - = données manquantes; M = mixte; P = phonologique; S = sémantique; PA = passé; PR = présent; FU = futur; C-VIC = Communication visuelle informatisée; CILT = Thérapie de groupe par la contrainte; BDAE = Boston Diagnostic Aphasia Examination; BAT = The assessment of bilingual aphasia.

^a Le nom des traitements provient de l'étude ou, lorsqu'il n'était pas défini, celui-ci a été nommé d'après son objectif par les auteures de cette revue; ^b *Boston Diagnostic Aphasia Examination* (Goodglass et al., 2000); ^c créé par les auteurs (non-publié); ^d *Narrative Story Cards* (Helm-Estabrooks et Nicholas, 2003); ^e *The assessment of bilingual aphasia* (Paradis et Libben, 2014).

diacritiques de temps et/ou déficit de sélection/récupération de la forme verbale appropriée et/ou déficit d'affixation).

Concernant les stimuli de traitement et d'évaluation, 10 des 11 études recensées incluent les références temporelles du passé, du présent et du futur, alors qu'une étude se focalise uniquement sur les temps du passé et du présent (Dashti et al., 2018). La plupart des études ont entraîné, pour chaque participant ou participante, les verbes réguliers et irréguliers, sauf les études de Faroqi-Shah (2008, 2013) qui ont entraîné un seul type de verbe (régulier ou irrégulier) pour chaque participant ou participante afin d'étudier une possible généralisation au type de verbe non entraîné.

En ce qui concerne l'intensité des prises en charge, la fréquence des traitements varie entre les études et oscille entre 1 à 5 sessions hebdomadaires. Le nombre total de séances pour chaque traitement se situe entre 10 à 32 séances d'une durée de 30 minutes à 3 heures.

Processus sous-jacents entraînés

Des traitements similaires ont été reproduits dans plusieurs études. Au total, six traitements distincts ont été recensés (Faroqi-Shah, 2008 a inclus deux traitements dans son étude) : *traitement morphosémantique* (4 études); *communication visuelle informatisée* (Computer-Based Visual Communication [C-VIC], 3 études); *construction du « cadre » grammatical* (2 études); *traitement du temps en production orale* (1 étude); *thérapie de groupe par la contrainte* (Constraint-Induced Language Therapy [CILT], 1 étude); *traitement morphophonologique* (1 étude). Les prises en charge ont majoritairement été menées en contexte individuel à l'exception du traitement *CILT* qui est une thérapie de groupe.

Les traitements rapportés varient en fonction des processus travaillés et peuvent être classés selon trois types : phonologique, sémantique ou mixte. Les traitements de type phonologique visent spécifiquement la remédiation des processus dits de *bas niveau* (alliés à la théorie de l'encodage

morphophonologique de la forme du mot) en mettant l'accent sur la production orale des flexions verbales en contexte de mots isolés. Les traitements de type sémantique engagent des processus dits de *haut niveau* en se concentrant sur les caractéristiques sémantiques (référence temporelle) véhiculées par la flexion des verbes dans des contextes de phrases (sans la nécessité de recourir à la production orale). Enfin, les traitements de type mixte allient des pratiques de production orale (morphophonologie) et de structure de phrase (morphosyntaxe et morphosémantique). Sur les six traitements identifiés, quatre sont mixtes, un est sémantique et un est phonologique.

Qualité méthodologique des études et force des preuves

La majorité des études (7/11) sont des études de cas multiples comprenant de deux à six participants et

participantes alors que quatre travaux sont des études de cas unique. Une synthèse de la qualité méthodologique des études et de la force des évidences des résultats pour chaque traitement étudié est présentée dans le **tableau 3**.

L'évaluation de la qualité méthodologique des études incluses a montré une bonne qualité des méthodes dans l'ensemble. La qualité de l'exécution de l'étude a été jugée *rigoureuse* dans huit études et *moyenne* dans trois études. La limite méthodologique la plus répandue était l'indépendance des évaluateurs qui était absente ou non reportée dans l'ensemble des études.

La force des preuves a été jugée *forte* pour trois traitements (*construction du « cadre » grammatical; C-VIC; traitement morphosémantique*). Les autres traitements ne disposaient pas d'un nombre suffisant d'études

Tableau 3						
Qualité méthodologique des études et force des preuves des résultats pour chaque traitement						
Référence	Méthode de recherche	Qualité de la méthode ^a	Type de traitement	Nom du traitement ^b	Nombre de participant(e)s	Force des preuves
Mitchum et al. (1993)	Cas unique	Rigoureuse	M	Construction du « cadre » grammatical	1	Forte
Mitchum et Berndt (1994)	Cas unique	Rigoureuse	M	Construction du « cadre » grammatical	1	Forte
Weinrich et al. (1997)	Cas multiples	Moyenne	M	C-VIC	3	Forte
Weinrich et al. (1999)	Cas unique	Moyenne	M	C-VIC	1	Forte
Boser et al. (2000)	Cas unique	Rigoureuse	M	C-VIC	1	Forte
Wieczorek et al. (2011)	Cas multiples	Rigoureuse	M	Traitement du temps en production orale	4	Suffisante
Faroqi-Shah et Virion (2009)	Cas multiples	Moyenne	M	CILT	2	Avis d'expert
Faroqi-Shah (2008)	Cas multiples	Rigoureuse	P	Traitement morphophonologique	2	Suffisante
Faroqi-Shah (2008)	Cas multiples	Rigoureuse	S	Traitement morphosémantique	3	Forte
Faroqi-Shah (2013)	Cas multiples	Rigoureuse	S	Traitement morphosémantique	6	Forte
Dashti et al. (2018)	Cas multiples	Rigoureuse	S	Traitement morphosémantique	2	Forte
Dashti et al. (2021)	Cas multiples	Rigoureuse	S	Traitement morphosémantique	4	Forte

Note. M = mixte; P = phonologique; S = sémantique; C-VIC = communication visuelle informatisée; CILT = thérapie de groupe par la contrainte; SCED = Single-Case Experimental Design.

^a Basé sur l'échelle SCED (Tate et al., 2008) et Health Evidence (2018); ^b le nom des traitements provient de l'étude ou, lorsqu'il n'était pas défini, celui-ci a été nommé d'après son objectif par les auteurs de cette revue.

reproduisant le même traitement ou les études appliquant ces traitements avaient une qualité méthodologique jugée *modérée*. Ainsi, la force des preuves a été jugée *suffisante* pour deux traitements (*traitement du temps en production orale; traitement morphophonologique*) et *d'avis d'expert* pour un traitement (*CILT*).

Efficacité des thérapies

En ce qui concerne l'efficacité des thérapies, différentes mesures ont été rapportées dans les études analysées. Les principales étaient : les gains sur les items entraînés; la généralisation aux items non entraînés; le transfert à d'autres contextes (discours narratif/spontané); et le maintien des acquis. Les gains sur les items entraînés ont été mesurés dans chaque étude. La généralisation aux items non entraînés a été mesurée dans la quasi-totalité des études (10/11). Les autres mesures d'efficacité ont été rapportées dans la quasi-moitié des études (transfert à d'autres contextes : 5/11; maintien des gains acquis : 6/11). Pour certaines études, les gains aux items entraînés et/ou non entraînés ont été décrits par référence temporelle et/ou en fonction de leur régularité pour les temps du passé.

Le **tableau 4** indique le nombre de participantes et participants et les améliorations notées pour chacune des mesures utilisées dans chaque étude. Dans l'ensemble, l'efficacité en matière de : gains aux items entraînés est de 90 % (27/30 participants et participantes); généralisation aux items non entraînés est de 85,7 % (24/28 participants et participantes); transfert de la précision des temps à d'autres contextes est de 22,2 % dans le discours narratif (4/18 participants et participantes) et de 0 % dans le discours spontané (0/7 participants et participantes); maintien des gains acquis est de 88,9 % (16/18 participants et participantes).

Plus spécifiquement, les prises en charge de type mixte ont induit des améliorations significatives pour les items entraînés et non entraînés (sauf pour l'étude de Wiczorek et al. 2011, dans laquelle seuls 50 % des participants et participantes se sont améliorés sur les items non entraînés). Le maintien des acquis n'est pas assuré (seulement 1 participant ou participante sur 3 maintient les acquis à 1 an) et le transfert à d'autres contextes (mesuré pour 3 participants et participantes) n'a pu être démontré.

Les prises en charge de type sémantique, quant à elles, ont permis des améliorations significatives pour les items entraînés et non entraînés avec un maintien systématique des acquis dans le temps (de 3 semaines à 2,5 mois). Toutefois, le transfert à d'autres contextes est incertain (4 participants et participantes sur 13 se sont améliorés

significativement pour la précision des temps dans le discours narratif et 0/4 dans le discours spontané).

Finalement, la prise en charge de type phonologique n'a permis d'objectiver aucun progrès significatif que ce soit pour les items entraînés, non entraînés ou dans le discours narratif.

Discussion

La présente revue de littérature avait pour objectifs (a) de présenter et de résumer les études ayant proposé des traitements visant l'amélioration du marquage grammatical de la référence temporelle chez des individus devenus aphasiques, (b) d'identifier le ou les processus sous-jacents entraînés et (c) d'examiner l'efficacité immédiate et à long terme de ces traitements ainsi que la généralisation à d'autres contextes. De manière générale, presque toutes les études ont montré la possibilité d'améliorer le marquage grammatical du temps chez des individus aphasiques non fluents et fluents.

Gains sur les items entraînés

Au vu des résultats de cette recension, les prises en charge visant l'amélioration du marquage grammatical de la référence temporelle conduisent à une amélioration des items entraînés (90 % des participants et participantes ont montré des gains). Deux études, de type mixte, ont spécifié que les gains observés sur les items entraînés sont identiques pour les trois temps de référence (Mitchum et Berndt, 1994) et indépendants de la régularité des formes verbales au passé (Weinrich et al., 1999). Ces résultats sont difficilement compatibles avec l'hypothèse de Bastiaanse (2008), selon laquelle seule la référence au passé est altérée dans l'aphasie. L'altération des trois temps de référence est en revanche cohérente avec l'hypothèse d'un déficit de temps généralisé (Burchert et al., 2005; Thompson et al., 2003; Wenzlaff et Clahsen, 2004).

Seuls 3 des 30 participants et participantes ne se sont pas améliorés pour les items entraînés. Dans l'étude de Wiczorek et al. (2011), 1 personne, souffrant d'une aphasie fluente, n'a pas attesté d'amélioration significative, alors qu'une tendance statistique d'amélioration a tout de même pu être observée. Les auteurs expliquent cette absence de significativité par un plateau dans les processus d'apprentissage qui a également été observé dans la thérapie orthophonique « conventionnelle » de la personne. Dans l'étude de Faroqi-Shah (2008), les deux participants ou participantes, souffrant d'aphasie non fluente, qui ont reçu le *traitement morphophonologique* n'ont également pas attesté d'amélioration sur les items entraînés. A priori, ce résultat ne peut pas être imputé à une autre variable

Tableau 4

Efficacité des traitements									
Référence	Type de traitement	Nom du traitement	Items entraînés		Items non entraînés		Transfert à d'autres contextes		Maintien
			Gains	Par référence temporelle	Gains	Par référence temporelle	Discours narratif	Discours spontané	
Mitchum et al. (1993)	M	Construction du « cadre » grammatical	1/1 ^a	-	1/1	-	-	-	-
Mitchum et Berndt (1994)	M	Construction du « cadre » grammatical	1/1	présent : 1/1 passé : 1/1 futur : 1/1	1/1	présent : 1/1 passé : 1/1 futur : 1/1	0/1	0/1	-
Weinrich et al. (1997)	M	C-VIC	3/3	-	3/3	présent - futur : 3/3 passé régulier : 3/3 passé irrégulier : 0/3	-	-	-
Weinrich et al. (1999)	M	C-VIC	1/1	passé régulier : 1/1 passé irrégulier : 1/1	1/1	passé régulier : 1/1 passé irrégulier : 0/1	-	-	-
Boser et al. (2000)	M	C-VIC	1/1	-	1/1	-	-	-	1/1 (à 1 année)
Wieczorek et al. (2011)	M	Traitement du temps en production orale	3/4	-	2/4	-	-	-	-
Faroqi-Shah et Virion (2009)	M	CILT	2/2	-	-	-	0/2	0/2	0/2 (à 3 mois)
Faroqi-Shah (2008)	P	Traitement morphophonologique	0/2	-	0/2	présent - futur : 0/2 passé régulier : 0/2 passé irrégulier : 0/2	0/2	-	-

Tableau 4 (suite)

Faroqi-Shah (2008)	S	Traitement morphosémantique	3/3	-	3/3	présent - futur : 3/3 passé régulier : 3/3 passé irrégulier : 2/3	3/3	-	3/3 (à 2,5 mois)
Faroqi-Shah (2013)	S	Traitement morphosémantique	6/6	-	6/6	présent - futur : 6/6 passé régulier : 6/6 passé irrégulier : 5/6	1/6	-	6/6 (à 2 mois)
Dashti et al. (2018)	S	Traitement morphosémantique	2/2	-	2/2	passé régulier : 2/2 passé irrégulier : 2/2	-	-	2/2 (à 3 semaines)
Dashti et al. (2021)	S	Traitement morphosémantique	4/4	-	4/4	passé régulier : 2/2 passé irrégulier : 2/2	0/4 ^b	0/4 ^b	4/4 (à 3 semaines)
Total			27/30		24/28		4/18	0/7	16/18

Note. M = mixte; P = phonologique; S = sémantique; - = données manquantes; C-VIC = communication visuelle informatisée (*Computer-Based Visual Communication*); CILT = thérapie de groupe par la contrainte (*Constraint-Induced Language Therapy*).

^a Ces fractions se réfèrent au nombre de participant(e)s qui ont montré des améliorations par rapport au nombre de participant(e)s pour lesquels la mesure d'efficacité a été réalisée; ^b Bien que non statistiquement significatives, des améliorations ont été observées sur l'utilisation correcte des temps verbaux.

(caractéristiques des participants et participantes; intensité de la thérapie) étant donné que ce facteur a été contrôlé par l'auteure. Par conséquent, le traitement de type phonologique ne serait pas efficace pour traiter le marquage grammatical du temps chez des personnes aphasiques non fluentes en phase chronique.

Dans l'ensemble, le fait que la majorité des traitements recensés dans cette étude aient conduit à une amélioration sur les items entraînés pourrait être associé à un biais de publication (une étude sans résultats positifs est plus difficile à publier). Par conséquent, cette mesure d'efficacité n'est pas un facteur décisif en soi pour choisir le traitement le plus optimal.

Gains sur les items non entraînés

La généralisation à des items non entraînés est une mesure d'efficacité importante, car en thérapie, il n'est pas envisageable d'entraîner chaque flexion qu'un individu veut pouvoir produire. Ainsi, l'entraînement de stratégies et de

règles devrait conduire à une généralisation à d'autres stimuli nécessitant la même stratégie ou règle (Coppens et Patterson, 2017; Kendall et al., 1998). Dans les études présentées dans cette recension, la généralisation a été mesurée avec la même tâche que celle utilisée pour mesurer les gains sur les items entraînés, mais avec des items non entraînés et appariés.

De manière générale, les résultats montrent une amélioration sur les items non entraînés (85,7 % des participants et participantes ont généralisé les gains aux items non entraînés). Quatre participants ou participantes sur 28 n'ont toutefois pas montré de généralisation aux éléments non entraînés. Parmi ces personnes, 2 ont reçu le *traitement morphophonologique* et n'avaient déjà pas montré d'amélioration pour les items entraînés (Faroqi-Shah, 2008). Ce résultat n'est pas étonnant étant donné qu'on ne peut pas s'attendre à une généralisation si le traitement lui-même échoue (Coppens et Patterson, 2017). Les 2 autres participantes ou participants (1 non fluent, 1 fluent) n'ayant pas

montré de généralisation aux items non entraînés ont reçu le *traitement du temps en production orale* (de type mixte). Cette absence de généralisation pour la moitié des participants et participantes de l'étude ne fait l'objet d'aucune hypothèse par les auteurs (Wieczorek et al., 2011). Cependant, elle pourrait être expliquée par une origine fonctionnelle des troubles différente chez ces personnes qui ne bénéficieraient pas de la prise en charge proposée. Toutefois, cette hypothèse ne peut pas être vérifiée puisqu'une évaluation spécifique et approfondie des capacités en morphologie flexionnelle verbale n'a pas été réalisée par les auteurs.

D'après plusieurs études (de type mixte et sémantique), la généralisation aux items non entraînés est également efficace pour les trois références temporelles entraînés (Faroqi-Shah, 2008, 2013; Mitchum et Berndt, 1994; Weinrich et al., 1997).

En ce qui concerne la généralisation aux items non entraînés selon la régularité des formes verbales au passé, les résultats recueillis varient selon le type de traitement prodigué. Les traitements de type mixte montrent une généralisation dépendante de la régularité avec une généralisation aux verbes réguliers non entraînés, en l'absence de généralisation aux verbes irréguliers non entraînés. Ces résultats sont interprétés par les auteurs (Weinrich et al., 1997, 1999) comme étant un élément soutenant l'hypothèse des modèles à double voie (c.-à-d. les modèles dualistes) qui décrivent un stock lexical interactif, capable d'identifier les formes morphologiques communes, et permettant la généralisation à travers des verbes qui partagent les mêmes transformations (Harris et al., 2012; Pinker et Ullman, 2002). Selon cette hypothèse, l'entraînement de verbes irréguliers ne permettrait pas une généralisation aux verbes irréguliers non entraînés ne subissant pas les mêmes transformations. Toutefois, les études de Weinrich et al. (1997; 1999) ne décrivent pas avec précision les types de verbes irréguliers entraînés et non entraînés, et leur analyse ne sépare pas les irréguliers non entraînés en fonction de ceux qui ont subi des transformations d'affixes entraînés et non entraînés. Il est donc difficile de confirmer cette hypothèse.

Les traitements de type sémantique, quant à eux, permettent une généralisation aux verbes réguliers non entraînés (indépendamment du fait que le traitement porte sur des verbes réguliers ou irréguliers) et une généralisation quasi totale (11/13 participants) aux verbes irréguliers non entraînés (les deux participants ou participantes qui n'ont pas attesté d'amélioration ont été entraînés exclusivement sur des verbes réguliers). D'après l'auteure

(Faroqi-Shah, 2008; 2013), ce résultat peut être expliqué par le principe de blocage des modèles dualistes qui propose que la production du passé irrégulier implique le blocage par défaut de la règle d'affixation régulière, suivi de la récupération de la forme verbale irrégulière (Marcus et al., 1992). Ainsi, le traitement des verbes irréguliers se généraliserait aux verbes réguliers non entraînés, car la règle d'affixation régulière s'activerait par défaut avant d'être bloquée, alors que le traitement des verbes réguliers ne se généraliserait pas aux verbes irréguliers non entraînés (Faroqi-Shah, 2008). Une autre explication exposée par l'auteure résulte du postulat *Complexity Account of Treatment Efficacy* (CATE) qui propose que le degré de complexité linguistique des items entraînés influence la généralisation (Thompson et al., 2003). En d'autres termes, le traitement de processus linguistiques complexes permet une amélioration des processus moins complexes liés linguistiquement. Étant donné qu'une tendance générale atteste que la production des verbes irréguliers est plus difficile que celle des réguliers dans l'aphasie agrammatique (voir la méta-analyse de Faroqi-Shah, 2007), la morphologie irrégulière, plus complexe, se généraliserait aux verbes réguliers non entraînés, mais l'inverse ne serait pas vrai.

Transfert vers d'autres contextes

La prise en charge orthophonique vise à améliorer les compétences de communication au quotidien. Ainsi, le transfert à des contextes plus écologiques est une mesure importante pour attester de l'efficacité du traitement. Toutefois, cette mesure a été rapportée dans seulement 5 des 11 articles recensés. Parmi ces travaux, les 2 études qui ont effectué des traitements de type mixte (Faroqi-Shah et Virion, 2009; Mitchum et Berndt, 1994) ont reporté une absence d'amélioration de la précision des temps dans le discours narratif et spontané. D'après les auteures, les participants et participantes semblaient revenir à leur ancienne stratégie en produisant des verbes généraux, non fléchis et de haute fréquence (Mitchum et Berndt, 1994).

Les études qui ont effectué des traitements de type sémantique (Dashti et al., 2021; Faroqi-Shah, 2008, 2013) présentent des résultats mitigés avec une amélioration non systématique de la précision des temps dans le discours narratif (4/13 participants et participantes) et absente dans le discours spontané (0/4 participants et participantes). Les auteures expliquent le manque d'amélioration significative par des résultats relativement élevés avant le traitement, en raison de l'utilisation excessive de la morphologie du présent progressif (Faroqi-Shah, 2013). Dans cette recension, seuls les scores en précision des temps ont été retenus pour attester de la généralisation dans le discours. Cependant, certaines auteures ont décrit

une augmentation des scores des personnes sur presque tous les indices du discours, dont le débit de la parole, la longueur moyenne des énoncés, la proportion de phrases grammaticales, de verbes et d'affixes verbaux (Dashti et al., 2021; Faroqi-Shah, 2008, 2013).

Maintien des acquis

Le maintien des acquis est également une mesure d'efficacité importante, car l'objectif de la thérapie vise le maintien de la progression de la personne une fois le traitement terminé. Cette mesure a été reportée dans la moitié des études (6/11). Mise à part l'étude C-VIC qui a montré un maintien à 1 an (Boser et al., 2000), la plupart des études ont évalué un intervalle de maintien relativement court (entre 3 semaines et 2,5 mois).

Les différentes études qui ont examiné le maintien ont attesté d'une stabilité des acquis, hormis l'étude proposant une thérapie intensive de groupe par la contrainte (Faroqi-Shah et Virion, 2009) qui rapporte une absence de maintien à 3 mois. Ce résultat va dans le sens d'une récente revue systématique (Menahemi-Falkov et al., 2022) qui conclut que seule une petite proportion (environ 1/5) des participants et participantes à une thérapie intensive de l'aphasie en phase chronique s'améliore et maintient les acquis de la thérapie.

Processus sous-jacents entraînés

Le traitement de type phonologique, mené sur 2 participantes ou participants aphasiques non fluents, a mis l'accent sur la production orale en se concentrant principalement sur le traitement et la production de la flexion du verbe dans des mots isolés, afin d'éviter l'implication de la morphosyntaxe/morphosémantique (Faroqi-Shah, 2008). Les résultats ont été insatisfaisants, car aucune amélioration du marquage grammatical du temps n'a été constatée après le traitement. Ces résultats ne soutiennent pas la localisation des déficits aux processus de *bas niveau* qui propose que la difficulté phonologique post-lexicale soit responsable des problèmes de flexion des verbes dans l'aphasie agrammatique (Bird et al., 2003). Toutefois, il faut rappeler que ce traitement a été effectué uniquement sur deux personnes, il n'est donc pas possible d'en tirer une conclusion claire.

Les traitements de type sémantique, menés sur 15 participantes et participants aphasiques non fluents, ciblaient spécifiquement les caractéristiques sémantiques véhiculées par la flexion du temps (Dashti et al., 2018, 2021; Faroqi-Shah, 2008, 2013). Ces traitements ne requéraient aucune production orale des participants et participantes et visaient principalement le traitement de l'entrée

(jugement de grammaticalité; compréhension) plutôt que celui de la sortie. Les résultats ont mis en évidence une amélioration de la production orale de la morphologie des verbes. On peut en déduire que le traitement des étapes d'entrée est efficace dans la prise en charge de la morphologie verbale chez des participantes et participants agrammatiques. Ainsi, les résultats sont cohérents avec les recherches antérieures qui attribuent les difficultés de morphologie verbale dans l'aphasie aux aspects morphosémantiques ou extraphrastiques (Bastiaanse, 2008; Burchert et al., 2005; Faroqi-Shah et Thompson, 2007; Wenzlaff et Clahsen, 2004).

Enfin, les prises en charge de type mixte, menées sur 3 participantes ou participants fluents et 10 non fluents, alliaient le traitement de la morphophonologie et de la morphosémantique. Bien que ces traitements aient fait leurs preuves, les processus impliqués dans les traitements de type mixte ne sont souvent guère contrôlés. En effet, ces études ont utilisé une combinaison de tâches incluant des processus de *bas niveau* et de *haut niveau* ne permettant pas clairement d'imputer les améliorations post-traitement à la prise en charge d'un processus spécifique qui serait *déficient*.

Limites

Bien que les résultats de cette recension soient prometteurs, certaines limites concernant les études incluses ont un impact sur les conclusions tirées.

Alors que des déficits en morphologie verbale ont été rapportés tant lors d'aphasies fluentes que non-fluents, la majorité des prises en charge publiées ont été réalisées avec des personnes atteintes d'aphasie non fluente sans inclure des participantes et participants atteints d'aphasie fluente. De plus, des évaluations approfondies des déficits en marquage grammatical du temps manquent dans les études, ne permettant pas de mettre en évidence un tableau précis de la symptomatologie des participants et participantes en prétraitement.

Des considérations d'ordre méthodologique peuvent également être soulevées notamment concernant les mesures d'efficacité. Si les différentes études ont pu attester d'effets positifs de la thérapie sur les items entraînés et, pour la plupart, d'une généralisation à des items non entraînés, peu d'études ont analysé le transfert des progrès à d'autres contextes (discours narratif et/ou discours spontané), ainsi que le maintien des acquis dans le temps, objectifs pourtant cruciaux dans la thérapie orthophonique.

Il est également important de rappeler que chacun des 11 traitements rapportés dans cette recension

n'avait pas la même force de preuve (voir le **tableau 3**). Parmi les six traitements recensés, seuls trois (*construction du « cadre » grammatical; C-VIC; traitement morphosémantique*) avaient une forte force de preuve. Pour les autres traitements, soit il n'y avait pas assez d'études reproduisant le même traitement, soit les études appliquant ces traitements avaient une qualité méthodologique moyenne. Pour les traitements avec une forte force de preuve, la réplication des traitements était souvent organisée par le même groupe de recherche, à travers plusieurs études (p. ex. C-VIC). Alors que la reproduction d'une étude est essentielle, elle est plus significative si au moins trois groupes de chercheurs différents l'ont réalisée (Horner et al., 2005), ce qui n'est guère le cas pour les différents traitements de cette recension.

Finalement, quelques limites peuvent être relevées concernant le choix de nos critères d'admissibilité. En effet, selon nos critères, les traitements incluant des techniques d'électrostimulation cérébrale ont été exclus de notre recension. Ces techniques, non invasives, font l'objet de plus en plus d'études cliniques en aphasiologie, notamment dans le contexte de prises en charge, avec des résultats intéressants (voir en particulier l'étude de de Aguiar et al., 2015, concernant la production de verbes fléchis). La décision d'exclure ces techniques de notre recension reposait sur la volonté de sélectionner uniquement les prises en charge pouvant être reproduites par l'ensemble des orthophonistes ayant pour objectif de traiter le marquage grammatical de la référence temporelle, sans qu'il soit nécessaire de disposer d'un appareillage particulier. Enfin, seuls les articles publiés en anglais ou en français ont été inclus dans notre revue. Il est ainsi probable que des études sur le sujet, publiées en d'autres langues, aient échappé à cette recension.

Conclusion

Pour conclure, les résultats des études rapportés dans cette revue de littérature sont encourageants. Ils apportent des preuves de la possibilité d'améliorer les capacités des participantes et participants à faire référence au temps par la morphologie flexionnelle verbale, et ce, plusieurs mois post-AVC. Alors que les prises en charge de type sémantique et mixte sont les plus efficaces pour améliorer le marquage grammatical du temps dans des tâches entraînées, le transfert à des contextes plus écologiques et le maintien des progrès à long terme sont davantage favorisés par les prises en charge de type sémantique. Cependant, le transfert des acquis dans la vie quotidienne reste insuffisant et de nouvelles études à visée plus écologique restent nécessaires. Celles-ci permettraient de renforcer les résultats obtenus dans ce domaine et d'apporter de nouvelles pistes de prise en charge.

Références

- Arabatzis, M. et Edwards, S. (2002). Tense and syntactic processes in agrammatic speech. *Brain and Language*, 80(3), 314-327. <https://doi.org/10.1006/brln.2001.2591>
- Auclair-Ouellet, N. (2015). Inflectional morphology in primary progressive aphasia and Alzheimer's disease: A systematic review. *Journal of Neurolinguistics*, 34, 41-64. <https://doi.org/10.1016/j.jneuroling.2014.12.002>
- Auclair-Ouellet, N., Pythoud, P., Koenig-Bruhlin, M. et Fossard, M. (2019). Inflectional morphology in fluent aphasia: A case study in a highly inflected language. *Language and Speech*, 62(2), 250-259. <https://doi.org/10.1177/0023830918765897>
- Avrutin, S. (2000). Comprehension of discourse-linked and non-discourse-linked questions by children and Broca's aphasics. Dans Y. Grodzinsky, L. P. Shapiro et D. Swinney (dir.), *Language and the Brain: Representation and Processing* (p. 295-313). Academic Press. <https://doi.org/10.1016/B978-012304260-6/50017-7>
- Bastiaanse, R. (2008). Production of verbs in base position by Dutch agrammatic speakers: Inflection versus finiteness. *Journal of Neurolinguistics*, 21(2), 104-119. <https://doi.org/doi:10.1016/j.jneuroling.2006.10.006>
- Bastiaanse, R. (2013). Why reference to the past is difficult for agrammatic speakers. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 27(4), 244-263. <https://doi.org/10.3109/02699206.2012.751626>
- Bastiaanse, R., Bamyaci, E., Hsu, C.-J., Lee, J., Duman, T. Y. et Thompson, C. K. (2011). Time reference in agrammatic aphasia: A cross-linguistic study. *Journal of Neurolinguistics*, 24(6), 652-673. <https://doi.org/10.1016/j.jneuroling.2011.07.001>
- Bastiaanse, R., Hurkmans, J. et Links, P. (2006). The training of verb production in Broca's aphasia: A multiple-baseline across-behaviours study. *Aphasiology*, 20(02-04), 298-311. <https://doi.org/10.1080/02687030500474922>
- Beeson, P. M. et Robey, R. R. (2006). Evaluating single-subject treatment research: Lessons learned from the aphasia literature. *Neuropsychology Review*, 16, 161-169. <https://doi.org/10.1007/s11065-006-9013-7>
- Bird, H., Ralph, M. A. L., Seidenberg, M. S., McClelland, J. L. et Patterson, K. (2003). Deficits in phonology and past-tense morphology: What's the connection? *Journal of Memory and Language*, 48(3), 502-526. [https://doi.org/10.1016/S0749-596X\(02\)00538-7](https://doi.org/10.1016/S0749-596X(02)00538-7)
- Bock, K. et Levelt, W. J. M. (1994). Language production. Grammatical encoding. Dans M. A. Gernsbacher (dir.), *Handbook of Psycholinguistics* (p. 945-984). Academic Press.
- Bos, L. S. et Bastiaanse, R. (2014). Time reference decoupled from tense in agrammatic and fluent aphasia. *Aphasiology*, 28(5), 533-553. <https://doi.org/10.1080/02687038.2014.886322>
- Bos, L. S., Dragoy, O., Avrutin, S., Iskra, E. et Bastiaanse, R. (2014). Understanding discourse-linked elements in aphasia: A threefold study in Russian. *Neuropsychologia*, 57, 20-28. <https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2014.02.017>
- Boser, K. I., Weinrich, M. et McCall, D. (2000). Maintenance of oral production in agrammatic aphasia: Verb tense morphology training. *Neurorehabilitation and Neural Repair*, 14(2), 105-118. <https://doi.org/10.1177/154596830001400203>
- Braber, N., Patterson, K., Ellis, K. et Ralph, M. A. L. (2005). The relationship between phonological and morphological deficits in Broca's aphasia: Further evidence from errors in verb inflection. *Brain and Language*, 92(3), 278-287. <https://doi.org/10.1016/j.bandl.2004.05.012>
- Briss, P. A., Zaza, S., Pappaioanou, M., Fielding, J., Wright-De Agüero, L., Truman, B. I., Hopkins, D. P., Mullen, P., D., Thompson, R. S., Woolf, S. H., Garande-Kulis, V. G., Anderson, L., Hinman, A. R., McQueen, D. V., Teutsch, S. M., Harris, J. R. et Task Force on Community Preventive Services. (2000). Developing an evidence-based guide to community preventive services - methods. *American Journal of Preventive Medicine*, 18(1), 35-43. [https://doi.org/10.1016/S0749-3797\(99\)00119-1](https://doi.org/10.1016/S0749-3797(99)00119-1)
- Burchert, F., Swoboda-Moll, M. et De Bleser, R. (2005). Tense and agreement dissociations in German agrammatic speakers: Underspecification vs. hierarchy. *Brain and Language*, 94(2), 188-199. <https://doi.org/10.1016/j.bandl.2004.12.006>
- Clahsen, H. (1999). Lexical entries and rules of language: A multidisciplinary study of German inflection. *Behavioral and Brain Sciences*, 22(6), 991-1013. <https://doi.org/10.1017/S0140525X99002228>

- Clahsen, H. et Ali, M. (2009). Formal features in aphasia: Tense, agreement, and mood in English agrammatism. *Journal of Neurolinguistics*, 22(5), 436-450. <https://doi.org/10.1016/j.jneuroling.2009.02.003>
- Coppens, D. et Patterson, J. (2017). Generalization in aphasiology: What are the best strategies? Dans P. Coppens et J. L. Patterson (dir.), *Aphasia Rehabilitation: Clinical Challenges* (p. 205-248). Jones & Bartlett Learning.
- Cortese, M. J., Balota, D. A., Sergent-Marshall, S. D., Buckner, R. L. et Gold, B. T. (2006). Consistency and regularity in past-tense verb generation in healthy ageing, Alzheimer's disease, and semantic dementia. *Cognitive Neuropsychology*, 23(6), 856-876. <https://doi.org/10.1080/02643290500483124>
- Dashti, F., Asadi, M. et Yadegari, F. (2018). The effect of morphosemantic treatment on verb-tense inflection in persian-speaking patients with agrammatism: A case report. *Middle East Journal of Rehabilitation and Health*, 5(4). <https://doi.org/10.5812/mejrh.80072>
- Dashti, F., Asadi, M. et Yadegari, F. (2021). Morphosemantic treatment of inflection of verb tense in Persian-speaking aphasic patients with agrammatism: A single-subject study. *Aphasiology*, 1-19. <https://doi.org/10.1080/02687038.2021.2010272>
- de Aguiar, V., Bastiaanse, R., Capasso, R., Gandolfi, M., Smania, N., Rossi, G. et Miceli, G. (2015). Can tDCS enhance item-specific effects and generalization after linguistically motivated aphasia therapy for verbs? *Frontiers in Behavioral Neuroscience*, 9, Article 190. <https://doi.org/10.3389/fnbeh.2015.00190>
- Dickey, M. W., Milman, L. H. et Thompson, C. K. (2008). Judgment of functional morphology in agrammatic aphasia. *Journal of Neurolinguistics*, 21(1), 35-65. <https://doi.org/10.1016/j.jneuroling.2007.08.001>
- Dragoy, O. et Bastiaanse, R. (2013). Aspects of time: Time reference and aspect production in Russian aphasic speakers. *Journal of Neurolinguistics*, 26(1), 113-128. <https://doi.org/10.1016/j.jneuroling.2012.05.003>
- Edwards, S. (2005). *Cambridge studies in linguistics: Vol. 107. Fluent aphasia*. Cambridge University Press. <https://doi.org/10.1017/CBO9780511486548>
- Ericson, C. (2020). *La temporalité à travers la morphologie flexionnelle verbale dans l'aphasie. Étude de cas unique d'un sujet francophone souffrant d'une aphasie fluente de type conduction modérée et chronique* [Mémoire de maîtrise inédit]. Université de Neuchâtel.
- Faroqi-Shah, Y. (2007). Are regular and irregular verbs dissociated in non-fluent aphasia?: A meta-analysis. *Brain Research Bulletin*, 74(1-3), 1-13. <https://doi.org/10.1016/j.brainresbull.2007.06.007>
- Faroqi-Shah, Y. (2008). A comparison of two theoretically driven treatments for verb inflection deficits in aphasia. *Neuropsychologia*, 46(13), 3088-3100. <https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2008.06.018>
- Faroqi-Shah, Y. (2013). Selective treatment of regular versus irregular verbs in agrammatic aphasia: Efficacy data. *Aphasiology*, 27(6), 678-705. <https://doi.org/10.1080/02687038.2012.751577>
- Faroqi-Shah, Y. et Baker, A. L. (2017). Agrammatic aphasia. Dans P. Coppens et J. Patterson (dir.), *Aphasia Rehabilitation: Clinical Challenges* (p. 101-141). Jones & Bartlett Learning.
- Faroqi-Shah, Y. et Dickey, M. W. (2009). On-line processing of tense and temporality in agrammatic aphasia. *Brain and Language*, 108(2), 97-111. <https://doi.org/10.1016/j.bandl.2008.10.003>
- Faroqi-Shah, Y. et Friedman, L. (2015). Production of verb tense in agrammatic aphasia: A meta-analysis and further data. *Behavioural Neurology*, 2015, Article 983870. <https://doi.org/10.1155/2015/983870>
- Faroqi-Shah, Y. et Thompson, C. K. (2003). Regular and irregular verb inflections in agrammatism: Dissociation or association? *Brain and Language*, 87(1), 9-10. [https://doi.org/10.1016/S0093-934X\(03\)00171-8](https://doi.org/10.1016/S0093-934X(03)00171-8)
- Faroqi-Shah, Y. et Thompson, C. K. (2004). Semantic, lexical, and phonological influences on the production of verb inflections in agrammatic aphasia. *Brain and Language*, 89(3), 484-498. <https://doi.org/10.1016/j.bandl.2003.12.006>
- Faroqi-Shah, Y. et Thompson, C. K. (2007). Verb inflections in agrammatic aphasia: Encoding of tense features. *Journal of Memory and Language*, 56(1), 129-151. <https://doi.org/10.1016/j.jml.2006.09.005>
- Faroqi-Shah, Y. et Virion, C. R. (2009). Constraint-induced language therapy for agrammatism: Role of grammaticality constraints. *Aphasiology*, 23(7-8), 977-988. <https://doi.org/10.1080/0268703802642036>
- Faure, S. et Blanc-Garin, J. (1995). Quelques questions sur la variabilité individuelle en neuropsychologie. *Revue de Neuropsychologie*, 5(2), 179-199.
- Friedmann, N. et Grodzinsky, Y. (1997). Tense and agreement in agrammatic production: Pruning the syntactic tree. *Brain and Language*, 56(3), 397-425. <https://doi.org/10.1006/brln.1997.1795>
- Fyndanis, V., Arcara, G., Capasso, R., Christidou, P., De Pellegrin, S., Gandolfi, M., Messinis, L., Panagea, E., Paphathanasopoulos, P., Smania, N., Semenza, C. et Miceli, G. (2018). Time reference in nonfluent and fluent aphasia: A cross-linguistic test of the PAsT Discourse Linking Hypothesis. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 32(9), 823-843. <https://doi.org/10.1080/02699206.2018.1445291>
- Gedda, M. (2015). Traduction française des lignes directrices PRISMA pour l'écriture et la lecture des revues systématiques et des méta-analyses. *Kinésithérapie, la Revue*, 15(157), 39-44. <https://doi.org/10.1016/j.kine.2014.11.004>
- Goodglass, H., Kaplan, E. et Barresi, B. (2000). *Boston diagnostic aphasia examination* (3^e éd.). Lippincott Williams and Wilkins.
- Harris, L., Olson, A. et Humphreys, G. (2012). Rehabilitation of past tense verb production and non-canonical sentence production in left inferior frontal non-fluent aphasia. *Aphasiology*, 26(2), 143-161. <https://doi.org/10.1080/02687038.2011.624166>
- Health Evidence (2018). *Outil d'évaluation de la qualité*. McMaster University. <https://www.healthevidence.org/documents/our-appraisal-tools/quality-assessment-tool-dictionary-fr.pdf>
- Helm-Estabrooks, N. et Nicholas, M. (2003). *Narrative story cards* (6^e éd.). PRO-ED.
- Horner, R. H., Carr, E. G., Halle, J., McGee, G., Odom, S. et Wolery, M. (2005). The use of single-subject research to identify evidence-based practice in special education. *Exceptional Children*, 71(2), 165. <https://doi.org/10.1177/001440290507100203>
- Joanisse, M. F. et Seidenberg, M. S. (1999). Impairments in verb morphology after brain injury: A connectionist model. *Proceedings of the National Academy of Sciences*, 96(13), 7592-7597. <https://doi.org/10.1073/pnas.96.13.7592>
- Jonkers, R. et de Bruin, A. (2009). Tense processing in Broca's and Wernicke's aphasia. *Aphasiology*, 23(10), 1252-1265. <https://doi.org/10.1080/0268703802289192>
- Kendall, D. L., McNeil, M. R., et Small, S. L. (1998). Rule-based treatment for acquired phonological dyslexia. *Aphasiology*, 12(7-8), 587-600. <https://doi.org/10.1080/02687039808249560>
- Kljajevic, V. et Bastiaanse, R. (2011). Time reference in fluent aphasia: Evidence from Serbian. Dans A. Vatakis, A. Esposito, M. Giagkou, F. Cummins et G. Papadelis (dir.), *Multidisciplinary aspects of time and time perception* (vol. 6789, p. 258-274). Springer. https://doi.org/10.1007/978-3-642-21478-3_20
- Kok, P., van Doorn, A. et Kolk, H. (2007). Inflection and computational load in agrammatic speech. *Brain and Language*, 102(3), 273-283. <https://doi.org/10.1016/j.bandl.2007.03.001>
- Koukouloti, V. et Bastiaanse, R. (2020). Time reference in aphasia: Evidence from Greek. *Journal of Neurolinguistics*, 53, Article 100872. <https://doi.org/10.1016/j.jneuroling.2019.100872>
- Levelt, W. J. M., Roelofs, A. et Meyer, A. S. (1999). A theory of lexical access in speech production. *Behavioral and Brain Sciences*, 22(1), 1-38. <https://doi.org/10.1017/S0140525X99001776>
- Marcus, G. F., Pinker, S., Ullman, M., Hollander, M., Rosen, T. J., Xu, F. et Clahsen, H. (1992). Overregularization in language acquisition. *Monographs of the Society for Research in Child Development*, 57(4), i-178. <https://doi.org/10.2307/1166115>
- McClelland, J. L. et Patterson, K. (2002). Rules or connections in past-tense inflections: What does the evidence rule out? *Trends in Cognitive Sciences*, 6(11), 465-472. [https://doi.org/10.1016/S1364-6613\(02\)01993-9](https://doi.org/10.1016/S1364-6613(02)01993-9)
- Menahemi-Falkov, M., Breitenstein, C., Pierce, J. E., Hill, A. J., O'Halloran, R. et Rose, M. L. (2022). A systematic review of maintenance following intensive therapy programs in chronic post-stroke aphasia: Importance of individual response analysis. *Disability and Rehabilitation*, 44(20), 5811-5826. <https://doi.org/10.1080/09638288.2021.1955303>
- Miceli, G., Capasso, R. et Caramazza, A. (2004). The relationships between morphological and phonological errors in aphasic speech: Data from a word repetition task. *Neuropsychologia*, 42(3), 273-287. <https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2003.09.002>

- Mitchum, C. C., Haendiges, A. N. et Berndt, R. S. (1993). Model-guided treatment to improve written sentence production: A case study. *Aphasiology*, 7(1), 71-109. <https://doi.org/10.1080/02687039308249500>
- Mitchum, C. C. et Berndt, R. S. (1994). Verb retrieval and sentence construction: Effects of targeted intervention. Dans M. J. Riddoch et G. W. Humphreys (dir.), *Cognitive Neuropsychology and Cognitive Rehabilitation* (p. 317-348). Lawrence Erlbaum Associates.
- Nerantzi, M., Papakyristis, I. et Valokosta, S. (2020). Time reference and tense marking in Greek agrammatism: Evidence from narratives and a sentence production priming task. *Aphasiology*, 34(8), 1043-1069. <https://doi.org/10.1080/02687038.2019.1693028>
- Page, M. J., McKenzie, J. E., Bossuyt, P. M., Boutron, I., Hoffmann, T. C., Mulrow, C. D., Shamseer, L., Tetzlaff, J. M., Akl, E. A., Brennan, S. E., Chou, R., Glanville, J., Grimshaw, J. M., Hrobjartsson, A., Lalu, M. M., Li, T., Loder, E. W., Mayo-Wilson, E., McDonald, S., McGuinness, L. A.,... Moher, D. (2021). The PRISMA 2020 statement: An updated guideline for reporting systematic reviews. *International Journal of Surgery*, 88, Article 105906. <https://doi.org/10.1016/j.ijssu.2021.105906>
- Paradis, M. et Libben, G. (2014). *The assessment of bilingual aphasia*. Psychology Press. <https://doi.org/10.4324/9781315802138>
- Patterson, K. et Holland, R. (2014). Patients with impaired verb-tense processing: Do they know that yesterday is past? *Philosophical Transactions of the Royal Society B: Biological Sciences*, 369(1634). <https://doi.org/10.1098/rstb.2012.0402>
- Pinker, S. (1998). Words and rules. *Lingua*, 106(1-4), 219-242. [https://doi.org/10.1016/S0024-3841\(98\)00035-7](https://doi.org/10.1016/S0024-3841(98)00035-7)
- Pinker, S. et Ullman, M. T. (2002). The past and future of the past tense. *Trends in Cognitive Sciences*, 6(11), 456-463. [https://doi.org/10.1016/S1364-6613\(02\)01990-3](https://doi.org/10.1016/S1364-6613(02)01990-3)
- Poirier, S. É., Fossard, M. et Monetta, L. (2021). The efficacy of treatments for sentence production deficits in aphasia: A systematic review. *Aphasiology*, 1-21. <https://doi.org/10.1080/02687038.2021.1983152>
- Reichenbach, H. (1947). *Elements of symbolic logic*. Collier-Macmillan.
- Rethlefsen, M. L., Kirtley, S., Waffenschmidt, S., Ayala, A. P., Moher, D., Page, M. J., Koffel, J. B. et PRISMA-S Group (2021). PRISMA-S: an extension to the PRISMA statement for reporting literature searches in systematic reviews. *Systematic Reviews*, 10, Article 39. <https://doi.org/10.1186/s13643-020-01542-z>
- Rofes, A., Capasso, R. et Miceli, G. (2015). Verb production tasks in the measurement of communicative abilities in aphasia. *Journal of Clinical and Experimental Neuropsychology*, 37(5), 483-502. <https://doi.org/10.1080/13803395.2015.1025709>
- Rumelhart, D. E. et McClelland, J. L. (1986). On learning the past tenses of English verbs. Dans D. E. Rumelhart, J. L. McClelland et The PDP Research Group (dir.), *Parallel distributed processing: Explorations in the microstructure of cognition*, (vol. 2, p. 216-271). MIT Press. <https://doi.org/10.7551/mitpress/5236.003.0008>
- Tate, R. L., McDonald, S., Perdices, M., Togher, L., Schultz, R. et Savage, S. (2008). Rating the methodological quality of single-subject designs and n-of-1 trials: Introducing the single-case experimental design (SCED) scale. *Neuropsychological Rehabilitation*, 18(4), 385-401. <https://doi.org/10.1080/09602010802009201>
- Thompson, C. K., Shapiro, L. P., Kiran, S. et Sobecks, J. (2003). The role of syntactic complexity in treatment of sentence deficits in agrammatic aphasia: The complexity account of treatment efficacy (CATE). *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 46(3), 591-607. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2003\)047](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2003)047)
- Tyler, L. K., deMornay-Davies, P., Anokhina, R., Longworth, C., Randall, B. et Marslen-Wilson, W. D. (2002). Dissociations in processing past tense morphology: Neuropathology and behavioral studies. *Journal of Cognitive Neuroscience*, 14(1), 79-94. <https://doi.org/10.1162/089892902317205348>
- Ullman, M. T. (2004). Contributions of memory circuits to language: The declarative/procedural model. *Cognition*, 92(1-2), 231-270. <https://doi.org/10.1016/j.cognition.2003.10.008>
- Ullman, M. T. (2005). A cognitive neuroscience perspective on second language acquisition: The declarative/procedural model. Dans C. Sanz (dir.), *Mind and Context in Adult Second Language Acquisition* (p.141-178). Georgetown University Press.
- Ullman, M. T. (2016). The declarative/procedural model: A neurobiological model of language learning, knowledge, and use. Dans G. Hickok et S. L. Small (dir.), *Neurobiology of Language* (p. 953-968). Academic Press. <https://doi.org/10.1016/B978-0-12-407794-2.00076-6>
- Ullman, M. T., Corkin, S., Coppola, M., Hickok, G., Growdon, J. H., Koroshetz, W. J. et Pinker, S. (1997). A neural dissociation within language: Evidence that the mental dictionary is part of declarative memory, and that grammatical rules are processed by the procedural system. *Journal of Cognitive Neuroscience*, 9(2), 266-276. <https://doi.org/10.1162/jocn.1997.9.2.266>
- Valinejad, V., Mehri, A., Khatoonabadi, A. et Shekari, E. (2022). Treatment of verb tense morphology in agrammatic aphasia: A systematic review. *Journal of Neurolinguistics*, 62, Article 101045. <https://doi.org/10.1016/j.jneuroling.2021.101045>
- Walenski, M., Sosta, K., Cappa, S. et Ullman, M. T. (2009). Deficits on irregular verbal morphology in Italian-speaking Alzheimer's disease patients. *Neuropsychologia*, 47(5), 1245-1255. <https://doi.org/10.1016/j.neuropsychologia.2008.12.038>
- Weinrich, M., Boser, K. I. et McCall, D. (1999). Representation of linguistic rules in the brain: Evidence from training an aphasic patient to produce past tense verb morphology. *Brain and Language*, 70(1), 144-158. <https://doi.org/10.1006/brln.1999.2141>
- Weinrich, M., Shelton, J. R., Cox, D. M. et McCall, D. (1997). Remediating production of tense morphology improves verb retrieval in chronic aphasia. *Brain and Language*, 58(1), 23-45. <https://doi.org/10.1006/brln.1997.1757>
- Wenzlaff, M. et Clahsen, H. (2004). Tense and agreement in German agrammatism. *Brain and Language*, 89(1), 57-68. [https://doi.org/10.1016/S0093-934X\(03\)00298-0](https://doi.org/10.1016/S0093-934X(03)00298-0)
- Wieczorek, R., Huber, W. et Darkow, R. (2011). Tense/aspect category in fluent and nonfluent German aphasia: An experimental training programme for verb production. *Aphasiology*, 25(8), 851-871. <https://doi.org/10.1080/02687038.2010.534802>
- Zagona, K. T. (2003). Tense and anaphora: Is there a tense-specific theory of coreference. Dans A. Barrs (dir.), *Anaphora: A reference guide* (p. 140-171). Blackwell Publishing. <https://doi.org/10.1002/9780470755594.ch6>
- Zagona, K. (2013). Tense, aspect and modality. Dans M. den Dikken (dir.), *The Cambridge Handbook of generative syntax* (p. 746-792). Cambridge University Press. <https://doi.org/10.1017/CBO9780511804571.026>

Note des auteurs

Les demandes au sujet de cet article doivent être adressées à Célia Ericson, Institut des Sciences logopédiques, Université de Neuchâtel, Rue de la Pierre-à-Mazel 7, 2000 Neuchâtel, Suisse. Courriel : celia.ericson@unine.ch

Déclaration

Les auteurs déclarent n'avoir aucun conflit d'intérêts, financiers ou autres.



Acoustical and Perceptual Voice Characteristics in Adults With Early- and Late-Onset Auditory Neuropathy Spectrum Disorder



Caractéristiques acoustiques et perceptuelles de la voix d'adultes atteints d'un trouble du spectre de la neuropathie auditive apparu de façon précoce et tardive

KEYWORDS

AUDITORY NEUROPATHY SPECTRUM DISORDER

VOICE CHARACTERISTICS

ACOUSTIC ANALYSIS

Kavassery Venkateswaran Nisha
Prateek Lokwani
Prashanth Prabhu

Kavassery Venkateswaran Nisha, Prateek Lokwani, & Prashanth Prabhu

Department of Audiology, All India Institute of Speech and Hearing, Manasagangothri, Mysuru, INDIA

Abstract

This study aimed to describe onset-related differences in vocal characteristics (acoustic and perceptual) of individuals with early- and late-onset auditory neuropathy spectrum disorder, and it is the first of its kind in the literature. The study included 31 participants (15 early- and 16 late-onset) aged 15 to 30 years diagnosed with the disorder. The voice samples (sustained phonation) recorded by the participants using Android smartphones of selected configuration were sent by email to the experimenter. Acoustic parameters (fundamental frequency, formant frequencies, jitter, shimmer, and harmonic-to-noise ratio) were assessed using Praat software. This was supplemented by perceptual evaluations (consensus auditory perceptual evaluation of voice) by five speech-language pathologists. Results revealed significantly ($p < .05$) increased fundamental frequencies for all vowels along with decreased second and third formant frequencies of /i/ in early-onset participants compared to the late-onset group, which can be explained based on differences in pathophysiology of the disorder. There was no statistically significant difference between the mean perturbations (jitter and shimmer) and harmonic-to-noise ratio of the two groups. These differences were also complemented by perceptual evaluation findings: greater severity of pitch, breathiness, strain, hoarseness, and overall severity in the early-onset group. The findings from this study highlight the role of acoustical and perceptual voice evaluation in verifying the onset of auditory neuropathy spectrum disorder, which otherwise can only be retrospectively inspected from patient medical reports. The insights from the onset-based voice characteristics can help audiologists choose appropriate management options.

Editor:
Véronique Delvaux

Editor-in-Chief:
David McFarland

Abrégé

L'objectif de la présente étude était de décrire les différences observées sur le plan de la voix (caractéristiques acoustiques et perceptuelles) entre les personnes atteintes d'un trouble du spectre de la neuropathie auditive apparu de façon précoce et celles atteintes d'un trouble du spectre de la neuropathie auditive apparu de façon tardive. Il s'agit de la première étude en son genre recensée dans la littérature. Trente et un participants âgés de 15 à 30 ans et atteints d'un trouble du spectre de la neuropathie auditive (15 pour qui le trouble est apparu de façon précoce et 16 pour qui le trouble est apparu de façon tardive) ont été inclus dans l'étude. Des échantillons de voix (voyelles soutenues) ont été enregistrés par les participants au moyen de téléphones Android respectant des critères prédéterminés et ont été envoyés par courriel à la personne responsable de l'étude. Les paramètres acoustiques de la voix (fréquence fondamentale, formants, *jitter*, *shimmer* et rapport harmoniques/bruit) ont été analysés à l'aide du logiciel Praat. Des évaluations perceptuelles complémentaires de la voix (*Consensus Auditory-Perceptual Evaluation of Voice*) ont été réalisées par cinq orthophonistes. Les résultats ont révélé une augmentation significative ($p < 0,05$) de la fréquence fondamentale lors de la production de toutes les voyelles, ainsi qu'une diminution des fréquences des deuxième et troisième formants lors de la production de la voyelle /i/, chez les participants atteints d'un trouble du spectre de la neuropathie auditive apparu de façon précoce, lorsque comparés aux participants atteints d'un trouble du spectre de la neuropathie auditive apparu de façon tardive. Ces différences peuvent être expliquées par des différences pathophysiologiques associées au trouble. Les résultats ont également révélé une absence de différence statistiquement significative entre les participants des deux groupes pour ce qui est des moyennes des mesures de perturbation de la voix (*jitter* et *shimmer*) et du rapport harmoniques/bruit. Les différences observées sur le plan acoustique étaient également supportées par les résultats des évaluations perceptuelles. Spécifiquement, la sévérité globale du trouble de la voix et la sévérité de quatre paramètres de qualité vocale (tonalité, voix rauque, voix éteinte, voix forcée) ont été jugées supérieures pour les participants atteints d'un trouble du spectre de la neuropathie auditive apparu de façon précoce. Les résultats de cette étude soulignent le rôle des évaluations acoustique et perceptuelle de la voix lorsqu'on cherche à déterminer le moment d'apparition d'un trouble du spectre de la neuropathie auditive, moment qui ne peut autrement qu'être vérifié de façon rétrospective à partir des dossiers médicaux des patients. L'information que procurent les caractéristiques de la voix sur le moment d'apparition d'un trouble du spectre de la neuropathie auditive peut aider les audiologistes à choisir des options de prise en charge appropriées.

Auditory neuropathy spectrum disorder (ANSD) is a retro-cochlear pathology in which outer hair-cell functioning is normal but the auditory nerve is abnormal (Rance, 2005). Individuals with the disorder present with severely abnormal or absent auditory brainstem responses and typical otoacoustic emissions results (Berlin et al., 2010). Since its first description by Starr et al. (1996), ANSD has captivated the attention of audiologists worldwide due to its heterogeneity. Every aspect of the disorder presents an array of heterogeneous manifestations, including its onset (Berlin et al., 2010; De Siati et al., 2020; Jijo & Yathiraj, 2012; Kumar & Jayaram, 2006; Shivashankar et al., 2003), prevalence (Kumar & Jayaram, 2006; Mittal et al., 2012; Rance, 2005), aetiology (Berlin et al., 2003; Draper & Bamiou, 2009; Prabhu et al., 2012; Rance et al., 1999), pathophysiology (Nikolopoulos, 2014; Rance & Starr, 2015), symptomatology (Berlin et al., 2010; Prabhu et al., 2012; Rance, 2005), and rehabilitative options (Nikolopoulos, 2014; Rance & Starr, 2015).

A stark distinction in ANSD onset is an alluring heterogeneous manifestation of the disorder. A run-through of literature (Berlin et al., 2003, 2010; Jijo & Yathiraj, 2012; Kumar & Jayaram, 2006; Mittal et al., 2012; Rance & Starr, 2015) pointed at varied evidence in the pathophysiology based on the onset of the disorder. Literature reports in Western countries like Belgium (Boudewyns et al., 2016), cited childhood onset of the disorder, particularly under the age of 10 years. In contrast, studies in the Eastern world reported a late onset, with symptoms beginning between the first and second decades of life (Chandan et al., 2013; Jijo & Yathiraj, 2012; Kumar & Jayaram, 2006; Narne et al., 2014; Shivashankar et al., 2003). Although rare, scanty reports on late-onset ANSD were reported in Western literature too (Berlin et al., 2010; De Siati et al., 2020).

Other onset-based distinctions in ANSD can be traced to heterogeneity in its aetiology, symptoms, and pathophysiology. Early-onset ANSD is usually secondary to hyperbilirubinemia (Berlin et al., 2010; Rance et al., 1999), ototoxic drugs, low birth weight, low APGAR scores, anoxia, and positive family history (Berlin et al., 2003). In contrast, Prabhu et al. (2012) reported that late-onset ANSD cases did not have any pre-, peri-, or postnatal causes; instead, there were some predisposing factors associated with those individuals. These factors included exposure to toxic chemicals (pesticides) and toxic solvents (xylene), low socioeconomic status, and hormonal variations, which were present soon after puberty. Draper and Bamiou (2009) reported that exposure to xylene was noted in late-onset auditory dyssynchrony. Other aetiologies associated with late-onset ANSD are

temperature-dependent changes, hereditary sensory and motor neuropathy, Charcot-Marie tooth disease, and mutations in genes such as autosomal dominant auditory neuropathy-1, protocadherin 9, otoferlin, and gap junction beta protein 2 (Cianfrone et al., 2006; Manchaiah et al., 2011; Rance et al., 2012). The clinical symptoms seen in late-onset patients are vertigo, headache, tinnitus, impaired vision, and difficulty in understanding speech (Prabhu et al., 2012) whereas early-onset patients exhibit difficulty in understanding speech which is disproportionate to the degree of hearing loss, difficulty hearing in noise (Starr et al., 1996), tinnitus (Narne et al., 2014) and vestibular problems (Prabhu & Jamuar, 2017). Late-onset patients tend to show a rising configuration of hearing loss which could be pathophysiologically linked to having more affected apical nerve fibres (Jijo & Yathiraj, 2012; Kumar & Jayaram, 2006). In contrast, early-onset ANSD patients show a flat loss, with pathophysiological bearings related to the degradation of apical fibres followed by the basilar region (Kumar & Jayaram, 2006).

Although the onset-based heterogeneity in ANSD patients is usually explored using the above-cited manifestations, studies on late onset were primarily conducted retrospectively using only the target (late-onset) population, limiting the scope of any comparisons with early-onset-related manifestations. Although onset related distinctions were often described for explanatory purposes in these studies, a direct inference could not be made as they lacked the experimental control that can only be made in prospective designs. The retrospective nature of case reports or studies fundamentally limits direct comparisons of population characteristics of late-onset and early-onset groups. Late-onset diagnosis in these cases is also dependent on the patient complaints documented in their case histories (Berlin et al., 2010). However, when patients report onset of symptoms in late adulthood, lack of audiological reports from childhood substantiating normal auditory functions in earlier years cannot be ruled out. Further, questions regarding the efficacy of newborn hearing screening and primary infrastructure for audiological testing in developing countries (Gupta & Venkatesan, 2018) where the late-onset cases are reported makes the research strides (comparison of late- vs. early-onset characteristics) in this direction even more challenging.

To date, there has been no study that systematically explored such group differences (late- vs. early-onset). Thus, the present study aims to establish onset-based differences in a relatively understudied dimension (voice characteristics) of ANSD patients. The motivation for the study is derived from Maruthy et al.'s (2019) research

findings on deviant voice characteristics in long-standing late-onset adult (17–30 years) ANSD patients. They reported increased roughness, breathiness, and strain, along with increased pitch and reduced loudness in the voice of adults with late-onset ANSD when compared to normal age-matched individuals. In contrast, studies reporting childhood-onset of the hearing problem show high variability of the fundamental frequency, excessive intonation and pitch variation, increased loudness, and irregularities in resonance (Evans & Deliyski, 2007). In addition, it is widely agreed that 68% to 90% of ANSD patients with early-onset experience significant hearing loss (≥ 41 dB HL; Rance et al., 1999; Sininger & Oba, 2001), so the use of top-down compensatory mechanisms for phonemic restoration are usually compromised (Başkent, 2010). Perhaps the distortions occurring at the neural level along with suprathreshold changes that typically accompany moderate to severe hearing loss reduce the efficacy of top-down processing in them. This argument can also hold well for a hearing-severity-matched late-onset group, however the onset delay in this group could have effectively reduced signal distortions occurring at the auditory neural level, which in turn translates to partially intact top-down phonemic restoration in them. The partially intact phonemic restoration helps the latter group in processing acoustic and linguistic redundancy in speech signals, which not only contributes to improved speech perception but also to speech production. A number of studies have elaborately explained the voice characteristics in individuals with early-onset hearing loss (Campisi et al., 2006; Evans & Deliyski, 2007; Wirz et al., 1981), but direct generalization of these findings to the ANSD group cannot be done due to different pathophysiology and duration of the disorders.

Based on this evidence, we hypothesize that late-onset ANSD patients are likely to show fewer deviant voice characteristics compared to the early-onset ANSD group. This study is the first of its kind aimed at describing the ANSD onset-related vocal manifestations in early- and late-onset ANSD patients. This will indirectly help in deciding the management options for ANSD patients. Although applications of cochlear implants in patients with early onset may be advisable (Kontorinis et al., 2014), the utility of hearing aids (Barman et al., 2016; Jijo & Yathiraj, 2013) or assistive listening devices in the late-onset group can be advocated as the first line of rehabilitation. The specific objectives of the study are to compare the differences (if any) in acoustic (fundamental frequency, formants, harmonic-to-noise ratio, jitter, and shimmer) and perceptual voice characteristics between early- and late-onset groups with ANSD.

Methods

Participants

A total of 31 participants aged 15 to 30 years and diagnosed with bilateral ANSD by Rehabilitation Council of India-certified audiologists were considered for the study. All the subjects had Kannada as their native language. The criteria adopted to diagnose ANSD in the audiology clinic were those recommended by Starr et al. (2000): absent or abnormal auditory brainstem responses (delayed in latency or attenuated in amplitude), presence (average or robust amplitude) of otoacoustic emissions, and absent middle ear reflexes. Based on the clinical record, the diagnosis of ANSD was confirmed by a neurologist using clinical examination and computerized axial tomography/magnetic resonance imaging.

The participants were divided in two groups based on the onset of the ANSD symptoms: early-onset ($n = 15$; 11 females, four males; mean age = 22.33 ± 4.18) and late-onset ($n = 16$; 12 females, four males; mean age = 22.78 ± 4.20). A cut-off criterion of 12 years of age for the group segregation was used in the study, based on the recommendations of the Centers for Disease Control and Prevention (n.d.). Participants who were diagnosed with ANSD in childhood (6.0–10.2 years) or with the problem reported at birth (reported and assessed at the Department of Audiology, All India Institute of Speech and Hearing, Mysore, India between 2005 and 2011) were considered for the former group, and the latter group comprised adults who were diagnosed with ANSD over the age of 12 years, with no complaints of auditory deficits in childhood (reported and assessed between 2013 and 2020). Caution was taken to include only participants with onset less than 5 years duration in the late-onset groups, as long-standing ANSD adversely affects vocal characteristics (Maruthy et al., 2019). Also, to rule out any language problems, the Clinical Evaluation of Language Fundamentals (Semel & Wiig, 1980) was administered in a telephone interview with late-onset patients, who were included only if their language skills were age-appropriate. The waveforms/data recorded from three female participants in the early-onset group were pruned out as they did not fulfill the noise-free criterion for inclusion due to noisy waveforms (more background noise). **Table 1** shows the demographic and audiological details, comprising the degree (Clark, 1980; Goodman, 1965) and configuration (Pittman & Stelmachowicz, 2003) of hearing loss of all participants included in the study.

Informed Consent and Ethical Considerations

Informed consent was collected from all participants, with each participant informed about the objective of the

Table 1**Demographic and Audiological Details of All Participants**

P	Early-onset group					Late-onset group			
	Ear	Age (years)	Gender	Degree of hearing loss	Hearing loss configuration	Age (years)	Gender	Degree of hearing loss	Hearing loss configuration
1	Right	17.2	Female	Severe	Flat	20.6	Female	Moderately severe	Rising
	Left			Severe	Flat			Moderate	Rising
2	Right	15.5	Female	Moderately severe	Flat	20.5	Male	Moderate	Irregular
	Left			Moderately severe	Flat			Moderate	Rising
3	Right	21.4	Male	Moderately severe	Rising	16.2	Male	Minimal	Rising
	Left			Moderately severe	Irregular			Minimal	Rising
4	Right	28.5	Female	Severe	Flat	18.4	Female	Minimal	Rising
	Left			Severe	Flat			Normal	
5	Right	24.4	Female	Moderately severe	Flat	20.1	Male	Normal	
	Left			Severe	Flat			Minimal	Rising
6	Right	21.5	Female	Severe	Flat	21.8	Female	Minimal	Flat
	Left			Severe	Flat			Minimal	Rising
7	Right	23.0	Female	Moderately severe	Flat	27.1	Female	Moderate	Rising
	Left			Moderately severe	Flat			Moderate	Rising
8	Right	26.4	Male	Moderate	Rising	27.2	Female	Moderate	Rising
	Left			Moderate	Rising			Moderate	Rising
9	Right	22.7	Female	Moderately severe	Flat	16.4	Female	Mild	Flat
	Left			Moderately severe	Flat			Moderate	Rising
10	Right	21.8	Female	Severe	Flat	26.8	Female	Minimal	Flat
	Left			Severe	Flat			Mild	Flat
11	Right	24.8	Male	Severe	Flat	23.5	Female	Minimal	Rising
	Left			Severe	Flat			Normal	
12	Right	22.1	Male	Moderately severe	Rising	21.5	Female	Moderate	Rising
	Left			Moderately severe	Rising			Moderate	Rising
13	Right	23.6 ^a	Female	Profound	Flat	29.9	Female	Mild	Rising
	Left			Severe	Sloping			Moderate	Rising
14	Right	20.5 ^a	Female	Moderate	Flat	26.8	Female	Moderately Severe	Flat
	Left			Moderately severe	Flat			Moderately Severe	Rising

Table 1 (continue)

15	Right	21.6 ^a	Female	Severe	Flat	26.0	Male	Mild	Flat
	Left			Profound	Flat			Minimal	Rising
16	Right					21.5	Female	Normal	
	Left							Moderate	Rising

Note. P = participant number.

^aExcluded participants due to noisy recordings.

study and its need in brief. The anonymity of the participants was maintained throughout the study. The willingness of any patient to participate in the study did not affect their routine audiological assessment or other evaluations. All procedures performed in this study adhered to the bio-behavioural research standards (Venkatesan & Basavaraj, 2009) framed by the institutional ethical review board, whose permission was obtained for the study (SH/ACA/19AUD028/2020-21).

Procedure

The short-listed participants, after the screening of medical records, were contacted by telephone interview to assess their language skills (as discussed in inclusion criteria) and voice characteristics. The participants were asked to record sustained phonation of vowels /a/, /i/, and /u/ for a duration of at least 5 s, with three trials per vowel, and send the recorded voice samples over email. To facilitate the understanding of the task, a recorded video of the instructions along with a sustained phonation sample enacted by an Indian male speaker was sent for participant viewing. The participants were asked to keep the microphones of their smartphones 6 cm away from their mouths (or two thirds the length of their index fingers, for better understanding by the participants). Smartphones above specific configurations (Android 4, CPU frequency > 1.3 GHz) were used for recording purpose (Manfredi et al., 2017). Uloza et al. (2015) showed that smartphones are reliable in recording and assessing acoustic voice parameters. The reason for choosing sustained phonation rather than connected speech is because connected speech may show more variations while being recorded from smartphones when compared to using a standard microphone for recording. Also, previous research (Manfredi et al., 2017) done to assess the quality of voice used sustained vowel phonation rather than connected speech.

The rationale for the inclusion of the online-based data collection stemmed from the need for social distancing and alternative assessment procedures during the COVID-19 crisis. The use of alternative methods rather than conventional voice assessment in the COVID-19 pandemic for voice assessment (Lin et

al., 2012) has become increasingly efficacious as they offer both accessibility and safety. To further validate the utility of the online-based recordings to the conventional voice sample recordings, a pilot study comprising voice samples of five normal adults (aged 18–25) was carried out using both methods. The adults were asked to phonate /a/. An Android 8 smartphone with a CPU frequency of 2.05 GHz was used for online recording, and the offline analyses were carried out using Audacity software (version 3.0.1; Audacity, 2020). The vocal parameters used in the current study were compared between the two recording modes using the Mann-Whitney U test, which showed no statistically significant difference ($p > .05$) between the recordings on all the parameters considered (fundamental frequency [F_0]: /z/ = 0.31, $p = .75$; formant frequency [F_1]: /z/ = 0.10, $p = .92$; F_2 : /z/ = 0.32, $p = .75$; F_3 : /z/ = 0.94, $p = .35$; jitter: /z/ = 0.11, $p = .92$; shimmer: /z/ = 1.05, $p = .29$; harmonic-to-noise ratio [HNR]: /z/ = 0.73, $p = .47$).

In order to monitor the environmental noise, an Android-based application, Sound Meter, developed by Smart Tools Company (Ibekwe et al., 2016), was used at the participants' end. Live monitoring of the online recording session was supervised by the experimenter through an online video call. The participants were also asked to send the environmental noise data throughout the recording, which were further analysed by the experimenter before the inclusion of the voice sample. Samples with environmental noise less than 45 dB SPL were included for analysis.

Voice Analyses

The voice samples with less noise (< 45 dB SPL) were subjected to both acoustic and perceptual analyses. The window of analysis was kept constant at 2 s for all participants. The acoustic parameters of voice were assessed using Praat software (Boersma & Weenink, 2010). The samples recorded via smartphones (.mp3 format) were converted into formats usable by Praat (.wav format) using an online converter available free on the internet. The segment of recording which looked to have the most stable waveform was extrapolated from the recording and analysis was done. F_0 and F_1 , F_2 , & F_3 were computed for each recording.

Jitter (local) percentage, shimmer (local) percentage, and HNR ratio (in dB) were also calculated using the point-process option in Praat. Burris et al. (2014) concluded that fundamental frequencies and formants generated by Praat were reliable and accurate and were comparable to the values obtained in acoustic analysis using other software packages such as WaveSurfer (Sjölander & Beskow, 2000), and Computerized Speech Lab (Pentax Medical, n.d.). For generation of spectrograms, MATLAB audio toolbar was used, where the resolution of generated figures was found to be better than Praat software. Use of spectrogram measure in MATLAB has also been validated and proven effective in previous studies (Wang et al., 2019).

The computation of fundamental and formant frequencies was done to explore the difference in vocal characteristics of hearing-impaired (Campisi et al., 2006; Evans & Deliyski, 2007) and individuals with ANSD (current study). Jitter, the parameter of frequency variation from cycle to cycle, and shimmer, which relates to the amplitude variation of sound wave, were computed to quantify the perturbations in pitch and amplitude, possibly due to reduced auditory feedback. The HNR was computed to quantify and explore the difference in aperiodicity between the groups.

Subjective voice quality ratings were obtained from five certified speech-language pathologists (S-LPs), who were asked to perceptually rate the voice samples using a standardized voice assessment scale, the Consensus Auditory Perceptual Evaluation of Voice (CAPE-V; Kempster et al., 2009). The S-LPs listened to the voice recordings with Sennheiser HDA 200 circumaural headphones (Wedenmark, Germany) and rated the loudness, pitch, breathiness, strain, and roughness of voice on a 100 mm visual analog scale, with 0 indicating *normal voice* and 100 indicating *severely affected voice*. The individual ratings were then compared for interrater reliability and were factored into the statistical analyses.

Although auditory-perceptual ratings are considered the gold standard for evaluating voice disorders and assessing treatment progress (Oates, 2009; Selby et al., 2003), the current study considered joint analyses (acoustic plus perceptual) of the data for two reasons. First, the sensitivity of detection of certain voice disorders is higher for perceptual judgments, and its specificity is higher when using acoustic analyses (Heikkinen et al., 2021). Second, perceptual analysis requires specific expertise (S-LPs) which might not always be available in audiologic clinics, whereas acoustic analysis can be available and it releases clinicians from making subjective descriptions. The latter, however, can have drawbacks of high time-consumption

and requiring procedural knowledge to carry out the analyses. Hence a combination was considered optimal in analyzing differences in vocal characteristics between the late-onset and early-onset ANSD groups.

Statistical Analyses

The data obtained were subjected to statistical analyses using SPSS version 25.0. A Shapiro-Wilk test of normality was done to check for the normal distribution of the data. A multivariate analysis of variance (MANOVA) test was carried out for the parametric data, and the Mann-Whitney U test was done to compare the differences (if any) in vocal characteristics between the groups when the data followed nonnormal distribution. The measure of effect size $r = Z/\sqrt{N}$, where Z is the nonparametric statistic and N is the population size, was computed for parameters where significant differences were observed in nonparametric tests. Similarly, partial eta squared (η_p^2) was noted wherever significant differences were observed in parametric tests. Modified Bland-Altman plot and single-rater type of interclass correlation were also computed to check for the interjudge agreement for perceptual ratings. The utility of interclass correlation over Pearson's correlation coefficient as a measure of interjudge reliability is empirically proven to be reliable for data where the order of the two measurements is unimportant (as in the present study, perceptual ratings of each judge did not follow any temporal order and were made independently of each other).

Results

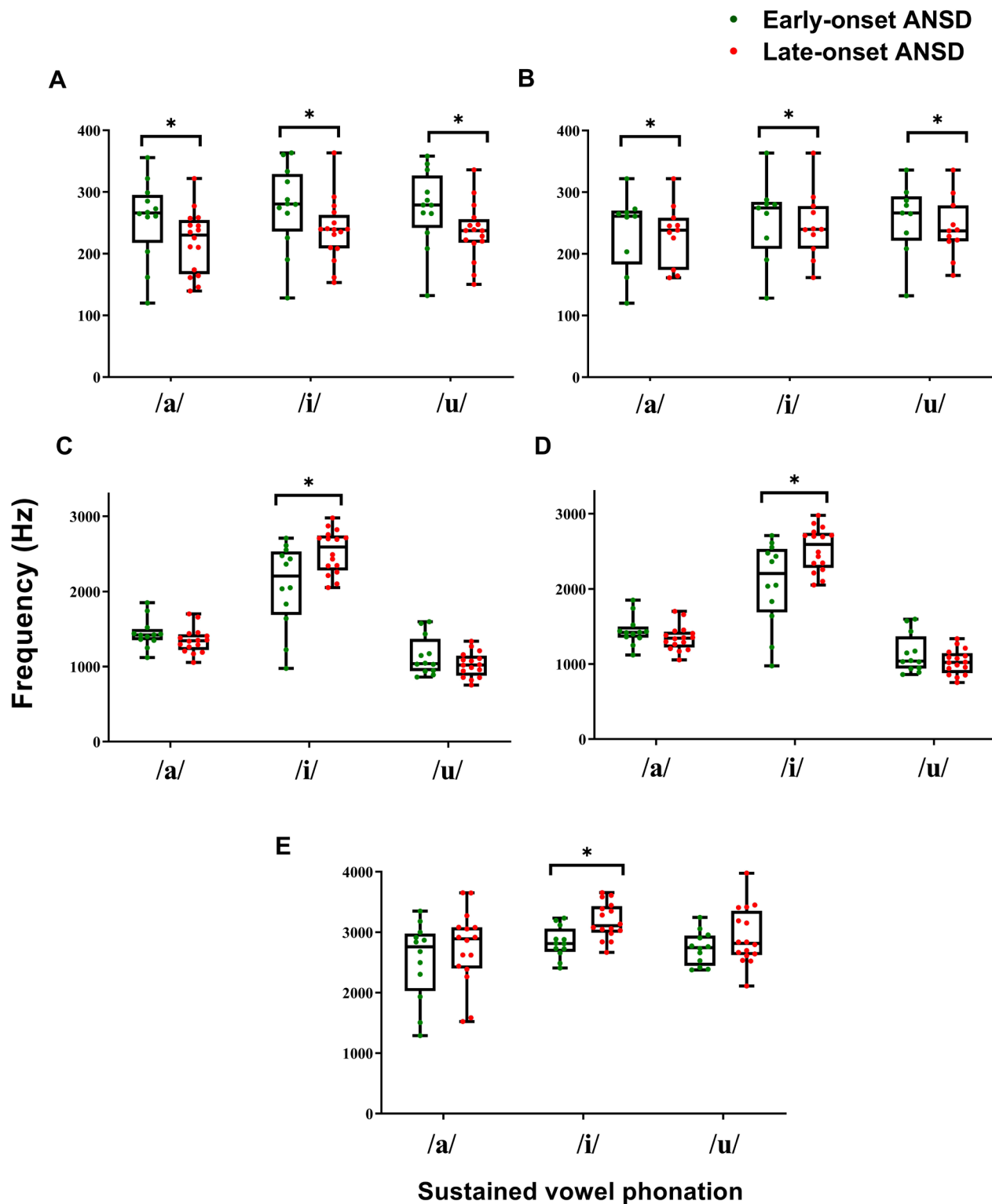
Although the voice samples were obtained from 31 participants, 3 samples (participants 13, 14, and 15 in the early-onset group, as listed in **Table 1**) were excluded due to excessive background noise (> 45 dB SPL). Hence, the vocal characteristics from the recorded waveforms with clear waveforms were analyzed. This comprised 12 individuals with early-onset and 16 individuals with late-onset ANSD. The statistical differences in the voice characteristics on the acoustic and perceptual parameters are highlighted in this section.

Group Differences in Acoustical Parameters of Voice

Fundamental Frequency and Formant Frequencies

The Shapiro-Wilk test showed the acoustical data (fundamental and formant frequencies) of all the vowels (/a/, /i/, & /u/) adhered to normal distribution ($p > .05$). The descriptive statistics comprising the mean for fundamental and formant frequencies along with standard deviation for the three vowels are shown in **Figure 1**. The results of inferential statistics (MANOVA) for the significant group differences are marked by asterisks in **Figure 1**. On visual

Figure 1



Sustained Vowel Phonation Frequencies in Early-Onset and Late-Onset ANSD Groups

Note. ANSD = auditory neuropathy spectrum disorder. Box plots depict median (centre line) and interquartile range (error bars). Panel A: Fundamental frequency (F_0). Panel B: F_0 for only female participants. Panel C: First formant (F_1). Panel D: Second formant (F_2). Panel E: Third formant (F_3). The individual data points for F_0 and the first three formants are also indicated on the corresponding plots. * $p < .05$

examination, the late-onset ANSD group, in general, exhibited higher formant frequencies compared to the early-onset group.

The results of the MANOVA for vocal pitch analyses showed main effect of ANSD onset for fundamental frequencies of all three vowels, as shown in **Table 2**. The results showed that the F_0 of the early-onset group was significantly higher (*/a/*: $p = .03$ */i/*: $p = .02$, */u/*: $p = .02$) than for the late-onset group for all vowels reported in the study. As the samples were not normalized, the females of both the groups were analysed separately (due to higher proportion of females in the overall sample), where the statistical results revealed higher F_0 of females in the early-onset group than the in the late-onset one.

Additionally, the main effect of ANSD onset was also seen for F_2 and F_3 of the vowel */i/*, with the late-onset group demonstrating significantly higher F_2 ($p = .02$) and F_3 ($p = .01$) compared to the early-onset group.

The parameters in which onset-based group differences are seen to be significant (F_0 and F_2 & F_3 of */i/*) for phonation samples obtained from two female participants (participants number 6 in both early-onset and late-onset groups, **Table 1**) are shown in **Figure 2** (for F_0) and **Figure 3** (for F_2 & F_3 of */i/*) respectively. The early-onset

participant had bilateral severe hearing loss and the late-onset patient had bilateral minimal hearing loss. The group differences are visually appreciable in their spectrograms as indicated in the figures. The colour-coded bands in the spectrogram correspond to bands of acoustic energy. On visual inspection, it is clear that F_0 is distantly located for the two groups (**Figure 2**). It is also seen that the energy bands depicting the portions of F_2 and F_3 are located differently for the two samples (**Figure 3**). Further, the mean F_2 and F_3 for the early-onset group were 2108 Hz and 2875 Hz respectively, whereas the same were higher (2529 Hz and 3187 Hz) for the late-onset group. However, no statistical differences were observed in F_1 of the vowel */i/*.

Perturbations and Harmonic-to-Noise Ratio

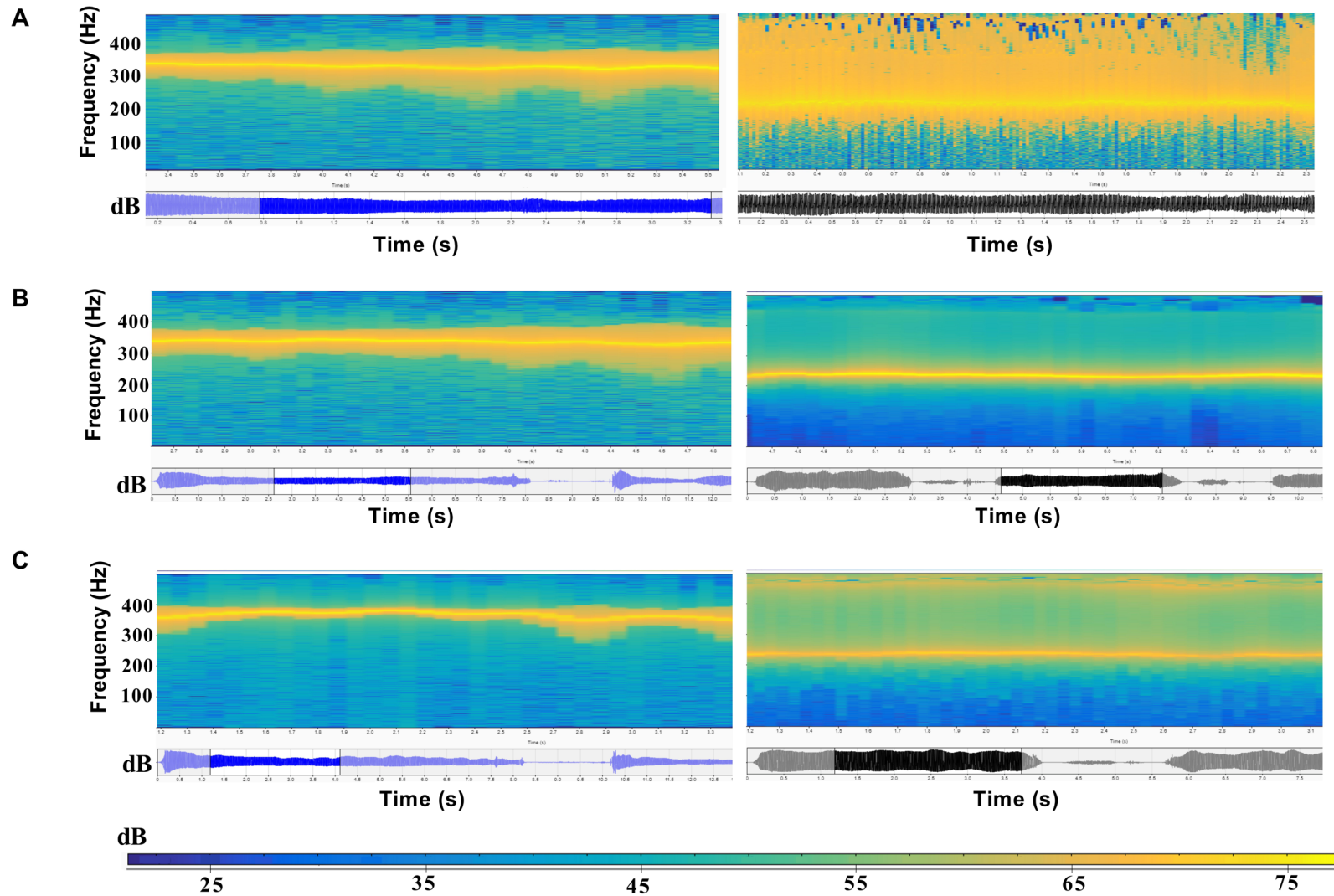
The Shapiro-Wilk test revealed nonnormal distribution for perturbations (jitter and shimmer) of all three vowels ($p < .05$), and the data corresponding to the HNR were normally distributed ($p > .05$). The median values (centre line), along with the interquartile range (errors bars) of these three measures are shown in **Figure 4**. The early-onset group had higher perturbations for all sustained phonation. On the other hand, a relatively lower HNR was seen in the voice samples of the early-onset group, especially for */a/* phonation. However, none of the above cited differences withstood statistical verification, as shown in **Table 3**.

Table 2
Results of MANOVA Showing the Main Effect of Onset on Fundamental and Formant Frequencies of Sustained Phonation of Vowels /a/, /i/, and /u/

Acoustic frequency parameters	Vowels		
	<i>/a/</i>	<i>/i/</i>	<i>/u/</i>
F_0	$F(1, 26) = 4.96$ $p = .03^*, \eta_p^2 = 0.16$	$F(1, 26) = 5.96$ $p = .02^*, \eta_p^2 = 0.19$	$F(1, 26) = 6.35$ $p = .02^*, \eta_p^2 = 0.20$
F_0 (only female participants)	$F(1, 18) = 4.89$ $p = .02^*, \eta_p^2 = 0.18$	$F(1, 18) = 5.05$ $p = .02^*, \eta_p^2 = 0.16$	$F(1, 18) = 4.23$ $p = .03^*, \eta_p^2 = 0.19$
F_1	$F(1, 26) = 3.79$ $p = .06, \eta_p^2 = 0.13$	$F(1, 26) = 1.89$ $p = .44, \eta_p^2 = 0.07$	$F(1, 26) = 0.27$ $p = .61, \eta_p^2 = 0.01$
F_2	$F(1, 26) = 1.92$ $p = .18, \eta_p^2 = 0.07$	$F(1, 26) = 6.10$ $p = .02^*, \eta_p^2 = 0.20$	$F(1, 26) = 1.89$ $p = .18, \eta_p^2 = 0.07$
F_3	$F(1, 26) = 0.80$ $p = .38, \eta_p^2 = 0.30$	$F(1, 26) = 8.02$ $p = .01^*, \eta_p^2 = 0.24$	$F(1, 26) = 1.06$ $p = .31, \eta_p^2 = 0.04$

Note. F_0 = fundamental frequency; F_1 , F_2 , and F_3 = first, second, and third formant frequencies, respectively; MANOVA = multivariate analysis of variance. Bolded frames represent parameters with significant main effect of group.
^{*} $p < .05$

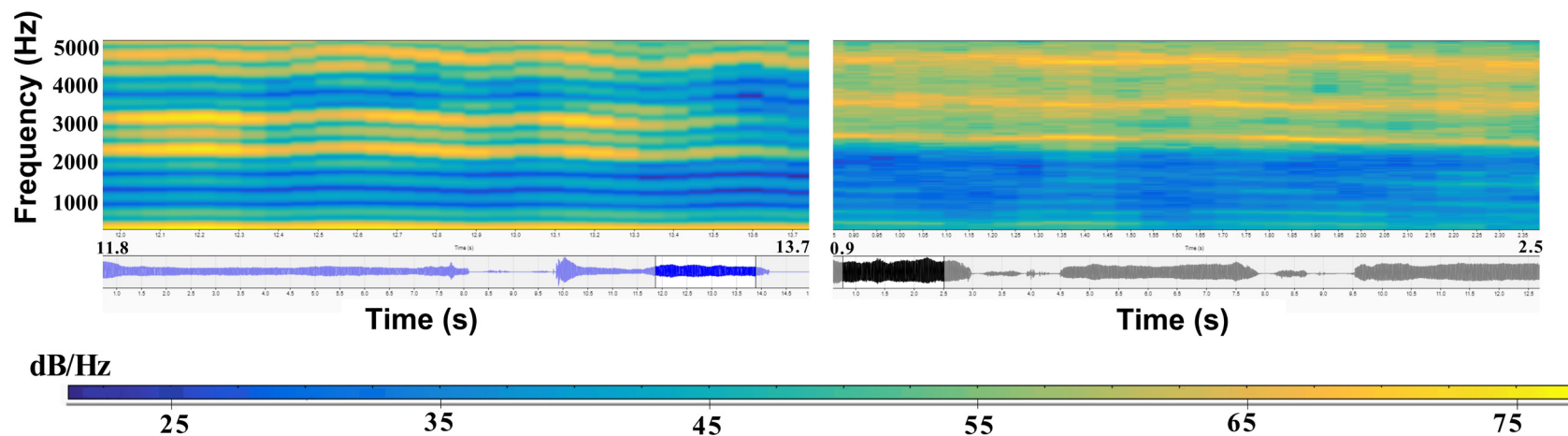
Figure 2



Spectrograms of Sustained Phonation (for F_0 Differences) of Female Patients With Early-Onset and Late-Onset ANSD

Note. ANSD = auditory neuropathy spectrum disorder; F_0 = fundamental frequency. Results from the patient with early-onset ANSD are presented on the left and the patient with late-onset ANSD on the right. Panel A: /a/. Panel B: /i/. Panel C: /u/.

Figure 3

Spectrograms of /i/ Sustained Phonation (for F_2 and F_3 Differences) of Female Patients With Early-Onset and Late-Onset ANSD

Note. ANSD = auditory neuropathy spectrum disorder; F_2 , F_3 = second and third formant frequencies, respectively. Results from the patient with early-onset ANSD are presented on the left and the patient with late-onset ANSD on the right.

Group Differences in Perceptual Parameters of Voice Quality

The interjudge reliability of perceptual ratings of voice quality using a modified Bland Altman plot is shown in **Figure 5A**. The average perceptual agreement scores of all five S-LPs are shown on the x-axis, and the difference in perceptual agreement score is shown on the y-axis. On visual inspection of the Bland Altman plot, it is apparent that most perceptual judgments (262 out of 280) of the S-LPs were within the limits of agreement ($\pm 1.96 SD$, blue shaded area in **Figure 5A**). The analyses of the outliers in the modified Bland Altman plot showed that 18 out of 280 judgments did not correlate well, accounting for an error rate of 6.43%. The overall percentage of agreement between judges was approximately 93.57%, indicative of high interjudge reliability.

These observations were further complemented by the results of interclass correlation analyses which revealed a moderate to high degree of agreement amongst the perceptual judgments of the five S-LPs, as shown in **Table 4**.

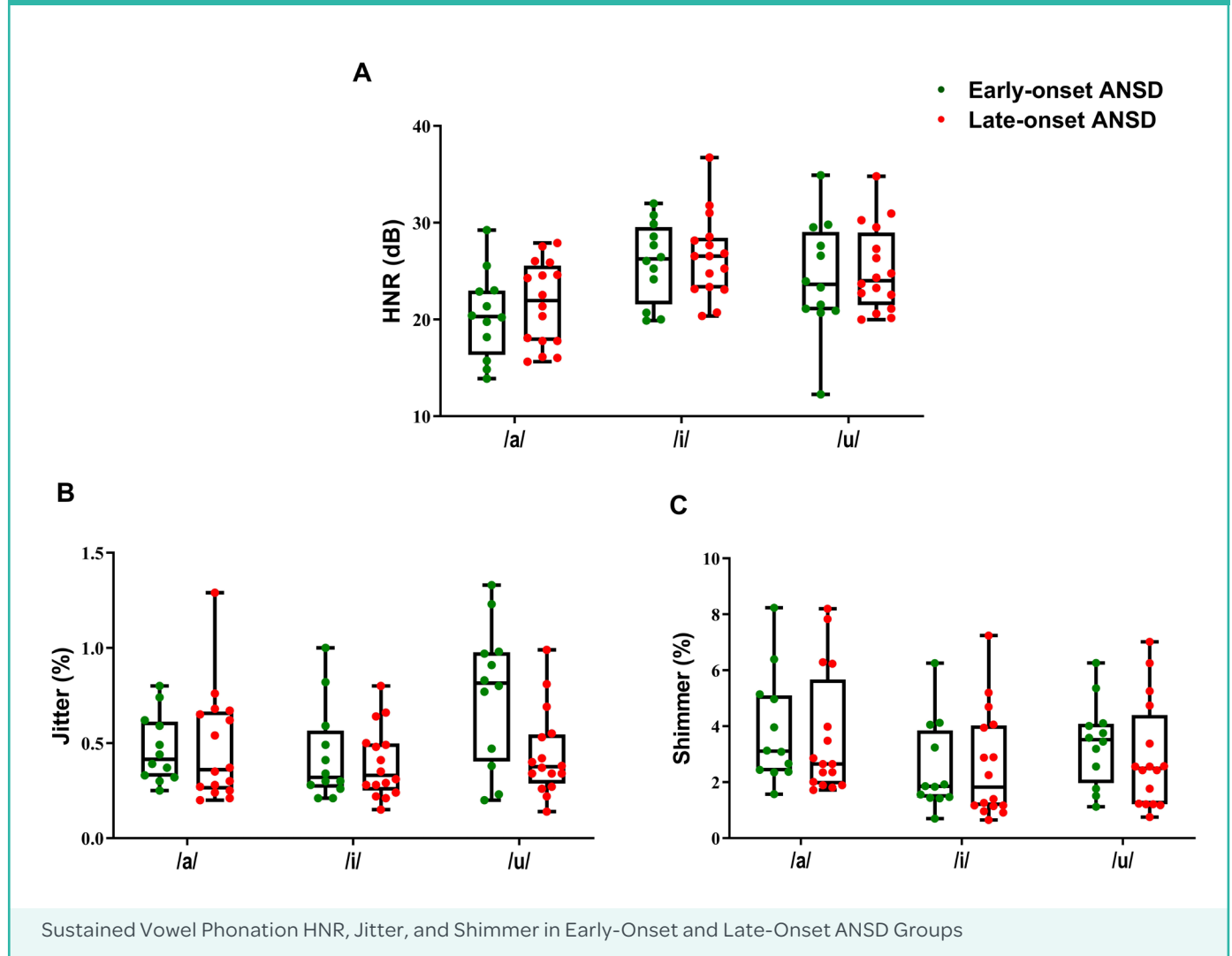
The Shapiro-Wilk test revealed normality ($p > .05$) in average perceptual ratings of pitch, loudness, strain, breathiness, and roughness. The descriptive statistics

with mean scores, along with standard deviations, of perceptual ratings are shown in **Figure 5B**, with the S-LPs' ratings for the early-onset group being more affected (greater pitch, breathiness, strain, and roughness) than for the late-onset group. The perceptual parameters with significant statistical difference (MANOVA test) are marked with asterisks in **Figure 5B**. MANOVA revealed the main effect of ANSD onset on all perceptual vocal parameters (pitch, $F [1, 26] = 7.77, p = .01, \eta_p^2 = 0.23$; breathiness, $F [1, 26] = 5.68, p = .03, \eta_p^2 = 0.18$; roughness, $F [1, 26] = 9.24, p = .01, \eta_p^2 = 0.22$; strain, $F [1, 26] = 7.29, p = .01, \eta_p^2 = 0.22$; and overall severity, $F [1, 26] = 4.77, p = .04, \eta_p^2 = 0.16$) except for one parameter (loudness, $F [1, 26] = 1.05, p = .31, \eta_p^2 = 0.04$).

Discussion

The present study aimed to delineate the differences in vocal characteristics of early- and late-onset ANSD using acoustical and perceptual measures. The findings of the study point at key indicators (**Figures 1 & 5**) in the vocal characteristics that can segregate the two onset-based ANSD groups. Amongst the few available retrospective studies, the existence of late-onset ANSD was

Figure 4



Note. ANSD = auditory neuropathy spectrum disorder. Box plots depict median (centre line) and interquartile range (error bars). Panel A: Harmonic-to-noise ratio (HNR). Panel B: Frequency perturbation (jitter). Panel C: Perturbations (jitter and shimmer, respectively).

documented in only case studies by a few researchers (Berlin et al., 2010; De Siati et al., 2020; Jijo & Yathiraj, 2012; Kumar & Jayaram, 2006; Narne et al., 2014). Thus, the findings from the current study are the first of their kind in research design, plausibly explaining the onset-based group differences in vocal characteristics in a prospective research design. The strength of the study is the precise control of variables at the start of the study. The participants of the study were age matched between the groups to reduce the effect of any age-related changes in voice. All the subjects passed language screening in the late-onset ANSD group, which in turn helped the experimenters to understand the aptness of the participant inclusion, as the presence of early ANSD (even if of milder degree) is known

to adversely affect language outcomes (Rance et al., 2012). The control was also exercised on the recording of voice samples, with prior succinct segregation of environmental noise using mobile applications. The check between Android-based voice recording and the conventional voice recording using the Computerized Speech Lab software during the pilot is another strength of the study. The combination of these experiment-based controls further consolidates the results obtained in the study, as well as providing flexibility to conduct such studies during a COVID-19 pandemic.

The results of the MANOVA showed that the fundamental frequency of all three vowels were increased in the early-onset group. These differences are unlikely

Table 3
Results of Inferential Statistical Tests (Mann-Whitney U and Independent t Test) for Comparison of Group Differences in Acoustical Measures of Voice

Parameter and vowel	Test statistic	p
HNR		
/a/	t (26) = -0.64	.53
/i/	t (26) = 0.17	.86
/u/	t (26) = -1.08	.29
Jitter		
/a/	/z/ = 1.21	.22
/i/	/z/ = 0.33	.74
/u/	/z/ = 1.86	.06
Shimmer		
/a/	/z/ = 0.84	.40
/i/	/z/ = 0.19	.85
/u/	/z/ = 1.67	.10

Note. HNR = harmonic-to-noise ratio.

related to the gender of the participants because the effect remains for early- versus late-onset ANSD within the female group too. This finding is on par with previous studies of acoustic features in vocalizations of people with long-standing hearing loss (Campisi et al., 2006; Evans & Deliyski, 2007). These results are attributed to poor laryngeal control, greater laryngeal muscular tension, or impaired internal auditory feedback. The fundamental frequency is the acoustic correlate of pitch which, when affected, impacts the social well-being of the individual and can be detected perceptually with voice quality rating scales.

The results of the MANOVA also showed that the second and third formants of the vowel /i/ in the late-onset ANSD group were significantly higher than in the early-onset group. This finding is suggestive of ANSD onset-based differences in the production of sounds with high-frequency formants. A comparison of the normative data (Sreedevi, 2000) for formant frequencies in Kannada speakers revealed that the late-onset sustained phonation characteristics (mean and SD) of the ANSD group for vowels /a/, /i/, and /u/ were similar to the adults in the same age range. However, the F₂ and F₃ in sustained phonation of /i/ for the early-onset ANSD group were relatively lower than the normatives. The finding could be related to the group differences in the pathophysiology of the disorder, which gets manifested as a production deficit in voice.

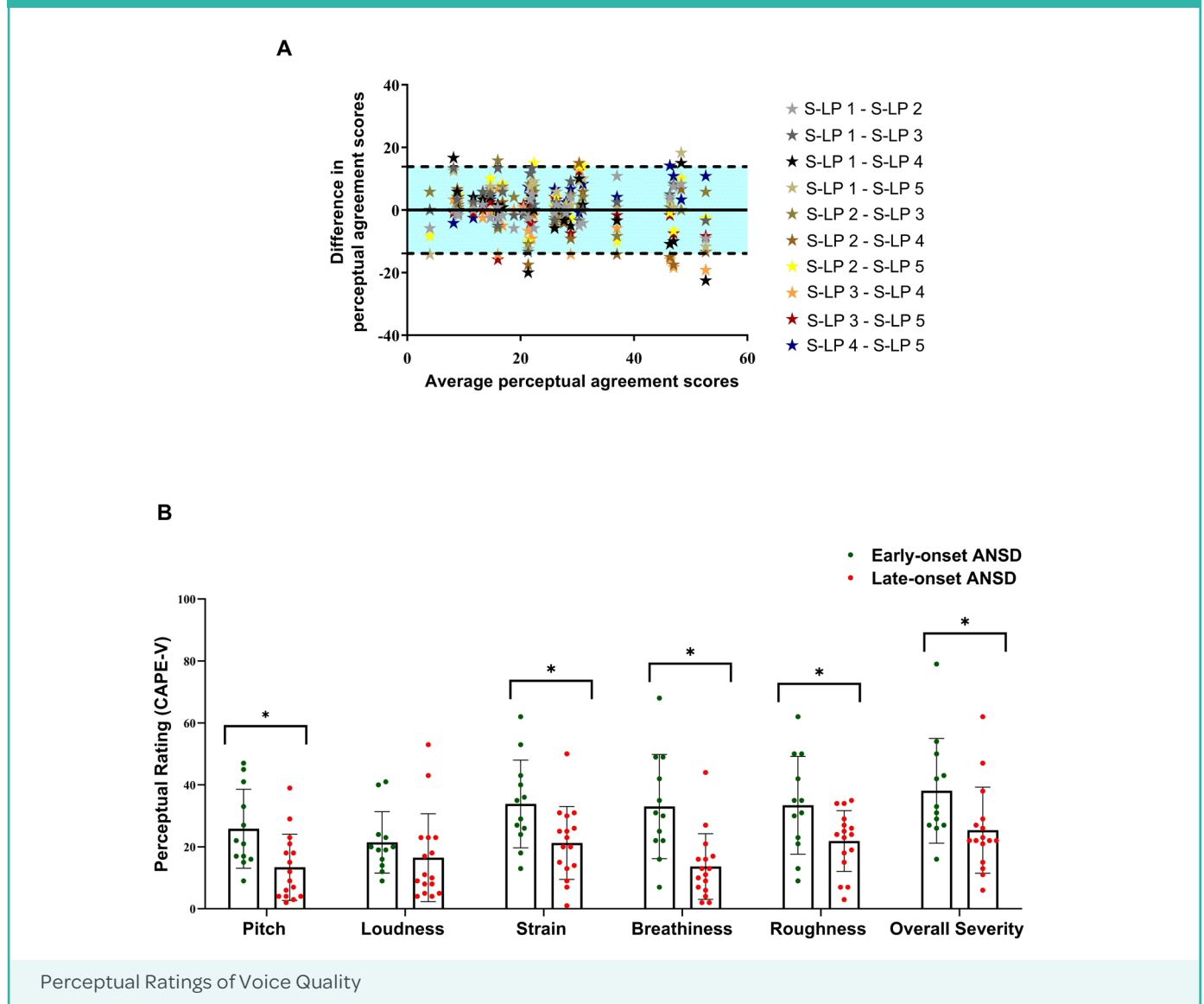
Pathophysiologically, patients with early-onset ANSD present flat audiograms (equally impaired perception across all frequencies), whereas those with late-onset ANSD exhibit a rising type of hearing loss with less impaired high-frequency perception (Kumar & Jayaram, 2006). The pathological limitation of impaired high-frequency perception in the early-onset ANSD group, which occurs at a relatively young age, places them at a disadvantage in the perception of F₂ and F₃ formants of /i/. However, the vowels /a/ and /u/ have relatively lower F₁ and F₂ (though F₃ is high), which might have resulted in lesser perceptual deficits.

The perception-related disadvantage in the early-onset group can be postulated to transfer to the production-related aspect as well. The production-related deficits originating from the perceptual disadvantage can be explained based on behavioural learning theory (Watson, 1913), which advocates that the learning of vocal sound productions occurs by environmental conditioning, feedback reaction, and strengthening behaviour through repeated actions. According to the theory, the feedback received on the perception of the sound gets strengthened through repeated productions. The altered/distorted feedback in individuals with ANSD (Maruthy et al., 2019) during childhood (early-onset) can lead to a deficit in the precise relay of vocal production to the auditory cortex. Thus, high-frequency sound productions, though normal at the early stages, get strengthened by a long-term vicious loop of feedback and altered perception in the early-onset ANSD group, resulting in altered recalibration of high frequency perception. The perception of high-frequency sounds in early-onset groups like those with even mild to moderate sensorineural hearing loss is documented in the literature (Evans & Deliyski, 2007). The relative lack of frequency shifts in late-onset ANSD (compared to the early-onset group) is indicative of the very nature of delayed onset in this group, which otherwise would have affected their voice characteristics, especially the higher formant frequencies.

The group differences noticeable in the acoustic characteristics of voice were also noticed in the CAPE-V ratings by S-LPs, indicative of perceptual voice manifestations of onset-related differences in voice quality between the two groups. This high degree of reliability in voice quality ratings between the five S-LPs in the study ensured similarity and effective perceptual analyses of the voice samples.

The findings of the MANOVA for perceptual parameters suggest that participants in the early-onset group have significantly greater roughness and breathiness of

Figure 5



Note. ANSD = auditory neuropathy spectrum disorder; CAPE-V = Consensus Auditory Perceptual Evaluation of Voice. Panel A: Bland-Altman plots for interjudge agreement. Coloured stars show the agreement between two judges. The blue shaded area represents the limits of agreement ($\pm 1.96 SD$) of the observations. Panel B: Bar graphs depicting *M* and *SD* (error bars) of perceptual ratings of five parameters of voice quality in early-onset and late-onset ANSD groups. * $p < .05$

Table 4

Objective Measure of Agreement in Perceptual Judgments of Five Speech-Language Pathologists

Parameter	Average interclass correlation coefficient	Range of interclass correlation coefficient	<i>p</i> value
Pitch	.67	.47–.78	< .001
Loudness	.59	.43–.75	< .001
Strain	.82	.72–.90	< .001
Roughness	.71	.57–.83	< .001
Breathiness	.69	.54–.81	< .001
Overall severity	.88	.80–.99	< .001

voice than those in the late-onset group. This finding is in consensus with the literature reports of the voice of adults with early-onset hearing loss (i.e., the onset of hearing loss in childhood), who invariably demonstrated greater hoarseness, breathiness, and monotonous voices compared to patients who showed symptoms of hearing loss at a later age (Campisi et al., 2006; Wirz et al., 1981). The reflections of disruptive neural firing in childhood itself in early-onset ANSD can be postulated to limit their auditory feedback (Maruthy et al., 2019), which in turn manifests as difficulties in monitoring their own speech. As a long-standing disruption in auditory neuronal firing, the early-onset group might have been at a serious disadvantage of poor auditory feedback for a long time. Similar findings of reduced vocal loudness in late-onset ANSD, with a long-standing duration (> 5 years) of the disorder, is reported in the literature (Maruthy et al., 2019). In contradiction to these findings, the present study revealed no significant difference in loudness across the groups. This could be because the earlier study compared long-standing ANSD patients with normal controls, whereas the present study included late-onset patients where loudness could be affected due to reduced self-confidence, rather than any physiological basis. Thus, significant difference was not found for this parameter in the present study.

Apart from its strengths, the research also had a few limitations: inclusion of a control group (age and gender matched normal hearing) along with the different onset experimental groups would have given better representation of results. The research, being preliminary in this topic, used visual analyses to locate the most stable parts of the phonation, however more automatic methods for voice detection, such as considering successive 1 s time intervals of the samples (Lechien et al., 2017), could have provided useful information, and comparisons of these methods can be promising avenues for future research in determining ANSD onset-based vocal differences. As ANSD patients are typically described as having monotonous voices, the use of variability as well as mean tendencies would give better representation of the data sets and the extent of deviation present in the sample set. Confounding variables such as history of smoking, time of recording, etc., were not taken into consideration in the present research. Acoustic measures such as smoothed cepstral peak prominence, acoustic voice quality index, and dysphonia severity index have been proven to be more effective in estimating the extent of dysphonia and are linked better with perceived voice quality. Thus, future work can take these considerations and strengthen the link between voice and onset of ANSD.

Conclusions

The present study highlights the acoustic and perceptual differences in vocal characteristics of individuals with early- and late-onset ANSD. The findings from the study add diagnostic value to voice evaluation in individuals with ANSD, which is largely ignored in current clinical practice. The perceptual and acoustical voice evaluation results can be used as tools to verify the onset of the disorder, which is often retrospectively reported by the patient (especially in early-onset ANSD). This can indirectly help in the management of ANSD, with other management options such as compensatory strategies (anticipatory and repair strategies), and environmental modification which would be beneficial for late-onset ANSD patients: applications of cochlear implants in the early-onset group and utility of hearing aids or assistive listening in the late-onset group, as cochlear implants can help in better perception of high frequencies.

Despite the study being a preliminary attempt in the direction of onset-based ANSD differentiation, the generalization of study findings to the ANSD population as a whole warrants caution. A thorough profiling of other voice parameters such as rapid amplitude perturbation, amplitude perturbation quotient, soft phonation index, voice turbulence index, degree and number of voice breaks, and subharmonics will add valuable metrics and help in thorough understanding of onset-based group differences in voice. The study also opens the scope for promising new research on correlation of voice and audiological characteristics, apart from delineating the measures which best predict such onset-based differences.

References

- Audacity. (2020). *Audacity* (Version 3.0.5 beta) [Computer software]. <https://www.audacityteam.org>
- Barman, A., Sinha, S. K., & Prabhu, P. (2016). Amplification strategy to enhance speech perception in individuals with auditory neuropathy spectrum disorder. *Hearing, Balance and Communication*, 14(1), 24–35. <https://doi.org/10.3109/21695717.2015.1075322>
- Başkent, D. (2010). Phonemic restoration in sensorineural hearing loss does not depend on baseline speech perception scores. *The Journal of the Acoustical Society of America*, 128(4), EL169–EL174. <https://doi.org/10.1121/1.3475794>
- Berlin, C. I., Hood, L., Morlet, T., Rose, K., & Brashears, S. (2003). Auditory neuropathy/dys-synchrony: Diagnosis and management. *Mental Retardation and Developmental Disabilities Research Reviews*, 9(4), 225–231. <https://doi.org/10.1002/mrdd.10084>
- Berlin, C. I., Hood, L. J., Morlet, T., Wilensky, D., Li, L., Mattingly, K. R., Taylor-Jeanfreau, J., Keats, B. J. B., John, P. S., Montgomery, E., Shallop, J. K., Russell, B. A., & Frisch, S. A. (2010). Multi-site diagnosis and management of 260 patients with auditory neuropathy/dys-synchrony (auditory neuropathy spectrum disorder *). *International Journal of Audiology*, 49(1), 30–43. <https://doi.org/10.3109/14992020903160892>

- Boersma, P., & Weenink, D. (2010). *Praat* (Version 5.1.32). [Computer software]. Praat. <https://www.fon.hum.uva.nl/praat>
- Boudewyns, A., Declau, F., van den Ende, J., Hofkens, A., Dirckx, S., & Van de Heyning, P. (2016). Auditory neuropathy spectrum disorder (ANSD) in referrals from neonatal hearing screening at a well-baby clinic. *European Journal of Pediatrics*, *175*(7), 993–1000. <https://doi.org/10.1007/s00431-016-2735-5>
- Burris, C., Vorperian, H. K., Fourakis, M., Kent, R. D., & Bolta, D. M. (2014). Quantitative and descriptive comparison of four acoustic analysis systems: Vowel measurements. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, *57*(1), 26–45. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2013\)12-0103](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2013)12-0103)
- Campisi, P., Low, A. J., Papsin, B. C., Mount, R. J., & Harrison, R. V. (2006). Multidimensional voice program analysis in profoundly deaf children: Quantifying frequency and amplitude control. *Perceptual and Motor Skills*, *103*(1), 40–50. <https://doi.org/10.2466/PMS.103.1.40-50>
- Centers for Disease Control and Prevention. (n.d.). *Child development*. <https://www.cdc.gov/ncbddd/childdevelopment/positiveparenting/adolescence.html>
- Chandan, H. S., Prabhu, P., & Deepthi, M. (2013). Prevalence and characteristics of tinnitus in individuals with auditory neuropathy spectrum disorder. *Hearing, Balance and Communication*, *11*(4), 214–217. <https://doi.org/10.3109/21695717.2013.821755>
- Cianfrone, G., Turchetta, R., Mazzei, F., Bartolo, M., & Parisi, L. (2006). Temperature-dependent auditory neuropathy: Is it an acoustic Uthoff-like phenomenon? A case report. *Annals of Otolaryngology, Rhinology and Laryngology*, *115*(7), 518–527. <https://doi.org/10.1177/000348940611500706>
- Clark, J. G. (1980). *Audiology for the school speech-language clinician*. Charles C. Thomas.
- De Siati, R. D., Rosenzweig, F., Gersdorff, G., Gregoire, A., Rombaux, P., & Deggouj, N. (2020). Auditory neuropathy spectrum disorders: From diagnosis to treatment: Literature review and case reports. *Journal of Clinical Medicine*, *9*(4), Article 1074. <https://doi.org/10.3390/jcm9041074>
- Draper, T. H. J., & Bamji, D.-E. (2009). Auditory neuropathy in a patient exposed to xylene: Case report. *The Journal of Laryngology & Otolaryngology*, *123*(4), 462–465. <https://doi.org/10.1017/S0022215108002399>
- Evans, M. K., & Deliyiski, D. D. (2007). Acoustic voice analysis of prelingually deaf adults before and after cochlear implantation. *Journal of Voice*, *21*(6), 669–682. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2006.07.005>
- Goodman, A. (1965). Reference zero levels for pure-tone audiometer. *ASHA*, *7*, 262–263.
- Gupta, S. K., & Venkatesan, S. (2018). *Handbook of research on psychosocial perspectives of human communication disorders*. Information Science Publishing/IGI Global.
- Heikkinen, M., Penttilä, E., Qvarnström, M., Mäkinen, K., Löppönen, H., & Kärkkäinen, J. M. (2021). Patient self-assessment and acoustic voice analysis in screening of postoperative vocal fold paresis and paralysis. *Scandinavian Journal of Surgery*, *110*(4), 524–532. <https://doi.org/10.1177/14574969211007036>
- Ibekwe, T. S., Folorunsho, D. O., Dahilo, E. A., Gbujie, I. O., Nwegbu, M. M., & Nwaorgu, O. G. (2016). Evaluation of mobile smartphones app as a screening tool for environmental noise monitoring. *Journal of Occupational and Environmental Hygiene*, *13*(2), D31–D36. <https://doi.org/10.1080/15459624.2015.1093134>
- Jijo, P. M., & Yathiraj, A. (2012). Audiological characteristics and duration of the disorder in individuals with auditory neuropathy spectrum disorder (ANSD) - A retrospective study. *Journal of Indian Speech and Hearing Association*, *26*(1), 18–26.
- Jijo, P. M., & Yathiraj, A. (2013). Audiological findings and aided performance in individuals with auditory neuropathy spectrum disorder (ANSD) - A retrospective study. *Journal of Hearing Science*, *3*(1), 18–26.
- Kempster, G. B., Gerratt, B. R., Abbott, K. V., Barkmeier-Kraemer, J., & Hillman, R. E. (2009). Consensus auditory-perceptual evaluation of voice: Development of a standardized clinical protocol. *American Journal of Speech-Language Pathology*, *18*(2), 124–132. [https://doi.org/10.1044/1058-0360\(2008\)08-0017](https://doi.org/10.1044/1058-0360(2008)08-0017)
- Kontorinis, G., Lloyd, S. K. W., Henderson, L., Jayewardene-Aston, D., Milward, K., Bruce, I. A., O'Driscoll, M., Green, K., & Freeman, S. R. M. (2014). Cochlear implantation in children with auditory neuropathy spectrum disorders. *Cochlear Implants International*, *15*(sup1), S51–S54. <https://doi.org/10.1179/1467010014Z.000000000157>
- Kumar, U. A., & Jayaram, M. M. (2006). Prevalence and audiological characteristics in individuals with auditory neuropathy/auditory dys-synchrony. *International Journal of Audiology*, *45*(6), 360–366. <https://doi.org/10.1080/14992020600624893>
- Lechien, J. R., Delvaux, V., Huet, K., Khalife, M., Fourneau, A. F., Piccaluga, M., Harmegnies, B., & Saussez, S. (2017). Phonetic approaches of laryngopharyngeal reflux disease: A prospective study. *Journal of Voice*, *31*(1), 119.E11–119.E20. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2016.02.020>
- Lin, E., Hornibrook, J., & Ormond, T. (2012). Evaluating iPhone recordings for acoustic voice assessment. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, *64*(3), 122–130. <https://doi.org/10.1159/000335874>
- Manchiaiah, V. K. C., Zhao, F., Danesh, A. A., & Duprey, R. (2011). The genetic basis of auditory neuropathy spectrum disorder (ANSD). *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, *75*(2), 151–158. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2010.11.023>
- Manfredi, C., Lebacqz, J., Cantarella, G., Schoentgen, J., Orlandi, S., Bandini, A., & DeJonckere, P. H. (2017). Smartphones offer new opportunities in clinical voice research. *Journal of Voice*, *31*(1), 111.E1–111.E7. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2015.12.020>
- Maruthy, S., Rallapalli, V., Shukla, S., & Priya, M. (2019). Consequence of long-standing auditory neuropathy spectrum disorder on voice. *Journal of Indian Speech Language & Hearing Association*, *33*(1), 8–13. https://doi.org/10.4103/jisha.jisha_37_17
- Mittal, R., Ramesh, A. V., Panwar, S. S., Nilkanthan, A., Nair, S., & Mehra, P. R. (2012). Auditory neuropathy spectrum disorder: Its prevalence and audiological characteristics in an Indian tertiary care hospital. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, *76*(9), 1351–1354. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2012.06.005>
- Narne, V. K., Prabhu, P., Chandan, H. S., & Deepthi, M. (2014). Audiological profiling of 198 individuals with auditory neuropathy spectrum disorder. *Hearing, Balance and Communication*, *12*(3), 112–120. <https://doi.org/10.3109/21695717.2014.938481>
- Nikolopoulos, T. P. (2014). Auditory dyssynchrony or auditory neuropathy: Understanding the pathophysiology and exploring methods of treatment. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, *78*(2), 171–173. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2013.12.021>
- Oates, J. (2009). Auditory-perceptual evaluation of disordered voice quality. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, *61*(1), 49–56. <https://doi.org/10.1159/000200768>
- Pentax Medical. (n.d.). *Computerized Speech Lab* [Computer software]. <https://www.pentaxmedical.com/pentax/en/99/1/Computerized-Speech-Lab-CSL>
- Pittman, A. L., & Stelmachowicz, P. G. (2003). Hearing loss in children and adults: audiometric configuration, asymmetry, and progression. *Ear and Hearing*, *24*(3), 198–205. <https://doi.org/10.1097/01.AUD.0000069226.22983.80>
- Prabhu, P., Avilala, V. K. Y., & Manjula, P. P. (2012). Predisposing factors in individuals with late-onset auditory dys-synchrony. *Asia Pacific Journal of Speech, Language and Hearing*, *15*(1), 41–50. <https://doi.org/10.1179/136132812805253758>
- Prabhu, P., & Jamuar, P. (2017). Prevalence of vestibular symptoms in individuals with auditory neuropathy spectrum disorder - A retrospective study. *Intractable and Rare Diseases Research*, *6*(1), 46–49. <https://doi.org/10.5582/irdr.2016.01098>
- Rance, G. (2005). Auditory neuropathy / dys-synchrony and its perceptual consequences. *Trends in Amplification*, *9*(1), 1–43. <https://doi.org/10.1177/108471380500900102>
- Rance, G., Beer, D. E., Cone-Wesson, B., Shepherd, R. K., Dowell, R. C., King, A. M., Rickards, F. W., & Clark, G. M. (1999). Clinical findings for a group of infants and young children with auditory neuropathy. *Ear and Hearing*, *20*(3), 238–252. <https://doi.org/10.1097/00003446-199906000-00006>
- Rance, G., Ryan, M. M., Bayliss, K., Gill, K., O'Sullivan, C., & Whitechurch, M. (2012). Auditory function in children with Charcot-Marie-Tooth disease. *Brain*, *135*(5), 1412–1422. <https://doi.org/10.1093/brain/aww085>
- Rance, G., & Starr, A. (2015). Pathophysiological mechanisms and functional hearing consequences of auditory neuropathy. *Brain*, *138*(11), 3141–3158. <https://doi.org/10.1093/brain/aww270>
- Selby, J. C., Gilbert, H. R., & Lerman, J. W. (2003). Perceptual and acoustic evaluation of individuals with laryngopharyngeal reflux pre- and post-treatment. *Journal of Voice*, *17*(4), 557–570. [https://doi.org/10.1067/S0892-1997\(03\)00017-1](https://doi.org/10.1067/S0892-1997(03)00017-1)

- Semel, E. M., & Wiig, E. H. (1980). *Clinical Evaluation of Language Functions: Elementary Screening Test*. The Psychological Corporation.
- Shivashankar, N., Satishchandra, P., Shashikala, H. R., & Gore, M. (2003). Primary auditory neuropathy - An enigma. *Acta Neurologica Scandinavica*, *108*(2), 130–135. <https://doi.org/10.1034/j.1600-0404.2003.00104.x>
- Sininger, Y., & Oba, S. (2001). Patients with auditory neuropathy: Who are they and what can they hear? In Y. Sininger & A. Starr (Eds.), *Auditory neuropathy: A new perspective on hearing disorder* (pp. 15–36). Singular Publishing Group.
- Sjöländer, K., & Beskow, J. (2000). Wavesurfer - An open source speech tool. *Proceedings of the 6th International Conference on Spoken Language Processing*, *4*, 464–467. <https://doi.org/10.21437/ICSLP.2000-849>
- Sreedevi, N. (2000). *Acoustic characteristics of vowels in Kannada* [Unpublished doctoral dissertation]. University of Mysore.
- Starr, A., Picton, T. W., Sininger, Y., Hood, L. J., & Berlin, C. I. (1996). Auditory neuropathy. *Brain*, *119*(3), 741–753. <https://doi.org/10.1093/brain/119.3.741>
- Starr, A., Sininger, Y. S., & Pratt, H. (2000). The varieties of auditory neuropathy. *Journal of Basic and Clinical Physiology and Pharmacology*, *11*(3), 215–230. <https://doi.org/10.1515/JBCPP.2000.11.3.215>
- Uloza, V., Padervinskis, E., Vegiene, A., Pribuisiene, R., Saferis, V., Vaiciukynas, E., Gelzinis, A., & Verikas, A. (2015). Exploring the feasibility of smart phone microphone for measurement of acoustic voice parameters and voice pathology screening. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology*, *272*(11), 3391–3399. <https://doi.org/10.1007/s00405-015-3708-4>
- Venkatesan, S., & Basavaraj, V. (2009). Ethical guidelines for bio behavioral research. In *Mysore: All India Institute of Speech and Hearing* (pp. 1–23). AIISH.
- Wang, W., Zhang, G., Yang, L., Balaji, V. S., Elamaran, V., & Arunkumar, N. (2019). Revisiting signal processing with spectrogram analysis on EEG, ECG and speech signals. *Future Generation Computer System*, *98*, 227–232. <https://doi.org/10.1016/j.future.2018.12.060>
- Watson, J. B. (1913). Psychology as the behaviourist views it. *Psychological Review*, *20*(2), 158–177. <https://doi.org/10.1037/h0074428>
- Wirz, S. L., Subtelny, J. D., & Whitehead, R. L. (1981). Perceptual and spectrographic study of tense voice in normal hearing and deaf subjects. *Folia Phoniatica et Logopaedica*, *33*(1), 23–36.

Authors' Note

Correspondence concerning the article should be addressed to Prashanth Prabhu, Assistant Professor in Audiology, Department of Audiology, All India Institute of Speech and Hearing, Manasagangothri, Mysuru- 570 006, INDIA. Email: prashanthprabhu@aiishmysore.in

Disclosures

No conflicts of interest, financial or otherwise, are declared by the authors.

Acknowledgments

The authors acknowledge with gratitude Prof. M Pushpavathi, Director, All India Institute of Speech and Hearing, Mysore affiliated to the University of Mysore, for permitting us to conduct the study at the institute. The authors would also like to acknowledge the participants for their cooperation.



Innovation sociale en orthophonie : coconstruction avec le milieu communautaire d’une formation pour des moniteurs de camps de jour et de loisirs



Social Innovation in Speech-Language Pathology: Coconstruction of a Training Program for Day-Camp Counsellors With Community Partners

MOTS-CLÉS
FORMATION
MONITEURS
LOISIRS
INCLUSION
ENFANTS
DIFFICULTÉS DE COMMUNICATION

Jessica Sylvain
 Éliane Morissette
 Sarah Martin-Roy
 Marie Grandisson
 Francine Julien-Gauthier
 Chantal Desmarais

Jessica Sylvain, Éliane Morissette, Sarah Martin-Roy, Marie Grandisson, Francine Julien-Gauthier et Chantal Desmarais

Centre intégré universitaire de santé et de services sociaux de la Capitale-Nationale, Québec, QC, CANADA

Université Laval, Québec, QC, CANADA

Centre interdisciplinaire de recherche en réadaptation et en intégration sociale, Québec, QC, CANADA

Abrégé

Pour participer pleinement aux loisirs, les enfants présentant des difficultés de communication ont besoin du soutien des adultes. Or, lorsque ces enfants fréquentent un camp de jour estival, ils interagissent souvent avec de jeunes moniteurs qui ne sont pas suffisamment formés pour offrir une expérience de loisir inclusive à ces enfants qui présentent des difficultés de communication. Cet article clinique qui s’inscrit dans une perspective d’innovation sociale répond à la demande d’un organisme de loisirs du secteur communautaire. Il décrit la coconstruction et l’appréciation d’une formation destinée à des moniteurs de camp de jour et conçue pour les outiller de stratégies favorisant la communication, à l’intention des enfants présentant des difficultés de communication dans un groupe. L’équipe de recherche et un partenaire de la communauté ont collaboré avec un organisme de loisirs à l’élaboration de cette formation. Deux stagiaires en orthophonie ont conçu le matériel sous la supervision d’orthophonistes et de chercheurs, puis elles ont offert la formation à plus de 250 moniteurs de camp de jour dans sept milieux en juin 2019. Les participants ont rempli des questionnaires d’évaluation, lesquels ont permis de bonifier la formation en apportant des précisions et en mettant l’accent sur des éléments essentiels. Le matériel de formation est disponible gratuitement en contactant les auteurs.

Rédacteur :
 Stefano Rezzonico
Rédacteur en chef :
 David H. McFarland

Abstract

Children with communication difficulties need adult support to participate fully in recreational activities. However, when children with communication difficulties attend summer day camps, they often interact with young counsellors who are not sufficiently trained to provide an inclusive recreational experience for them. This clinical focus paper describes the social innovation perspective we took in responding to a request from a community-based recreational organization. It describes the coconstruction and evaluation of a training program for day-camp counsellors designed to equip them with strategies promoting communication in group settings for children with communication difficulties. The research team and a community partner collaborated with the recreational organization to develop the program. Two speech-language pathology interns designed the training materials under the supervision of speech-language pathologists and researchers and then delivered the training to over 250 day-camp counsellors in seven settings in June 2019. Trainees completed evaluation questionnaires and these were used to improve the training by adding details and putting emphasis on essential elements. The training materials are freely available by contacting the authors.

Environ 10 % des enfants de 6 à 12 ans présentent des difficultés de communication (DC; Norbury et al., 2016). Cette proportion inclut, entre autres, ceux qui vivent avec un trouble développemental du langage, un trouble du spectre de l'autisme, une déficience intellectuelle ou une déficience physique. Lorsqu'ils participent à des activités de loisirs en groupe, il est facilitant que les personnes qui interagissent avec les enfants pendant ces activités aient des connaissances et des stratégies pour optimiser la communication et les interactions adulte-enfant ainsi que les interactions entre les enfants. L'interaction adulte-enfant est en effet un élément clé de soutien au développement langagier et, plus particulièrement, à celui des enfants présentant des DC (Kaiser et Roberts, 2013; Trivette et Dunst, 2014). Par exemple, au sein d'un groupe d'enfants, les personnes responsables peuvent aider ceux-ci à mieux comprendre la situation en leur démontrant ce qui est attendu d'eux et en leur expliquant d'une manière plus adaptée. Ils peuvent également aider les enfants à mieux s'exprimer en leur posant des questions qui les amènent à préciser leur pensée. Ainsi, dans les activités de camp de jour, les moniteurs jouent un rôle important dans l'intégration des enfants présentant des DC.

Dans une perspective d'inclusion sociale et d'accessibilité universelle (Conseil du Premier ministre pour les personnes handicapées, 2018; Gouvernement du Canada, 2022) des efforts sont consentis pour permettre aux enfants présentant un handicap, incluant les enfants présentant des difficultés de langage et de communication, de participer à des activités dans les milieux réguliers. Cela inclut notamment les activités de loisirs de leur communauté et les camps de jour estivaux. Toutefois, pour que cette expérience de loisir en contexte inclusif soit positive, il est crucial que les personnes qui interagissent avec les enfants présentant des DC soient sensibles aux défis vécus par ceux-ci et outillées pour faciliter les interactions adulte-enfant ainsi que les interactions entre les enfants vivant avec des DC et les autres enfants du groupe (Batorowicz et al., 2016). Or, les moniteurs de camps de jours ne sont généralement pas formés pour intervenir auprès de jeunes présentant des troubles développementaux et la prise en charge de ces enfants peut représenter un défi. Pourtant, l'importance de former les intervenants au sujet des meilleures pratiques pour soutenir le développement des enfants ayant des incapacités est bien réelle (Brown et Stanton-Chapman, 2017; Odom, 2009).

Au Québec, le Programme DAFA (diplôme d'aptitude aux fonctions d'animateur) est offert aux moniteurs de camps de jour. Cette formation fournit des notions de base sur les besoins des enfants et des adolescents en plus de viser à

assurer la sécurité des groupes de jeunes de 5 à 17 ans et la qualité de l'animation (Programme DAFA, 2019). Certaines composantes de la communication, dont quelques règles et conseils, ainsi que les aspects de la communication verbale et non verbale sont abordés. Toutefois, selon le partenaire instigateur du projet, cette formation ne prépare pas suffisamment les moniteurs à soutenir une expérience inclusive et positive pour l'ensemble des enfants. En effet, des communications personnelles entre la chercheuse responsable et les représentants du milieu preneur et instigateur du projet, le Patro Roc-Amadour¹, ont fait ressortir les besoins prioritaires d'une formation axée sur la communication entre les moniteurs et les enfants qui vivent des DC. Il apparaît que les moniteurs ne savent pas toujours comment saisir les occasions qu'offrent les activités ludiques et les loisirs pour promouvoir le développement de la communication et de la socialisation. Or, ce sont des occasions exceptionnelles d'apprentissage en contexte réel pour les enfants. Dans une perspective d'innovation sociale (Réseau québécois en innovation sociale [RQIS], 2019), ce besoin de formation exprimé par un partenaire a été le déclencheur du projet. Comme défini dans la *Déclaration québécoise pour l'innovation sociale* (RQIS, 2011), une innovation sociale est une nouvelle idée, approche ou intervention qui répond de manière plus adéquate et durable que les solutions existantes à un besoin social défini. C'est une solution qui a trouvé preneur dans une organisation ou dans une communauté et qui produit un bénéfice mesurable pour la collectivité et non seulement pour certains individus. Le RQIS (2011) indique que : « la portée d'une innovation sociale est transformatrice et systémique. Elle constitue, dans sa créativité inhérente, une rupture avec l'existant. » Il s'agit donc de faire preuve d'audace et de prendre certains risques pour innover.

Pour répondre au besoin exprimé par le preneur du projet, une formation a été développée pour outiller les moniteurs de camps de jour dans le soutien qu'ils offrent aux enfants présentant des DC et faciliter la participation de ceux-ci aux activités aux côtés de leurs pairs. Cette participation inclusive permet de favoriser le développement des habiletés de communication de ces enfants ainsi que leur autonomie dans les interactions sociales.

De manière générale, les défis liés à la participation aux loisirs des personnes vivant avec une incapacité sont souvent abordés du point de vue de l'accès et sous l'angle de la participation sociale de ces dernières (Carbonneau et al., 2015). Précisons que selon Carbonneau et al. (2015), l'expérience de loisirs inclusive est le résultat d'une interaction entre (a) l'accès aux espaces et aux

¹Le Patro Roc-Amadour est un centre communautaire de la ville de Québec qui favorise le développement intégral de la personne par le biais des loisirs et d'un service d'entraide (Patro Roc-Amadour, 2019).

équipements appropriés pour permettre une pratique de loisirs répondant aux désirs et aspirations de la personne, (b) l'établissement de relations significatives et d'interactions positives avec les autres participants, (c) l'engagement dans une activité significative, adaptée aux capacités de la personne et qui lui permet de mettre à profit son plein potentiel.

Dans le cadre de cette étude, le fait que des personnes ayant des incapacités participent à des activités de loisir inclusives est perçu comme un dispositif de stimulation du développement de la communication puisqu'elle est essentielle à l'établissement de relations significatives entre les personnes. De plus, Weisberg et al. (2013) ont démontré que le jeu, soutenu par des adultes, est un contexte idéal pour favoriser le développement du langage. La modalité de formation du personnel non professionnel (*paraeducators*) visant à les outiller pour soutenir les enfants ayant des besoins complexes de communication est une avenue intéressante. Effectivement, les résultats de l'étude de Douglas, Light et McNaughton (2013) montrent les effets bénéfiques de la formation auprès de ces intervenants, notamment l'amélioration et l'augmentation de la communication pendant les périodes de jeu. Cette formation offerte en ligne a aussi amené, entre autres, une augmentation des comportements de communication des enfants (Douglas, McNaughton et Light, 2013).

Considérant le contexte d'innovation sociale de cette étude, peu d'écrits scientifiques ont été trouvés en lien avec la problématique de recherche. La recherche documentaire a néanmoins permis de trouver des études sur quelques groupes d'enfants susceptibles de vivre des DC, c'est-à-dire ceux qui présentent un trouble du spectre de l'autisme, un trouble développemental ou un trouble sévère de la communication.

Concernant les adolescents et les adultes présentant un trouble du spectre de l'autisme, Orsmond et al. (2004) indiquent qu'ils éprouvent des difficultés sociales dont une faible régulation des interactions sociales, une grande difficulté à établir et à maintenir des relations d'amitié significatives et peu d'initiations sociales avec les pairs. Les personnes autistes de 10 ans et plus ayant moins d'habiletés verbales sont moins portées à prendre des initiatives auprès de leurs pairs, ce qui diminue le potentiel d'amitiés et réduit les occasions de participation sociale. En outre, une étude de Clarke et al. (2011) a montré que pour l'aidant, la perception des DC chez un enfant ainsi que le stress engendré par la situation semblent le rendre moins enclin à offrir des occasions de participation à l'enfant présentant des besoins de communication

complexes dans différentes activités. Enfin, une étude de Brookman et al. (2003), au sujet d'un camp de jour communautaire qui accueillait des enfants tout-venant et des enfants autistes de 4 à 10 ans aux niveaux de fonctionnement et de communication variés, a montré que le soutien d'accompagnateurs formés pour promouvoir les interactions sociales avait un effet bénéfique pour l'inclusion des enfants ayant des besoins particuliers au sein de groupes d'enfants de leur âge.

De leur côté, les enfants vivant avec un trouble développemental ont fréquemment besoin d'assistance afin de favoriser les interactions avec leurs pairs, de retenir leur attention et de faciliter leur compréhension lors d'activités récréatives et, par conséquent, peuvent être exclus des activités régulières s'ils n'ont pas accès à du soutien. Or, l'intégration de ces enfants de 6 à 13 ans à des activités régulières avec leurs pairs sans incapacité (ou sans trouble de développement) a des effets positifs, tant au niveau du plaisir ressenti lors des activités que de la richesse des interactions entre les enfants et les accompagnateurs, des étudiants universitaires (Fennick et Royle, 2003). Les activités qui favorisent l'intégration sociale des enfants vivant avec une incapacité moyenne ou sévère pourraient réduire la proportion d'activités qu'ils pratiquent en solitaire et ainsi limiter les risques d'isolement social à l'âge adulte (Kleinert et al., 2007). En somme, plusieurs études montrent l'importance d'inclure les enfants avec des incapacités modérées à sévères dans des activités de loisir. Ces enfants ont besoin d'occasions et d'enseignement explicite pour participer et développer des habiletés nécessaires à une pleine contribution sociale.

Quant aux enfants ayant un trouble sévère de la communication et qui requièrent une aide technique à la communication, ils ont besoin d'un soutien pour utiliser des moyens alternatifs pour s'exprimer (O'Neill et al., 2017). Les environnements naturels tels que les activités de loisir apparaissent privilégiés pour stimuler les habiletés de ces enfants, surtout lorsque les accompagnateurs sont formés pour saisir et optimiser les occasions de communication.

La période estivale semble un contexte favorable pour encourager les échanges entre les enfants dans le cadre de jeux et les apprentissages langagiers à travers ceux-ci, ce qui est appuyé par plusieurs études. En effet, les jeux aident les enfants à développer leur langage, car ils intègrent de nombreux éléments d'acquisition de connaissances et d'interaction sociale reconnus pour améliorer les compétences linguistiques, avec le soutien des adultes (Weisberg et al., 2013). Les résultats d'une méta-analyse suggèrent d'ailleurs une association robuste

entre le jeu symbolique et le langage chez les enfants d'âge préscolaire (Quinn et al., 2018). Par ailleurs, un autre bénéfice des activités ludiques en groupe est qu'elles produisent un effet d'entraînement; l'expression des uns semble ainsi stimuler celle des autres (Picon, 2009). Enfin, rappelons que les expériences inclusives en camp de jour bénéficient à tous les enfants. Elles permettent à ceux qui présentent des DC, ou une autre incapacité, de participer à des activités significatives et motivantes, et de développer des relations positives avec les autres enfants ainsi qu'un sentiment d'appartenance à un groupe (Carbonneau et al., 2015). De leur côté, les enfants sans DC ou incapacité sont conscientisés à la différence et éventuellement à l'acceptation, à l'entraide et à l'adoption de comportements inclusifs (Grandisson et al., 2012).

En cherchant des exemples de programmes proposés dans les services de loisirs, peu de résultats ont été obtenus. Par contre, le programme *Let's ALL Play* (Siperstein et al., 2011) a été relevé et constitue une avenue prometteuse pour répondre au besoin exprimé par l'organisme partenaire. Ce programme, implanté dans des camps de jour américains auprès d'enfants ayant un trouble développemental, vise à améliorer la structure du camp et la communication entre les employés, les parents et les enfants. Une formation est offerte aux moniteurs et les jeux proposés dans ce programme favorisent l'inclusion de tous. Les résultats ont montré que les intervenants se sentaient mieux outillés pour répondre aux besoins des jeunes et que les enfants s'étaient améliorés sur les plans de l'engagement, des habiletés sociales et de l'estime de soi.

Cette recension des écrits a fourni à l'équipe de recherche des informations pertinentes pour mettre en évidence le besoin exprimé par l'organisme preneur. En réponse à ce besoin, il est jugé opportun de mieux outiller les moniteurs pour leur permettre de soutenir le développement des habiletés de communication des enfants présentant des DC, et ce, dans des situations concrètes de loisirs. Les objectifs de la présente étude sont donc (a) de présenter la démarche de coconstruction avec des partenaires communautaires d'une formation pour les moniteurs de camp de jour et (b) de documenter l'appréciation de cette formation par les moniteurs de camps de jour eux-mêmes.

Méthodologie

Le projet de recherche a été approuvé par le comité d'éthique sectoriel en réadaptation et intégration sociale du Centre intégré universitaire de santé et de services sociaux de la Capitale-Nationale (Projet n° 2020-1815). Ce projet a

été conçu dans une perspective d'innovation sociale (RQIS, 2019) à partir d'un besoin exprimé par le milieu preneur, le Patro Roc-Amadour.

Phase 1 - Coconstruction de la formation

Partenariat

L'équipe de coconstruction de la formation est composée de trois partenaires : le Patro Roc-Amadour, instigateur du projet, la Clinique d'orthophonie sociale de Québec, expert-conseil, et l'Université Laval, soit deux étudiantes à la maîtrise en orthophonie et trois chercheurs qui les ont encadrées. L'élaboration de la formation a eu lieu en deux temps. Premièrement, à l'été 2018, une version pilote a été expérimentée par les deux étudiantes à la maîtrise en orthophonie grâce au Fonds de soutien à l'innovation sociale de l'Université Laval. Cette version, ayant entre autres l'objectif d'enseigner des stratégies de stimulation de langage, fut présentée à deux reprises à l'équipe de moniteurs et d'accompagnateurs ($n =$ environ 80) du Patro Roc-Amadour. Deuxièmement, puisque ce dernier a rapporté des retombées positives dans le milieu à la suite du projet pilote, ces deux mêmes étudiantes ont réalisé un stage de recherche à l'été 2019, dont l'expérience est décrite dans le présent article clinique.

Procédure de coconstruction

Le déclencheur du projet a été une prise de contact d'une représentante du Patro Roc-Amadour avec la chercheuse responsable pour discuter des besoins du milieu en lien avec l'intégration des enfants présentant des DC dans les camps de jour. Le manque de formation des moniteurs en camps de jour fut saillant dans les discussions. L'idée du développement d'une formation pour soutenir les intervenants en loisir dans leurs interventions avec des jeunes présentant des DC fut alors proposée comme piste de solution. À partir des commentaires recueillis lors de la phase pilote, les premières auteures de cet article avec l'équipe de recherche et une orthophoniste de la Clinique d'orthophonie sociale de Québec ont ensuite ciblé les objectifs de la formation et réfléchi à sa structure. L'élaboration de la formation s'est ensuite appuyée sur une approche itérative d'application des connaissances recommandée par les Instituts de recherche en santé du Canada (Graham et al., 2006). Ainsi, tout au long du processus de coconstruction de la formation, des itérations ont eu lieu et le Patro Roc-Amadour a proposé des ajustements quant à la forme (temps de la présentation, présence d'activités pratiques) et à l'ordre de priorité des objectifs en fonction du contexte des camps de jour de l'organisme. Prenant ces commentaires en considération, les étudiantes, en collaboration avec la

Clinique d'orthophonie sociale de Québec, ont développé la formation. Avant de la présenter une première fois à un groupe de moniteurs, la formation fut partagée à nouveau avec le milieu preneur et, une fois de plus, ajustée en fonction de leurs commentaires. Tous les partenaires du projet se sont également rencontrés à trois reprises dans ce processus soit au début, au milieu et à la fin du projet, dans le but d'en assurer la plus grande qualité.

Orientation générale

Le design universel de l'apprentissage (Consortium d'animation sur la persévérance et la réussite en enseignement supérieur, 2021) est un cadre approprié pour envisager l'intervention des moniteurs de camps de jour. De ce fait, lors du développement de la formation, il a été décidé de miser sur les stratégies à adopter pour favoriser la communication chez tous les enfants, en tenant compte de la réalité des moniteurs, plutôt que d'aborder la situation des jeunes à partir de diagnostics. Les moniteurs de camp de jour ne détiennent, en effet, pas de formation spécifique en intervention et ils n'ont pas non plus accès aux évaluations, aux plans d'intervention ou aux diagnostics des enfants. Il s'avère aussi difficile pour eux de s'ajuster au style de communication de chaque enfant, c'est pourquoi les moniteurs devraient plutôt miser sur des stratégies bénéfiques pour tous, mais avant tout pour les enfants présentant des besoins particuliers sur le plan de la communication. Des recherches montrent d'ailleurs que les enseignants apprécient les stratégies qui s'appliquent à tous en contexte naturel, plutôt que des stratégies différentes pour chaque enfant (Wilson et Harris, 2018). Les stratégies qui ciblent toute la classe ou tout le groupe d'enfants sont aussi plus faciles à implanter (Rens et Joosten, 2014).

Forme de la présentation

Présentée à la section « résultats », la version définitive de la formation offerte aux moniteurs de camp de jour découle du stage terminal en orthophonie des deux premières auteures qui s'est déroulé sur une période de six mois en 2019 incluant la période estivale des camps de jour.

Phase 2 - Expérimentation

Appréciation de la formation par les moniteurs de camps de jour

Participants. Le recrutement des participants à la formation a été réalisé par le biais d'organismes de loisirs de la région de Québec qui souhaitaient y participer. Une personne-ressource de la Ville de Québec a transmis l'offre de formation aux 47 organisations en loisirs de la Ville de Québec au printemps 2019. L'échantillon de convenance a été constitué de 243 moniteurs des sept organismes de

loisirs qui se sont portés volontaires en répondant à l'offre de formation qui leur a été partagée par courriel.

Collecte de données. Un formulaire d'appréciation contenant 17 questions a permis de documenter la satisfaction de plus de 200 participants à la formation en 2019. Les questions ont été inspirées d'un formulaire d'appréciation utilisé par la Faculté des sciences infirmières de l'Université Laval et ont été adaptées au contexte du présent projet par les deux stagiaires de recherche, puis revues par la chercheuse principale. Pour répondre aux questions 1 à 10, les participants donnaient leur opinion sur divers aspects de la formation via une échelle de Likert de 1 [tout à fait en désaccord] à 4 [tout à fait d'accord] avec la possibilité d'écrire « sans objet ». Les questions 11 à 14 appelaient, quant à elles, des réponses courtes, et les questions 15 à 17 permettaient de mieux connaître les répondants, à l'aide de choix de réponse.

Analyses. Les réponses au formulaire d'appréciation de la formation ont fait l'objet d'analyses quantitatives descriptives (informations sociodémographiques et réponses via l'échelle de Likert) et d'analyses qualitatives de contenu visant à dégager les thèmes les plus fréquemment rapportés (Braun et Clarke, 2006).

Résultats

Phase 1 - Coconstruction de la formation

La formation a été offerte à huit reprises en juin 2019, dans sept organismes de loisirs offrant des activités de camps de jour, à un total de 243 moniteurs. Le nombre de participants à chacune des formations variait entre 10 et 60, pour une moyenne de 30 participants et un écart-type de 15,9. Tout de suite après la tenue des formations, le formulaire d'évaluation a été rempli par 243 participants. Notons que quelques questions n'ont pas été complétées par tous les participants. Pour l'ensemble des questions, le nombre de répondants varie donc de 205 à 243.

Description de la formation présentée aux moniteurs

La formation *Mieux communiquer pour participer*, d'une durée de 90 minutes, a été offerte par les deux étudiantes à la maîtrise en orthophonie, qui sont les deux premières auteures de cet article. Les séances de formation ont eu lieu dans les locaux des sept organisations en loisirs de l'échantillon en juin 2019. Les objectifs de la formation étaient de sensibiliser les moniteurs de camps de jour aux défis vécus par les enfants présentant des DC et de leur fournir des stratégies pour faciliter la communication avec des enfants de 6 à 12 ans présentant des DC et leur intégration au sein de leur groupe.

Le choix du contenu a été établi en concertation avec l'équipe de recherche. Le contenu de la formation inclut 5 éléments soit (a) définir la communication et ses composantes; (b) connaître les impacts des DC en contexte de loisir; (c) définir l'inclusion et comprendre ses avantages; (d) sensibiliser les moniteurs à leur rôle auprès des jeunes présentant des DC; et (e) connaître des stratégies de soutien à la communication afin que les moniteurs se sentent plus outillés pour inclure des enfants présentant des DC au sein de leur groupe.

La formation proposée comporte deux sections : une théorique et une pratique. La première partie aborde la communication de manière générale en plus de présenter un exemple des difficultés vécues par un jeune présentant des DC dans une journée typique de camp de jour. Des stratégies de communication favorisant la compréhension et l'expression du langage ainsi que les interactions entre les enfants sont présentées. À même cette partie théorique, une vidéo créée dans le cadre du projet a été diffusée et des activités interactives ont été organisées afin de rendre plus concrets les éléments abordés et de maintenir l'attention des moniteurs. Par la suite, cinq mises en situation ont été proposées afin d'illustrer et de soutenir l'appropriation de cinq stratégies. Ces dernières ont été jugées très pertinentes par les étudiantes et leurs superviseurs ayant de l'expérience en animation de groupe et en accompagnement d'intervenants, ainsi que par les partenaires du projet, considérant le contexte d'intervention. Ces stratégies sont (a) d'observer la communication non verbale et d'interpréter les intentions des enfants; (b) de poser des questions pour aider l'enfant à préciser ses idées; (c) de demander à l'enfant d'utiliser des repères dans son environnement; (d) de reformuler les propos de l'enfant pour en valider la compréhension; et (e) d'aider l'enfant à trouver d'autres mots pour s'exprimer lorsqu'il hésite.

Phase 2 - Expérimentation

Appréciation de la formation

Description de l'échantillon. Les participants aux formations ont fourni des informations sociodémographiques en plus de faire l'évaluation de la formation. L'expérience en intervention des participants a été établie à partir du nombre approximatif de mois durant lesquels ils ont occupé un emploi relié à l'intervention (p. ex. à titre de moniteurs d'un camp de jour estival ou dans un centre communautaire durant l'année scolaire). Le **tableau 1** présente ces résultats à partir des 205 réponses obtenues. Il est à noter que plus de 40 % des répondants occupaient un premier emploi et que 75 % d'entre eux avaient moins de 24 mois d'expérience en intervention.

Tableau 1

Nombre de mois d'expérience en lien avec l'intervention des participants à la formation

Durée de l'expérience en lien avec l'intervention (n = 218)	% des participants
Premier emploi	40,4
2 à 6 mois	11,9
7 à 12 mois	11,9
13 à 24 mois	10,1
25 mois et plus	25,7
Total	100,0

Concernant l'âge des moniteurs de camps de jour, les précisions sont présentées au **tableau 2**.

Formulaire d'appréciation : questions fermées. Le **tableau 3** présente les résultats quantitatifs descriptifs de l'évaluation de la formation, soit les réponses aux questions 1 à 10 (n = 238 à 243). De manière générale, les réponses des participants indiquent que la formation a été pertinente et appréciée pour la plupart d'entre eux. En effet, la grande majorité des participants (entre 91 % et 99 % selon les questions) ont affirmé être « tout à fait en accord » ou « en accord » avec les 10 énoncés. Les participants rapportent mieux comprendre l'importance d'utiliser des stratégies de communication soutenantes. Toujours selon eux, les stratégies de communication ont été présentées de manière claire et la formation est pertinente pour leur emploi en camp de jour. En revanche, certains participants ont trouvé que le contenu était peu ajusté à leur réalité en camp de jour et que les ateliers pratiques ne leur ont pas permis de consolider leurs apprentissages.

Formulaire d'appréciation : questions ouvertes.

Les commentaires manuscrits des participants ont été retranscrits et parfois résumés dans un fichier Excel par les deux premiers auteurs. Certains commentaires ont été

Tableau 2

Âge des participants à la formation

Âge des participants (n = 205)	% des participants
13 et 14 ans	2,9
15 à 18 ans	53,7
19 à 22 ans	34,6
23 ans et plus	8,8
Total	100,0

Tableau 3**Résultats au formulaire d'évaluation de la formation**

Énoncés	Tout à fait en accord 4	En accord 3	En désaccord 2	Tout à fait en désaccord 1	Sans objet S. O.
1. La qualité de la présentation était satisfaisante.	65,4 %	32,1 %	2,5 %	0 %	0 %
2. Les présentatrices ont su garder ma motivation et mon intérêt.	48,3 %	46,2 %	4,2 %	0,8 %	0,5 %
3. La longueur de la formation était adéquate.	50,8 %	40,1 %	7,9 %	1,2 %	0 %
4. Le contenu était ajusté à ma réalité en camp de jour.	63 %	30 %	4,1 %	1,2 %	1,7 %
5. Je comprends l'importance d'utiliser des stratégies de communication soutenantes.	84 %	15,2 %	0,8 %	0 %	0 %
6. Les stratégies de communication ont été présentées de manière claire.	70,8 %	26,7 %	2,5 %	0 %	0 %
7. Les ateliers pratiques m'ont permis de consolider mes apprentissages.	57,2 %	35 %	5,8 %	1,6 %	0,4 %
8. À la suite de cette formation, je suis fortement motivé à appliquer mes apprentissages dans le cadre de mon travail.	64,9 %	33,5 %	1,6 %	0 %	0 %
9. Cette formation est pertinente pour mon emploi en camp de jour.	77,4 %	21 %	1,2 %	0,4 %	0 %
10. Je recommande cette formation à tous les moniteurs.	66,7 %	28,8 %	3,3 %	0,8 %	0,4 %

regroupés lorsque deux moniteurs exprimaient la même idée. Les commentaires plus généraux, comme « belle présentation », ont été omis du tableau. Le **tableau 4** résume les commentaires formulés par écrit par les participants à la formation. Ils incluent des points forts de la formation ainsi que des pistes d'amélioration, tant sur le plan du contenu que de la forme. Les points forts font référence à trois grandes catégories, soit le contenu, l'animation et la durée, alors que les pistes d'améliorations touchaient principalement deux aspects, soit le contenu et la logistique.

Améliorations apportées à la formation pour proposer une version définitive

Après avoir pris connaissance de l'ensemble des commentaires des participants, les partenaires du projet ont apporté des améliorations à la formation. Il a d'abord été identifié que des précisions devaient être présentées en tout début de formation pour bien définir et camper les objectifs de la formation. Par exemple, il a été décidé d'indiquer d'entrée de jeu que la formation s'adresse aux moniteurs d'enfants âgés de 6 à 12 ans et de souligner que la présentation vise à améliorer les connaissances des intervenants pour qu'ils soient plus outillés à l'utilisation de

stratégies favorisant une bonne communication avec leurs jeunes (présentant ou non des DC).

Pour améliorer la formation, il a également été décidé de mettre l'accent sur le fait que les stratégies peuvent être utilisées pour intervenir sur des comportements observables chez les enfants plutôt que par rapport à des diagnostics médicaux. Aussi, il a été convenu de préciser au début de la formation la définition de l'inclusion, c'est-à-dire que l'inclusion sociale comprend trois principaux concepts : (a) la participation d'une personne aux activités de sa communauté; (b) l'établissement de relations interpersonnelles positives; et (c) le développement d'un sentiment d'appartenance (Hall, 2009; Simpican et al., 2015). À ce sujet, l'inclusion des enfants présentant des DC s'observe en s'assurant que tous les enfants ont les mêmes occasions de vivre une expérience significative au camp de jour et d'établir des relations sociales significatives (National Inclusion Project, 2019). Une section sur l'inclusion des enfants présentant des DC dans un camp de jour a été ajoutée à la formation, en prenant soin d'illustrer concrètement ce que l'inclusion signifie, en s'inspirant de la capsule vidéo *Let's ALL Play*, de Siperstein et al. (2011).

Tableau 4**Commentaires des participants à la formation inscrits dans le questionnaire d'évaluation de la formation****Points forts de l'activité de formation****Contenu**

Thèmes abordés : Sensibilisation à la réalité des enfants en difficulté, stratégies présentées;

Support technologique utilisé : présentation PowerPoint, vidéo;

Activités en cours de présentation et exemples variés;

Activités et stations appréciées : station 2 (jeux de rôle pour pratiquer les stratégies pour soutenir la communication) et station 3 (tour de blocs avec différents handicaps);

Partie théorique et outils disponibles;

Pertinence de la formation et ajustée au contexte.

Animation

Présentation enthousiaste et divertissante;

Claire et vulgarisée;

Explications concrètes fournies;

Expertise des présentatrices.

Durée

Longueur appropriée.

Points à améliorer dans l'activité de formation**Contenu**

Amélioration des stations : - Explications des jeux;
 - Explications à la station 1 (explication d'un nouveau jeu);
 - Station 2 (jeux de rôle) : ajout de comptines d'enfants (ex. fâché);
 - Variation des stations ou ajout de stations;
 - Manque de soutien lors de l'expérimentation des stations;

Présentation de plus d'exemples concrets;

Adaptation de l'information pour les moniteurs expérimentés;

Réduction de la complexité de l'information présentée;

Clarification des stratégies.

Logistique

Optimisation de la gestion du temps (plus de temps/moins de temps aux stations);

Présentation de propos plus concis;

Réduction des répétitions;

Réduction du nombre de participants à la formation (formation de plus petits groupes).

D'autres bonifications à la formation ont aussi été apportées, soit d'interpeller d'abord les participants pour évaluer leurs connaissances sur les enfants présentant des DC et pour savoir comment ils entendent leur travail avec ces enfants. Il a été jugé important de préciser que certaines stratégies peuvent être appliquées rapidement alors que d'autres nécessitent un coaching supplémentaire avant

que les moniteurs se sentent à l'aise de les appliquer. Cette explication vise à rassurer les participants concernant le défi que représente l'application de certaines stratégies pour les moniteurs, en précisant qu'il est possible que ces derniers ne se sentent pas immédiatement à l'aise de mettre en place le contenu de la formation. Enfin, des précisions quant aux stratégies favorisant la communication ont été

apportées dans la présentation PowerPoint, entre autres en prévoyant une diapositive par stratégie, et en fournissant des conseils supplémentaires pour favoriser la compréhension des jeunes, leur expression ainsi que la gestion de comportements dérangeants relatifs à la communication (p. ex. un enfant qui coupe fréquemment la parole, qui parle trop, qui a de la difficulté à organiser des idées ou qui est hors sujet). Un aide-mémoire des stratégies pour soutenir les enfants présentant des DC a aussi été créé en guise de rappel pour les moniteurs, et celui-ci peut être affiché dans les locaux des camps de jour. Ces considérations et améliorations effectuées ont permis de créer une formation mieux adaptée à la réalité des camps de jour.

En outre, afin que la version ajustée et modifiée grâce aux commentaires reçus dans le présent projet soit la plus accessible possible aux organismes de loisirs qui souhaiteraient l'utiliser, elle est offerte gratuitement en contactant les auteurs. Le matériel offert contient tous les documents et vidéos nécessaires pour offrir la formation aux moniteurs de camps de jour, soit une présentation de la formation comprenant des commentaires pour soutenir les futurs animateurs, des capsules vidéo sensibilisant les apprenants aux difficultés langagières et illustrant les stratégies de communication mises en relief, ainsi qu'un cahier du formateur. Ce dernier, destiné à des coordonnateurs ou à des responsables d'activités de loisir souhaitant offrir la formation, fournit les outils pour le volet pratique de la formation, c'est-à-dire pour les activités effectuées au moment de la présentation et à la suite de celle-ci. L'aide-mémoire des stratégies présentées y est également offert.

Discussion

Les objectifs de cette étude étaient (a) de présenter la démarche de coconstruction avec des partenaires communautaires d'une formation pour les moniteurs de camp de jour et (b) de vérifier l'appréciation de cette formation par les moniteurs de camps de jour eux-mêmes. Les deux objectifs de recherche ont été atteints; la formation a été coconstruite en collaboration étroite avec le Patro Roc-Amadour et il en ressort une évaluation très positive des participants. Des considérations concernant l'utilisation du jeu pour favoriser le développement du langage et l'importance d'utiliser un design universel de l'apprentissage (c.-à-d. un principe qui vise à offrir des possibilités égales d'apprentissage pour tous les individus) pour soutenir les moniteurs de camps de jour dans leur travail sont soulevées ainsi que des limites et des perspectives de recherche futures. Dans une approche de design universel, il est notamment recommandé de mettre l'accent sur le développement des capacités de communication des

enfants (Rappolt-Schlichtmann et al, 2018), ce qui est en adéquation avec le contenu de cette formation.

Une première limite du projet rapporté dans cet article clinique est que l'appréciation de la formation repose uniquement sur des mesures de satisfaction des participants et que ces dernières ne permettent pas de confirmer que, après la formation, les moniteurs étaient réellement mieux outillés pour aider les jeunes avec des DC dans leur groupe. Une deuxième limite est que la formation n'était pas suivie d'une période de coaching, ce qui aurait permis de maximiser l'intégration des stratégies par les moniteurs. En effet, la modalité idéale de formation de personnel non professionnel devrait inclure du coaching (Yates et al., 2020). À partir de l'expérience des animatrices de la formation, d'autres éléments méritent d'être soulignés. En effet, dans le cadre de la formation, il est pertinent de s'ajuster aux expériences des moniteurs, car il existe potentiellement une grande différence entre les besoins des participants dont c'est le premier emploi et ceux qui ont plus de deux ans d'expérience en intervention. Les moniteurs de camp de jour sont majoritairement des adolescents de 16 et plus ou de jeunes adultes. Il apparaît essentiel de trouver des moyens de les mobiliser et de les intéresser au contenu de la formation. Bien que plusieurs activités interactives aient été proposées, l'implication des moniteurs lors de la formation est essentielle. Le ratio du nombre de participants par formateur est un élément qui semble avoir affecté cette implication. En effet, dans les groupes plus nombreux, les animatrices ont souligné ne pas pouvoir offrir tout l'accompagnement qu'elles jugeaient nécessaire. Les retombées de la formation quant à l'utilisation et à l'application des stratégies de communication par les moniteurs auprès des enfants présentant des DC sont inconnues.

Des perspectives peuvent également être dégagées de cette étude. Les moniteurs de camps de jour constituent le public cible de cette formation, et celle-ci pourrait aussi bénéficier aux accompagnateurs d'enfants ayant des besoins particuliers qui œuvrent dans d'autres contextes, par exemple des activités de loisirs régulières comme des cours de natation ou de dessin. Dans le présent projet, la formation a été offerte par des étudiantes en orthophonie, non présente dans le quotidien des moniteurs. La formation proposée a toutefois été conçue pour être donnée par les personnes qui coordonnent l'intégration dans les camps de jour ou qui coordonnent/dirigent le camp. En outre, il serait idéal qu'une personne présente quotidiennement au camp soit en mesure d'accompagner les moniteurs, et en guise de suivi à la formation, qu'elle offre un coaching ou du soutien aux moniteurs dans l'application des stratégies

pour faciliter la communication (Desimone et Pak, 2017; Yates et al., 2020). À titre d'exemple, le soutien par une personne-ressource ou par un accompagnateur fait partie des stratégies d'inclusion sociale définies dans un guide sur l'inclusion par le sport (Grandisson et al., 2021). Ainsi, puisque les jeunes présentant des limitations sur le plan de la communication sont présents dans les activités de loisir régulières, cette formation pourrait être offerte à tous les moniteurs dans leur formation de base.

Conclusion

Le langage et la communication de l'enfant se développent dans les activités de la vie quotidienne de sorte que les loisirs s'avèrent un contexte tout indiqué pour que les enfants présentant des difficultés de communication y poursuivent leur apprentissage du langage. Pour ce faire, les personnes qui interagissent avec eux en contexte de loisirs ont besoin de mieux connaître le développement langagier de l'enfant et les stratégies qui le soutiennent. Ce projet d'innovation sociale confirme qu'il est possible de coconstruire avec des partenaires communautaires une formation pour les moniteurs de camp de jour appréciée et ajustée à leur réalité.

Références

- Batorowicz, B., King, G., Mishra, L. et Missiuna, C. (2016). An integrated model of social environment and social context for pediatric rehabilitation. *Disability and Rehabilitation*, 38(12), 1204-1215. <https://doi.org/10.3109/09638288.2015.1076070>
- Braun, V. et Clarke, V. (2006). Using thematic analysis in psychology. *Qualitative Research in Psychology*, 3(2), 77-101
- Brookman, L., Boettcher, M., Klein, E., Openden, D., Koegel, R. L. et Koegel, L. K. (2003). Facilitating social interactions in a community summer camp setting for children with autism. *Journal of Positive Behavior Interventions*, 5(4), 249-252. <https://doi.org/10.1177/10983007030050040801>
- Brown, T. S. et Stanton-Chapman, T. L. (2017). Experiences of paraprofessionals in US preschool special education and general education classrooms. *Journal of Research in Special Educational Needs*, 17(1), 18-30. <https://doi.org/10.1111/1471-3802.12095>
- Carbonneau, H., Cantin, R. et St-Onge, M. (2015). *Pour une expérience de loisir inclusive*. Laboratoire loisir et vie communautaire, Université du Québec à Trois-Rivières. <https://www.aqlph.qc.ca/app/uploads/2018/05/POUR-UNE-EXP%C3%89RIENCE-DE-LOISIR-INCLUSIVE.pdf>
- Clarke, M. T., Newton, C., Griffiths, T., Price, K., Lysler, A. et Petrides, K. V. (2011). Factors associated with the participation of children with complex communication needs. *Research in Developmental Disabilities*, 32(2), 774-780. <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2010.11.002>
- Conseil du Premier ministre pour les personnes handicapées. (2018). *Plan d'action-emploi pour les personnes ayant un handicap 2012-2018 : rapport d'étape le 29 mai 2018*. <https://www2.gnb.ca/content/dam/gnb/Departments/pcspdp-cpmcph/pdf/publications/PAE-2018.pdf>
- Consortium d'animation sur la persévérance et la réussite en enseignement supérieur. (2021, juillet). *La conception universelle de l'apprentissage - CUA*. <https://www.capres.ca/dossiers/la-conception-universelle-de-lapprentissage-cua/#Qu'est-ce-que-la-CUA>
- Desimone, L. M. et Pak, K. (2017). Instructional coaching as high-quality professional development. *Theory Into Practice*, 56(1), 3-12. <https://doi.org/10.1080/00400584.2016.1241947>
- Douglas, S. N., McNaughton, D. et Light, J. (2013). Online training for paraeducators to support the communication of young children. *Journal of Early Intervention*, 35(3), 223-242. <https://doi.org/10.1177/1053815114526782>
- Douglas, S. N., Light, J. C. et McNaughton, D. B. (2013). Teaching paraeducators to support the communication of young children with complex communication needs. *Topics in Early Childhood Special Education*, 33(2), 91-101. <https://doi.org/10.1177/027121412467074>
- Fennick, E. et Royle, J. (2003). Community inclusion for children and youth with developmental disabilities. *Focus on Autism and Other Developmental Disabilities*, 18(1), 20-27. <https://doi.org/10.1177/108835760301800104>
- Gouvernement du Canada. (2022). Notre vision, notre mission et nos valeurs. <https://accessibilite.canada.ca/mandat/vision-mission-valeurs>
- Graham, I. D., Logan, J., Harrison, M. B., Straus, S. E., Tetroe, J., Caswell, W. et Robinson, N. (2006). Lost in knowledge translation: Time for a map? *Journal of Continuing Education in the Health Professions*, 26(1), 13-24. <http://doi.org/10.1002/chp.47>
- Grandisson, M., Martin-Roy, S., Talbot, A., Morin, D., Lamontagne, M.-È., Milot, É., Marcotte, J., Ouellet, B. et Vincent, A. (2021). *Guide pour la mise en place de stratégies d'inclusion par le sport*. Communautés inclusives. <https://villesinclusives.org/wp-content/uploads/guide-inclusion-sportive.pdf>
- Grandisson, M., Tétreault, S. et Freeman, A. R. (2012). Enabling integration in sports for adolescents with intellectual disabilities. *Journal of Applied Research in Intellectual Disability*, 25(3), 217-230. <https://doi.org/10.1111/j.1468-3148.2011.00658.x>
- Hall, S. A. (2009). The social inclusion of young adults with intellectual disability: A phenomenology of their experiences. *Journal of Ethnographic & Qualitative Research*, 4(1), 24-40.
- Kaiser, A. P. et Roberts, M. Y. (2013). Parents as communication partners: An evidence-based strategy for improving parent support for language and communication in everyday settings. *Perspectives on Language Learning and Education*, 20(3), 96-111. <https://doi.org/10.1044/lle20.3.96>
- Kleinert, H. L., Miracle, S. et Sheppard-Jones, K. (2007). Including students with moderate and severe intellectual disabilities in school extracurricular and community recreation activities. *Intellectual and Developmental Disabilities*, 45(1), 46-55. [https://doi.org/10.1352/1934-9556\(2007\)45\[46:ISWMS\]2.0.CO;2](https://doi.org/10.1352/1934-9556(2007)45[46:ISWMS]2.0.CO;2)
- National Inclusion Project. (2019, août). *Because no child should have to sit on the sidelines*. <https://www.inclusionproject.org/>
- Norbury, C. F., Gooch, D., Wray, C., Baird, G., Charman, T., Simonoff, E., Vamvakas, G. et Pickles, A. (2016). The impact of nonverbal ability on prevalence and clinical presentation of language disorder: Evidence from a population study. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 57(11), 1247-1257. <https://doi.org/10.1111/jcpp.12573>
- Odom, S. L. (2009). The tie that binds: Evidence-based practice, implementation science, and outcomes for children. *Topics in Early Childhood Special Education*, 29(1), 53-61. <https://doi.org/10.1177/0271214108329171>
- O'Neill, T., Mandak, K. et Wilkinson, K. M. (2017). Family leisure as a context to support augmentative and alternative communication intervention for young children with complex communication needs. *Seminars in Speech and Language*, 38(4), 313-320. <https://doi.org/10.1055/s-0037-1604278>
- Orsmond, G. I., Krauss, M. W. et Seltzer, M. M. (2004). Peer relationships and social and recreational activities among adolescents and adults with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 34(3), 245-256. <https://doi.org/10.1023/B:JADD.0000029547.96610.df>
- Picon, I. (2009). Adolescence et déficience intellectuelle. Approche clinique de jeunes accueillis en Institut médico-professionnel (IMPro) ou en unité pédagogique d'intégration (UPI). *Alter*, 3(4), 303-319. <https://doi.org/10.1016/j.alter.2009.06.003>
- Programme DAFA. (2019, août). *Programme DAFA - Diplôme d'aptitude aux fonctions d'animateur*. <https://programmedafa.com/fr>
- Quinn, S., Donnelly, S. et Kidd, E. (2018). The relationship between symbolic play and language acquisition: A meta-analytic review. *Developmental Review*, 49, 121-135. <https://doi.org/10.1016/j.dr.2018.05.005>
- Rappolt-Schlichtmann, G., Boucher, A. R. et Evans, M. (2018). From deficit remediation to capacity building: Learning to enable rather than disable students with dyslexia. *Language, Speech, and Hearing Services in Schools*, 49(4), 864-874. https://doi.org/10.1044/2018_LSHSS-DYSLC-18-0031

- Rens, L. et Joosten, A. (2014). Investigating the experiences in a school-based occupational therapy program to inform community-based paediatric occupational therapy practice. *Australian Occupational Therapy Journal*, 61(3), 148-158. <https://doi.org/10.1111/1440-1630.12093>
- Réseau québécois en innovation sociale. (2011, avril). *Déclaration québécoise pour l'innovation sociale*. http://www.rqis.org/wp-content/uploads/2021/11/Declaracion_quebecoise_pour_linnovation_sociale1.pdf
- Réseau québécois en innovation sociale. (2019, août). *Qu'est-ce qu'une innovation sociale?* <http://www.rqis.org/innovation-sociale/>
- Simplican, S. C., Leader, G., Kosciulek, J. et Leahy, M. (2015). Defining social inclusion of people with intellectual and developmental disabilities: An ecological model of social networks and community participation. *Research in Developmental Disabilities*, 38, 18-29. <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2014.10.008>
- Siperstein, G. N., Pociask, S. et Barnes, K. (2011, septembre). *Let's ALL Play: Helping to make inclusion in summer camps a success*. American Camp Association. <https://www.acacamps.org/resource-library/camping-magazine/lets-all-play-helping-make-inclusion-summer-camps-success>
- Trivette, C. M. et Dunst, C. J. (2014). Community-based parent support programs. Dans R. E. Tremblay, M. Boivin et R. DeV. Peters (dir.) *Encyclopedia on early childhood development* (3^e ed.). <https://www.child-encyclopedia.com/pdf/expert/parenting-skills/according-experts/community-based-parent-support-programs>
- Weisberg, D. S., Zosh, J. M., Hirsh-Pasek, K. et Golinkoff, R. M. (2013). Talking it up: Play, language, and the role of adult support. *American Journal of Play*, 6(1), 39-54. https://www.researchgate.net/publication/284394064_Talking_it_up_Play_language_and_the_role_of_adult_support
- Wilson, A. L. et Harris, S. R. (2018). Collaborative occupational therapy: Teachers' impressions of the partnering for change (P4C) model. *Physical & Occupational Therapy in Pediatrics*, 38(2), 130-142. <https://doi.org/10.1080/01942638.2017.1297988>
- Yates, P. A., Chopra, R. V., Sobek, E. E., Douglas, S. N., Morano, S., Walker, V. L. et Schulze, R. (2020). Working with paraeducators: Tools and strategies for planning, performance feedback, and evaluation. *Intervention in School and Clinic*, 56(1), 43-50. <https://doi.org/10.1177/1053451220910740>

Note des auteurs

Les demandes au sujet de cet article doivent être adressées à Chantal Desmarais, 1050 avenue de la Médecine, Québec, QC, G1V 0A6.
Courriel : chantal.desmarais@rea.ulaval.ca

Déclaration des conflits d'intérêts

Les auteures déclarent n'avoir aucun conflit d'intérêts, financiers ou autres.

KEYWORDS

DYSPHAGIA

BARIUM

VIDEOFLUOROSCOPY

SWALLOW ASSESSMENT

SWALLOWING

Veronica Rodriguez^{1,2},
Elissa Greco^{1,3,4}, Julie
Theurer^{5,6}, Gina Mills⁷, Kate
Hutcheson^{8,9}, and Rosemary
Martino^{1,2,3,10}

¹Department of Speech-Language
Pathology, University of Toronto,
Toronto, ON, CANADA

²Krembil Research Institute,
University Health Network,
Toronto, ON, CANADA

³Rehabilitation Sciences Institute,
University of Toronto, Toronto, ON,
CANADA

⁴Department of Speech-Language
Pathology, Toronto General
Hospital, University Health
Network, Toronto, ON, CANADA

⁵Department of Otolaryngology -
Head and Neck Surgery, Western
University, London, ON, CANADA

⁶School of Communication
Sciences and Disorders, Western
University, London, ON, CANADA

⁷Department of Speech-Language
Pathology, Montreal Jewish
General Hospital, Montreal, QC,
CANADA

⁸Department of Head and Neck
Surgery, The University of Texas
MD Anderson Cancer Center,
Houston, TX, UNITED STATES

⁹Division of Radiation Oncology,
The University of Texas MD
Anderson Cancer Center,
Houston, TX, UNITED STATES

¹⁰Department of Otolaryngology-
Head and Neck Surgery, University
of Toronto, Toronto, ON, CANADA

Editor:

Bonnie Martin-Harris

Editor-in-Chief:

David McFarland



The Development of a Standardized Videofluoroscopic Swallow Study Barium Mixing Protocol: A Consensus-Based Approach



Création d'un protocole standardisé de mélanges de baryum pour l'évaluation de la déglutition par vidéofluoroscopie : une approche fondée sur le consensus

Veronica Rodriguez
Elissa Greco
Julie Theurer
Gina Mills
Kate Hutcheson
Rosemary Martino

Abstract

Videofluoroscopic swallow assessments are considered the gold standard for dysphagia evaluation. Despite widespread use in clinical and research settings, standardization of barium mixing protocols is lacking. This study compared current barium mixing protocols across four Canadian acute care centres and aimed to establish standard consensus-based protocols for select target textures (i.e., thin liquid, nectar thick liquid, honey thick liquid, puree, and solid) feasible for clinical and research implementation. A representative speech-language pathologist at each site responded to an online questionnaire regarding their current barium mixing protocols. Each liquid protocol was assessed for accuracy in meeting its target using the International Dysphagia Diet Standardisation Initiative Flow Test. Early consensus was reached to use pudding and a biscuit as targets for puree and solid textures, respectively. The mixing protocols which met these criteria moved through the iterative feedback process with participating sites, identifying the protocol considered most accurate and feasible. Survey data identified use of common products across institutions, but barium mixing protocols differed. Flow Test results eliminated liquid mixing protocols that failed to align with our criteria. Acceptable liquid, puree, and solid protocols were reviewed by sites for feasibility of mixing, perceived accuracy, and visibility on imaging. Through this process, a single consensus-based barium mixing protocol was established for each target texture. Reproducibility for each final protocol was established by two sites. The iterative review process, clinician feedback, and Flow Test results successfully established barium mixing protocols for several textures which have the potential for widespread implementation.

Abrégé

L'évaluation de la déglutition par vidéofluoroscopie est considérée comme l'examen de référence pour l'évaluation de la dysphagie. En dépit de son utilisation répandue en clinique et en recherche, un manque de standardisation des protocoles utilisés pour créer les mélanges de baryum demeure. Dans le cadre de la présente étude, les protocoles utilisés par quatre établissements de soins aigus canadiens pour créer les mélanges de baryum ont été comparés dans le but d'établir des protocoles standardisés et fondés sur le consensus pouvant être utilisés en clinique et en recherche pour obtenir des textures et consistances spécifiques (liquide clair, liquide nectar, liquide miel, purée et solide). Quatre orthophonistes représentant chacun des quatre établissements participants ont répondu à un questionnaire en ligne portant sur les protocoles utilisés dans leur établissement pour créer les mélanges de baryum. Les mélanges de liquide obtenus en utilisant les protocoles de chaque établissement ont été soumis au test d'écoulement de l'Initiative internationale de standardisation des diètes pour la dysphagie afin de déterminer la capacité de chacun à produire les consistances cibles. Un premier consensus a été atteint concernant l'utilisation de pudding et d'un biscuit pour les textures « purée » et « solide », respectivement. Les protocoles de mélanges qui respectaient ces critères ont ensuite été soumis à un processus itératif de rétroactions auprès des établissements participants afin d'identifier les protocoles les plus précis et les plus réalisables. Les données du questionnaire ont révélé que, même si les mêmes produits étaient employés d'un établissement à l'autre, les protocoles utilisés pour mélanger le baryum à ces produits différaient entre ces derniers. Les résultats au test d'écoulement ont permis d'éliminer les protocoles produisant des mélanges qui ne répondaient pas à nos critères. La faisabilité des protocoles acceptables, la précision perçue des consistances de liquides et des textures de purées et de solides obtenus avec ces protocoles et la visibilité des consistances et textures pendant la vidéofluoroscopie ont été évaluées par les établissements participants. Au travers de ce processus fondé sur le consensus, un seul protocole de mélange de baryum a été retenu pour chaque consistance et texture ciblée. La reproductibilité des protocoles finaux a été vérifiée par deux des établissements. Le processus itératif, les rétroactions des cliniciens et les résultats au test d'écoulement ont permis d'établir des protocoles de mélanges de baryum pour plusieurs textures et consistances, lesquels sont susceptibles d'être utilisés à grande échelle.

The videofluoroscopic swallow (VFS) procedure is considered a gold standard of dysphagia assessment (Martin-Harris et al., 2021). The VFS provides an objective means of analyzing swallow physiology and bolus clearance by observing ingestion of barium-infused solids and liquids under fluoroscopic visualization. Yet, despite widespread utilization of the VFS to assess swallow physiology, clinical practice guidelines are only emerging with limited detail in the standardization of this procedure (Boaden et al., 2020). As such, aspects of assessment protocols vary across institutions and even amongst individual clinicians within the same institution, thereby limiting comparisons of patient swallowing statuses (Power et al., 2006).

Fortunately, in recent years there have been several evidence-based recommendations to standardize the conduct and analysis of the VFS assessment (Martin-Harris et al., 2020, 2021). For example, the optimal pulse rate of the radiation beam at 30 frames per second is now considered essential to ensure adequate visualization of swallow physiology and bolus movement while staying within a safe radiation exposure level (Bonilha et al., 2013). Likewise, several psychometrically validated tools are now available by which to rate the VFS findings. The Penetration-Aspiration Scale is an 8-point ordinal classification of airway safety that captures the depth of bolus invasion into the airway (Rosenbek et al., 1996). The Modified Barium Swallow Impairment Profile offers a systematic sequence of texture administration and a validated and reliable rating schema of 17 physiological components of the swallow. These components derive two overall swallow physiology impairment scores: for the oral phase and the pharyngeal phase of swallowing (Martin-Harris et al., 2008). The Dynamic Imaging Grade of Swallowing Toxicity derives an overall severity grade for pharyngeal dysphagia along a 5-point scale based on combined ratings of pharyngeal swallow efficiency and airway safety (Hutcheson et al., 2017). The Analysis of Swallow Physiology: Events, Kinematics and Timing Method evaluates the physiological impairments of the swallow and provides normative values for healthy swallows across a variety of textures (Steele et al., 2019). As a complement to these perceptual ratings, there are now objective digital measurement tools that quantify biomechanical features of the swallow, such as the pharyngeal constriction ratio (Leonard et al., 2011) and pharyngoesophageal segment opening (Leonard & Kendall, 2019). Together these standardized protocols have greatly enhanced the reliability and validity in the interpretation of VFS assessment findings.

The accuracy of these standardized ratings is dependent on the VFS protocol execution and specifically the

reproducibility of the bolus textures used as testing stimuli (Martin-Harris et al., 2021). To date, there are no universal standards regarding which textures should be included or how their barium counterparts are prepared (Peladeau-Pigeon & Steele, 2013). In the United States, clinicians have addressed this variability in part with the utilization of the FDA-approved Varibar line of barium contrast products (Martin-Harris et al., 2021). The Varibar products offer a variety of prepared liquids (thin, nectar, thin honey, honey) and one food texture (pudding), each prepared to a 40% weight/volume concentration of barium sulfate (VARIBAR barium sulfate 40% weight/volume, Bracco Diagnostics, Inc., Monroe Township, NJ). The Varibar products enable not only a reproducible series of barium-infused textures but also sufficient contrast visualization during VFS.

Unfortunately, these commercially standardized barium-infused textures are not readily available outside the United States. As such, clinicians are often left to their own means to standardize VFS texture stimuli. These efforts have the potential to be disjointed and can unintentionally lead to different protocols. In fact, recent studies from the United Kingdom and Australia have shown this to be the case. In the United Kingdom, VFS procedures related to texture selection, preparation, and administration varied both within and between institutions (Benfield et al., 2021). Likewise in Australia, VFS liquid barium preparations across multiple institutions were not well matched to their target liquid textures in relation to density, viscosity, and yield stress (Cichero et al., 1997, 2000). The addition of varying amounts of barium to target liquids and foods has the potential to unknowingly alter their thickness, density, and/or viscosity (Baron & Alexander, 2003; Cichero et al., 2000; Steele et al., 2013). Importantly, protocols that produce inaccurate target texture prototypes or produce inconsistent texture stimuli during the VFS administration may yield inaccurate and unreliable VFS findings. Not even standardized rating protocols can salvage these VFS findings. Therefore, the accuracy of the VFS assessment is firmly dependent on reliable and accurate barium mixing protocols.

The global issue of the lack of standardized barium mixing protocols is further compounded by inconsistent rheological properties and nomenclature of the target textures themselves (Cichero et al., 2013). One may argue that without first establishing predetermined texture properties that align with a shared nomenclature, it would be challenging for multiple institutions to implement and adhere to common barium mixing protocols. In an attempt to address this matter, the International Dysphagia Diet Standardization Initiative (IDDSI) offered a framework for standardization of diet textures. The IDDSI nomenclature

operationalized the preparation and corresponding labels for a wide spectrum of clinically relevant textures from liquid to solid in an attempt to bridge this gap (Cichero et al., 2017). This framework provides both nomenclature and an 8-level scale (0–7) in its classification of food and liquid consistencies. Specifically, solid textures are classified from *liquidized* (Level 3) to *regular* (Level 7) based on particle size, response to fork pressure, and spoon tilt tests (Cichero et al., 2017). Liquid consistencies range from *thin* (Level 0) to *extremely thick* (Level 4) based on the results of a standardized Flow Test (Cichero et al., 2017). The Flow Test is a simple, cost-effective, and reliable means of ensuring liquid textures are prepared according to a preset target thickness. Fluids in question are placed in a 10-ml syringe and undergo a gravity flow test through the syringe for 10 s. The amount of fluid remaining following this time interval determines the IDDSI level. Specifically, between 0 and 1 ml remaining represents *thin*–Level 0, 1 to 4 ml remaining represents *slightly thick*–Level 1, 4 to 8 ml remaining represents a *mildly thick*–Level 2, 8 to 10 ml represents a *moderately thick*–Level 3, 10 ml (i.e., all fluid remaining) represents *extremely thick*–Level 4 (Cichero et al., 2017). Such a test has utility in not only clinical and research settings but also can be easily and independently applied by patients themselves as part of their own self-care.

The University Health Network/University of Toronto Swallowing Lab routinely engages in multisite research collaborations. As such, it was considered critical for our research team to develop harmonized VFS barium mixing protocols that could be feasibly and reliably implemented across various participating research sites. Based on previous findings suggesting the risk for variation across institutions regarding how VFS barium textures were prepared, we needed to ensure a standardized approach by our participating study sites. Therefore, in response to a primarily research agenda, namely the PRO-ACTIVE trial (ClinicalTrials.gov, 2018; Martino et al., 2021), we sought to establish a consensus-based barium mixing protocol that utilized the IDDSI framework for each of the target VFS textures. Our aim was to ensure that the derived protocols were considered efficient and feasible in both the research and clinical settings and would be perceptually judged to provide adequate visualization on videofluoroscopy. Furthermore, because we were preparing for a multisite study that included several U.S. sites, all of whom were using the same commercial Varibar barium products, we aligned our target textures accordingly.

Methods

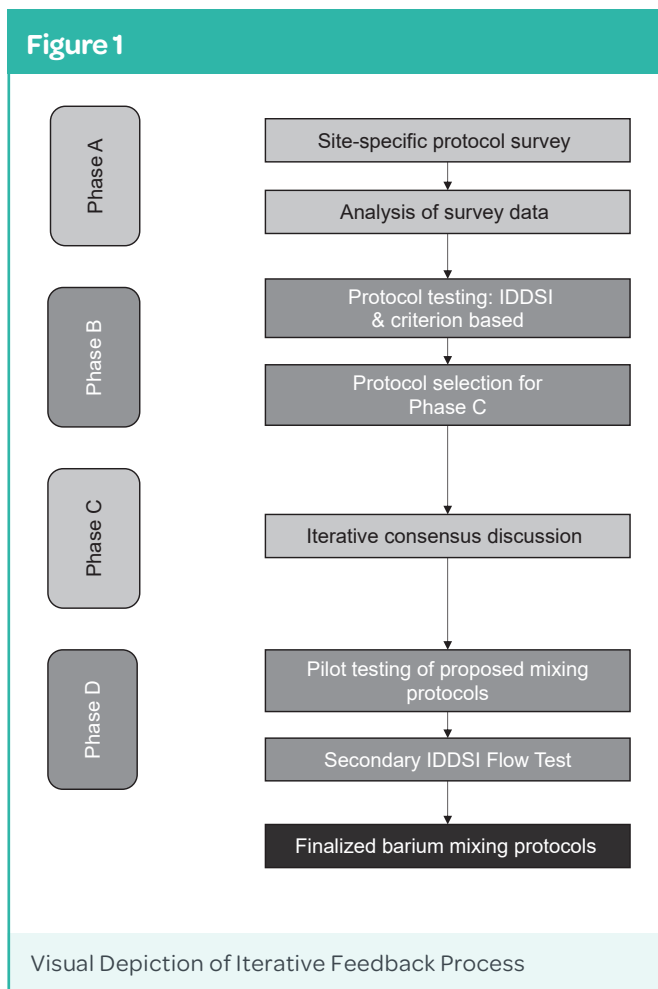
As part of this process, we utilized a collaborative iterative approach, ensuring that the values and opinions of clinicians

at all participating Canadian research sites were considered in the final selection of textures and barium mixing protocols. Our iterative approach was a repetitive forward sequential process whereby clinician feedback was shared and received with clinicians across participating sites in real time.

Site Selection

Eligible sites were those which independently prepared their barium texture stimuli and were collaborators in research with our Central-VFS Lab (C-VFS), which is a branch of our University Health Network/University of Toronto Swallowing Lab. Four Canadian acute care hospital sites participated in this study: London Health Sciences Centre, Montreal Jewish General Hospital, and University Health Network (comprising Toronto Western Hospital and Princess Margaret Cancer Centre). To promote anonymity, sites have been randomly assigned the numeric labels 1, 2, 3 and 4. Ethical review and approval was received from the University of Toronto’s Office of Research Ethics (Protocol 42864).

Our iterative feedback process is depicted in **Figure 1** and described below.



Study Phase A

A questionnaire was developed by researchers at the C-VFS with the aim of collecting information regarding existing VFS barium mixing practices at each of the participating sites. As all sites had previously reported one standard protocol used at their respective institutions, the self-administered online questionnaire was circulated by email to participating sites for completion by one representative speech-language pathologist (S-LP) at each site. The representatives selected from Sites 1 and 2 were S-LPs involved in the initial development and implementation of their site-specific barium mixing protocols. This information was not available for the S-LPs at Sites 3 and 4, therefore all S-LPs involved in our research were sent the questionnaire and self-selected a representative to respond to the survey. Textures of interest were thin liquids, nectar thick liquids, honey thick liquids, puree/pudding solids, and cookie/cracker solids. Although our current research protocol only required standardization of thin liquids, puree, and solids, we expanded our interest to include nectar thick liquids and honey thick liquids, as these are common therapeutic interventions that may be implemented during VFS. Survey content focused on site-specific details related to their preparation of our target VFS textures, such as texture labels, liquid and food products, barium products, and mixing protocols. Survey responses were aggregated and compared descriptively to identify similarities and differences in barium mixing practices across sites. In cases where sites used different measurement units (i.e., grams vs. millilitres), conversions were made to the unit most commonly employed across sites. Mathematical conversions were used wherever possible, however in instances where product densities were not available, conversions were manually carried out using a weighing scale.

Study Phase B

The protocol for each target texture from each site was prepared and tested in a similar manner at the C-VFS. To assess the three liquid thickness textures, we used the IDDSI Flow Test (Cichero et al., 2017). All liquids and barium products were kept at room temperature throughout the entire testing process, which was approximately 20 min in length. The flow test was completed immediately after mixing and was repeated three times per protocol to ensure accuracy. As outlined by IDDSI guidelines, testing was completed using a BD 10 ml Leur-Lok Tip syringe (IDDSI, 2019). The IDDSI level values were assigned as per guidelines: thin liquid (*thin*–Level 0), nectar thick liquid (*mildly thick*–Level 2), and honey thick liquid (*moderately thick*–Level 3; United States IDDSI Reference Group, 2021).

Liquid protocols which yielded the target IDDSI level on at least two of the three flow test trials were moved forward to Study Phase C. The duration of the flow test with water is benchmarked to be approximately 7 s; as such, this was used as a target for thin liquid barium protocols as this would represent the thinnest form of thin (IDDSI, n.d.). Likewise, for the puree texture we targeted the Varibar pudding thick texture. Only puree texture protocols which met this criterion were moved forward to Study Phase C. For the solid texture, we selected a digestive cookie as the target.

Study Phase C

All accepted mixing protocols from Study Phase B were put through an iterative consensus generating process with S-LPs from the participating sites. Feedback was sought regarding feasibility of protocol execution, visualization during VFS, and perception of the best match to its target texture from the sites which provided the protocols. All S-LPs contacted in Study Phase A were invited to provide this feedback and to elaborate if they had concerns with their current protocols. Iterative feedback was collected through email communication and/or teleconference. The consensus for the final barium mixing protocol for each of the proposed textures was guided by S-LP feedback and the IDDSI Flow Test results derived from the C-VFS.

Study Phase D

The final barium mixing protocol for each texture underwent independent pilot testing by two of the four participating sites. Utilizing local resources, each site evaluated feasibility of recipe execution, visualization during VFS, and reproducibility using the IDDSI Flow Test. Sites were instructed to mix the allotted quantities of the base and barium products in a measuring cup with a teaspoon until a homogenous mixture was formed. This step sought to ensure that the barium mixing protocol was both feasible in the clinical setting and stable across test trials. A post hoc weight/volume analysis was carried out with the finalized protocols.

Results

Study Phase A

Survey responses were received from all participating sites providing details of their original barium mixing protocols (**Table 1**). All sites had institution standard protocols for each of the target textures, namely thin liquid, nectar thick liquid, honey thick liquid, pudding/puree, and cracker/cookie. Additional textures were reported by some sites and included pudding thick liquid (one site), prepackaged peaches (two sites), and bread (two sites). We considered these additional textures to be therapeutic

Table 1
Original Barium Mixing Protocols Across Participating Sites by Target Texture

Texture	Participating site			
	1	2	3	4
Thin liquid	120 ml water 120 ml Polibar Plus Barium Sulfate Suspension prediluted (~50% w/v)	135 ml water 45 ml Polibar Plus Barium Sulfate Suspension	155 ml ^a water 163.8 ml ^a Polibar Plus Barium Sulfate Suspension	60 ml water 60 ml Polibar Plus Barium Sulfate Suspension
Nectar thick liquid	120 ml Sysco nectar thick liquid 10 ml water 15 g EZ HD Barium Sulfate Powder	120 ml Sysco nectar thick liquid 40 ml water 64 g EZ HD Barium Sulfate Powder	120 ml Sysco nectar thick liquid 48 g EZ HD Barium Sulfate Powder	120 ml Oasis Nutrisolution Hydra nectar thick liquid 19 g ^b EZ HD Barium Sulfate Powder
Honey thick liquid	120 ml Sysco nectar thick liquid 25 g EZ HD Barium Sulfate Powder	120 ml Sysco nectar thick liquid 48 g EZ HD Barium Sulfate Powder	120 ml Sysco honey thick liquid 48 g EZ HD Barium Sulfate Powder	120 ml Oasis Nutrisolution Hydra honey thick liquid 19 g ^b EZ HD Barium Sulfate Powder
Puree	~64 g ^c Apple Blend packets 15 g EZ HD Barium Sulfate Powder	113 g Leah Orchard Applesnax 46 g EZ HD Barium Sulfate Powder	99 g Jell-O pudding 40 g EZ HD Barium Sulfate Powder	105 g ^d Leah Orchard Applesnax 19 g ^b EZ HD Barium Sulfate Powder
Solid	Peak Freans Digestive Cookie Puree barium mixture	Peak Freans Social Cookie Barium Paste (Sysco Honey thick liquid [no measurement provided] + 3–4 spoonfuls of EZ HD Barium Sulfate Powder)	Social Tea Cookie Puree barium mixture	Leclerc 1905 Tradition Social Tea Cookie 4 g Esobar Barium Sulfate Esophageal Cream

Note. w/v = weight/volume.

^a Conversion made to millilitres from grams. ^b Manually converted to grams from provided measurement (1.5 rounded teaspoons). ^c Manually converted to grams from provided measurement (4 packets). ^d Manually converted to grams from provided measurement (120 ml).

and not part of the site standard core diagnostic protocol, therefore they were not included in this study.

Across all sites, a common nomenclature was used for liquids, namely thin liquid, nectar thick liquid, and honey thick liquid. Also, the base and barium products used to yield these target textures were similar. Specifically, water was used as a base for thin liquid barium textures and a prethickened liquid was the base for all thickened liquid protocols. Likewise, the same barium products were utilized across sites for the liquid and pudding/puree textures. All sites also used a digestive cookie to represent their solid texture.

Differences in product use across sites were also identified. Specifically, three of four sites utilized an undiluted form of the Polibar Plus Barium Sulfate for their thin liquid protocol, whereas another site used a prediluted version of this product. Also, three of four sites utilized the Sysco brand of thickened liquid, whereas the fourth site used an institution-specific product (Oasis). Two sites utilized nectar thick liquid as a base for the honey thick liquid barium solutions, whereas the other two sites used the honey thick liquid as their base. While one mixing protocol was the same between two sites, one site used it to represent nectar thick liquids, the other site to represent honey thick liquids. Three of four sites used applesauce as

their base for puree texture, whereas one site used store-bought pudding. Two sites coated their cookie/cracker solid with barium using their puree barium texture, whereas the other sites used a commercial barium cream or a paste developed specifically for the cookie/cracker texture. In sum, despite some similarities across sites regarding base and target products, the barium mixing protocols for each of the target textures were different across all four sites.

Study Phase B

The IDDSI scores for each liquid protocol from each site are depicted in **Table 2** and described below.

Thin Liquids

Although protocols from all sites scored within the desired IDDSI level, the protocol provided by Site 4 was consistently found to have residual fluid within the syringe at the end of each trial. The residual fluid was less than 1 ml, thus still qualifying as an IDDSI Level 0. Site 3 had a thin liquid protocol which required the entire 10 s testing interval for the barium solution to completely clear from the syringe, whereas thin liquid protocols from Sites 1 and 2 achieved full clearance of the liquid within 8 s. Given that the protocols from Sites 1 and 2 required the shortest time interval to clear the syringe and as such represented the thinnest form of thin liquids, they were moved forward for further consideration.

Nectar Thick Liquids

In contrast, the recipes for nectar thick liquids did not yield the same IDDSI score across all sites. Specifically, the protocol provided by Site 3 was consistently outside of the IDDSI Flow Test criteria; therefore it was not moved forward for consideration. The nectar thick liquid protocol provided by Site 4 could not be tested centrally due to product unavailability. The protocol provided by Site 2 was within the desired IDDSI range across all three iterations and the protocol provided by Site 1 was within this range on two

of three iterations. As such, both of these protocols were carried forward to Phase C.

Honey Thick Liquids

Similar to those for thin liquid, the honey thick liquid protocols provided by Sites 1, 2, and 3 were within the accepted IDDSI standard across all three replication trials, thus were moved forward for consideration. Again, the fourth protocol could not be tested due to product unavailability.

Puree

The target for this texture was intended to align with the Varibar pudding texture, therefore only protocols with pudding were moved forward for consideration. The protocol provided by Site 3 met this criterion, as it was the only target to use pudding as a base consistency. All other sites used applesauce as their base for their puree texture.

Solids

All sites utilized a digestive cookie for their solid texture, albeit from varying brands, coated with barium-infused material. Two of four sites coated the solid with their puree barium counterpart, while one site developed a separate barium paste mixture specific for this purpose and another site used a prepackaged barium cream. All digestive cookie brands were carried forward, with the intention to coat the cookie with the finalized puree barium counterpart, to ensure feasibility and accessibility of products across all sites.

Study Phase C

From each of the four participating sites, between one and four clinicians provided feedback regarding their current mixing protocols which had been carried forward to this phase.

Thin Liquids

Of the two mixing protocols considered, the Site 1 mixing protocol was reported to have inconsistent visibility

Table 2				
Flow Levels for Original Barium Liquid Protocols by Site				
Liquid texture	Participating site			
	1	2	3	4
Thin	Level 0 ^a	Level 0 ^a	Level 0	Level 0
Nectar thick	Level 2 ^a	Level 2 ^a	Level 3	- ^b
Honey thick	Level 3 ^a	Level 3 ^a	Level 3 ^a	- ^b

Note. Flow Test results reflect the level achieved on the majority of trials (≥ 2 of 3 trials).
^aProtocols which aligned to study target moved forward to Study Phase C. ^bProtocols not tested due to product unavailability at central research site.

during VFS and therefore was eliminated. The other protocol, from Site 2, met this criterion and was carried forward for pilot testing.

Nectar Thick Liquids

Of the two mixing protocols considered, clinicians voiced concern that the protocol provided by Site 2 yielded a (perceptually) thinner consistency than the target texture, despite falling within the target IDDSI standard on testing. No concerns were voiced for the other protocol, provided by Site 1, therefore it was carried forward for pilot testing.

Honey Thick Liquids

No concerns were voiced by the clinicians for any of these protocols. The same protocol was utilized by Sites 2 and 3, although there was a difference in target representation. Specifically, Site 2 labelled this protocol as a honey thick liquid and Site 3 labelled it as a nectar thick liquid. To align with our goal to meet IDDSI standards, this protocol was carried forward for pilot testing as a honey thick liquid.

Puree

Only the protocol from Site 3 met the target texture of pudding. No concerns were voiced by clinicians for this protocol; therefore it was carried forward for pilot testing.

Solids

Given that the variation of the solid item was largely by brand, and not the actual texture, it was proposed that each site continue with their current choice of digestive cookie brand and coat it with the same designate puree barium counterpart.

Study Phase D

The pilot testing of the new consensus-based barium mixing protocols yielded the same IDDSI Flow Test results for all target fluids, confirming successful duplication with locally available thickened liquid (i.e., Sysco thickened liquid and Oasis Hydra thickened liquid). Successful duplication of target textures coupled with positive feedback from all sites regarding the perceived feasibility and clinical acceptability of the proposed barium mixing protocols derived final consensus for these protocols (see **Table 3**). The protocols were shared with all participating sites for local implementation.

Discussion

Despite recent critical strides in the standardization of many aspects of the VFS assessment, there remains no common protocol by which to prepare the texture stimuli administered during this procedure. Our results offer insight into the practice patterns of VFS conduct in Canadian academic centres and the variability that persists. This study specifically targeted this gap using a reiterative consensus-based approach aimed to standardize a multisite research VFS protocol. This process successfully derived common barium mixing protocols for three liquid and two food textures for implementation at the participating research sites, despite the fact that at the onset each site had been utilizing different barium mixing protocols. The reiterative consensus process was successful in not only generating a harmonized and feasible protocol across all sites, but one that also aligned with published IDDSI guidelines and three Bracco Varibar texture equivalents (thin liquid, nectar thick liquid, and pudding).

Table 3			
Final Barium Mixing Protocol by Target Texture			
Texture	Base product (quantity)	Barium product (quantity)	Weight/volume (%)
Thin liquid	Water (135 ml)	Polibar Plus Barium Sulfate Suspension 105% (45 ml)	26
Nectar thick liquid	Sysco Nectar thick liquid (120 ml) Water (10 ml)	EZ HD Barium Sulfate Powder (15 g)	11
Honey thick liquid	Sysco Nectar thick liquid (120 ml)	EZ HD Barium Sulfate Powder (48 g)	36
Puree	Pudding cup (99 g)	EZ HD Barium Sulfate Powder (40 g)	41
Solid	Digestive cookie	Puree barium solution (thin coating)	

Given that our protocol was considered feasible and appropriate at multiple Canadian institutions, each with originally varying mixing protocols, it may generalize to additional sites. Originally, three of the participating sites were using approximate measures for ingredients, and of these, one site also reported inconsistent visibility of their original thin liquid barium texture during their VFS exam. This suggests that variability in mixing ratios may alter visibility of the target texture and while sites may have institution-wide barium mixing protocols, there can be variability in its execution in standard practice. Our final mixing protocols used specific quantities in an effort to limit variability. Our findings have shown that varying concentrations of barium to base solutions not only impacts visibility, but also the viscosity of the product itself. This finding was most evident in our Flow Test values of the nectar thick liquid protocols provided. Others have also found the addition of barium to thickened liquids resulted in further thickening of the original product (Park et al., 2019; Steele et al., 2013). Varied amounts of barium have also been found to impact temporal measures of the swallow, where more barium increases pharyngeal transit time and upper esophageal sphincter opening duration (Dantas et al., 1989; Stokely et al., 2014). Therefore, utilization of consistent barium mixing protocols ensures the reliability of VFS findings. Clinically, this is particularly important as VFS findings are used in patient care not only to evaluate a patient's swallowing impairment, but also to guide therapeutic interventions and nutritional management (Martin-Harris et al., 2020).

Accurate representation of a patient's swallow is crucial to accurately chart change in swallow status as patients transition to different institutions throughout their healthcare journey. For our research agenda, standardization of the VFS protocol was necessary for the launch of our multisite, international PRO-ACTIVE study, in which patients at each site undergo VFS at three different time points throughout their participation (ClinicalTrials.gov, 2018; Martino et al., 2021). Likewise, there was a need for standardization of the VFS protocol within the clinical research setting.

Our findings are especially relevant for clinical sites without access to commercially prepared and therefore standardized weight/volume VFS products such as Varibar. Although the published weight/volume standard of barium products is declared to be 40% (Martin-Harris et al., 2017) there has been a recent call for considering 20% in the clinical setting (Stokely et al., 2014). This transition has been driven by the increased pharyngeal coating effect of the higher barium concentrations (Peladeau-Pigeon & Steele, 2013; Steele et al., 2013). While our thin liquid and honey thick liquid protocols both fall within the 20% to

40% range, the nectar thick liquid falls below this range. Despite this lower weight/volume level, visualization was not reportedly compromised. Further research will be beneficial to objectively evaluate if the lower weight/volume level has any impact on visibility and if this can successfully be generalized to other barium textures.

While other studies evaluated the stability of barium target textures with their mealtime equivalent (Barbon & Steele, 2019; Cichero et al., 2000; Park et al., 2019), our study is the first to utilize existing barium mixing protocols across multiple institutions in an attempt to harmonize to a common protocol. The methodology and derived protocol were anchored by a pragmatic goal to balance reproducibility and validity of target textures with perceived feasibility and clinical utility. Our use of prethickened liquids instead of thickening agents was intentional to maintain ease of execution. The goal set for each target texture was to identify a barium mixing protocol that was feasible, yielded a product that was easily visible on VFS across multiple sites, and was reproducible for clinicians with high clinical and research demands. The feasibility of our final protocols is supported by successful implementation of the barium mixing protocol in over 600 VFSs conducted at three Canadian sites to date in the PRO-ACTIVE trial.

Although we successfully harmonized barium mixing protocols across all our research sites, also meeting the IDDSI standards, there were notable limitations that deserve mention. Namely, with emphasis on feasibility, we intentionally limited products to those available to sites. For example, the thickened liquids utilized by one site was not available at other sites and as such did not qualify for central testing. While this site was able to fully implement the protocols for the thin liquid, puree, and solid as necessary for our PRO-ACTIVE study research protocol, their nectar thick liquid and honey thick liquid protocols were implemented using a locally available thickened liquid brand. Despite this variation in base thickened liquid product, this site independently conducted the IDDSI Flow Test using their locally available brand of thickened liquid and found it to be compliant with our final standard for both the nectar thick and honey thick liquid protocols. Despite these promising results, it is unclear if similar testing conditions were maintained during this site's independent IDDSI Flow Test, as such execution of a standardized testing process would be of benefit to ensure consistency of results. Furthermore, although IDDSI testing for each protocol was completed after mixing at room temperature, we did not measure the temperature of the final product. Our testing interval, however, was approximately 20 min, reflecting our typical total VFS testing time from when products were prepared

to administration. Although protocols can be stable for up to 3 hours after preparation (Barbon & Steele, 2019), further research to evaluate the generalizability of our results over time and at varying temperatures would be warranted.

Another important limitation to note is of the IDDSI Flow Test itself. Although it evaluates gravitational flow of a given fluid, this feature might not be all that impacts bolus movement in the aerodigestive tract. Specifically, as the liquid bolus is propelled through the oropharynx it undergoes constant manipulation and deformation in addition to lubrication from saliva. These processes can alter bolus flow (Nicosia, 2012). Hence, while the IDDSI Flow Test was a useful tool in evaluating and comparing barium mixing protocols across different sites, it may not necessarily capture the large variation in fluid properties that occur during swallowing. Finally, despite variability in the barium weight/volume concentrations, clinicians did report adequate visualization of all textures, however empirical testing is needed to validate these perceptions.

Conclusion

Overall, this study resulted in successful development of a harmonized consensus-based barium mixing protocol for a variety of commonly utilized textures for the VFS assessment. The final textures derived by these protocols aligned with the IDDSI criteria and were feasible and reliable for clinical and research settings.

References

- Barbon, C. E. A., & Steele, C. M. (2019). Characterizing the flow of thickened barium and non-barium liquid recipes using the IDDSI flow test. *Dysphagia*, *34*(1), 73–79. <https://doi.org/10.1007/s00455-018-9915-6>
- Baron, J., & Alexander, T. (2003). Effects of powdered versus liquid barium on the viscosity of fluids used in modified swallow studies. *Canadian Association of Radiologists Journal*, *54*(3), 152–154.
- Benfield, J. K., Michou, E., Everton, L. F., Mills, C., Hamdy, S., Bath, P. M., & England, T. J. (2021). The landscape of videofluoroscopy in the UK: A web-based survey. *Dysphagia*, *36*(2), 250–258. <https://doi.org/10.1007/s00455-020-10130-1>
- Boaden, E., Nightingale, J., Bradbury, C., Hives, L., & Georgiou, R. (2020). Clinical practice guidelines for videofluoroscopic swallowing studies: A systematic review. *Radiography*, *26*(2), 154–162. <https://doi.org/10.1016/j.radi.2019.10.011>
- Bonilha, H. S., Blair, J., Carnes, B., Huda, W., Humphries, K., McGrattan, K., Michel, Y., & Martin-Harris, B. (2013). Preliminary investigation of the effect of pulse rate on judgments of swallowing impairment and treatment recommendations. *Dysphagia*, *28*(4), 528–538. <https://doi.org/10.1007/s00455-013-9463-z>
- Cichero, J. A. Y., Hay, G., Murdoch, B. E., & Halley, P. J. (1997). Videofluoroscopic fluids versus mealtime fluids: Differences in viscosity and density made clear. *Journal of Medical Speech-Language Pathology*, *5*(3), 203–215.
- Cichero, J. A. Y., Jackson, O., Halley, P. J., & Murdoch, B. E. (2000). How thick is thick? Multicenter study of the rheological and material property characteristics of mealtime fluids and videofluoroscopy fluids. *Dysphagia*, *15*(4), 188–200. <https://doi.org/10.1007/s004550000027>
- Cichero, J. A. Y., Lam, P., Steele, C. M., Hanson, B., Chen, J., Dantas, R. O., Duivestein, J., Kayashita, J., Lecko, C., & Murray, J. (2017). Development of international terminology and definitions for texture-modified foods and thickened fluids used in dysphagia management: The IDDSI framework. *Dysphagia*, *32*(2), 293–314. <https://doi.org/10.1007/s00455-016-9758-y>
- Cichero, J. A. Y., Steele, C. M., Duivestein, J., Clavé, P., Chen, J., Kayashita, J., Dantas, R., Lecko, C., Speyer, R., Lam, P., & Murray, J. (2013). The need for international terminology and definitions for texture-modified foods and thickened liquids used in dysphagia management: Foundations of a global initiative. *Current Physical Medicine and Rehabilitation Reports*, *1*(4), 280–291. <https://doi.org/10.1007/s40141-013-0024-z>
- ClinicalTrials.gov. (2018, March 6 –). *PRO-ACTIVE: Prophylactic swallow intervention for patients receiving radiotherapy for head and neck cancer* [Identifier NCT03455608]. <https://clinicaltrials.gov/ct2/show/NCT03455608>
- Dantas, R. O., Dodds, W. J., Massey, B. T., & Kern, M. K. (1989). The effect of high- vs low-density barium preparations on the quantitative features of swallowing. *American Journal of Roentgenology*, *153*(6), 1191–1195. <https://doi.org/10.2214/ajr.153.6.1191>
- Hutcheson, K. A., Barrow, M. P., Barringer, D. A., Knott, J. K., Lin, H. Y., Weber, R. S., Fuller, C. D., Lai, S. Y., Alvarez, C. P., Raut, J., Lazarus, C. L., May, A., Patterson, J., Roe, J. W., Starmer, H. M., & Lewin, J. S. (2017). Dynamic Imaging Grade of Swallowing Toxicity (DIGEST): Scale development and validation. *Cancer*, *123*(1), 62–70. <https://doi.org/10.1002/cncr.30283>
- International Dysphagia Diet Standardisation Initiative. (n.d.). *FAQ - Testing methods*. Retrieved April 29, 2021, from <https://iddsi.org/FAQ/Testing-Methods#:~:text=A%3A%20The%20IDDSI%20flow%20test,for%20IDDSI%20Le>
- International Dysphagia Diet Standardisation Initiative. (2019, July). *IDDSI framework-Testing methods 2.0*. https://iddsi.org/IDDSI/media/images/Testing_Methods_IDDSI_Framework_Final_31_July2019.pdf
- Leonard, R., & Kendall, K. (2019). *Dysphagia assessment and treatment planning: A team approach* (4th ed.). Plural Publishing.
- Leonard, R., Rees, C. J., Belafsky, P., & Allen, J. (2011). Fluoroscopic surrogate for pharyngeal strength: The pharyngeal constriction ratio (PCR). *Dysphagia*, *26*, 13–17. <https://doi.org/10.1007/s00455-009-9258-4>
- Martin-Harris, B., Bonilha, H. S., Brodsky, M. B., Francis, D. O., Fynes, M. M., Martino, R., O'Rourke, A. K., Rogus-Pulia, N. M., Spinazzi, N. A., & Zarzour, J. (2021). The modified barium swallow study for oropharyngeal dysphagia: Recommendations from an interdisciplinary expert panel. *Perspectives of the ASHA Special Interest Groups*, *6*(3), 610–619. https://doi.org/10.1044/2021_persp-20-00303
- Martin-Harris, B., Brodsky, M. B., Michel, Y., Castell, D. O., Schleicher, M., Sandidge, J., Maxwell, R., & Blair, J. (2008). MBS measurement tool for swallow impairment—MBSImp: Establishing a standard. *Dysphagia*, *23*(4), 392–405. <https://doi.org/10.1007/s00455-008-9185-9>
- Martin-Harris, B., Canon, C. L., Bonilha, H. S., Murray, J., Davidson, K., & Lefton-Greif, M. A. (2020). Best practices in modified barium swallow studies. *American Journal of Speech-Language Pathology*, *29*(2S), 1078–1093. https://doi.org/10.1044/2020_AJSLP-19-00189
- Martin-Harris, B., Humphries, K., & Garand, K. L. (2017). The Modified Barium Swallow Impairment Profile (MBSImp)—Innovation, dissemination and implementation. *Perspectives of the ASHA Special Interest Groups*, *2*(13), 129–138. <https://doi.org/10.1044/persp2.SIG13.129>
- Martino, R., Fitch, M. I., Fuller, C. D., Hope, A., Krisciunas, G., Langmore, S. E., Lazarus, C., Macdonald, C. L., McCulloch, T., Mills, G., Palma, D. A., Pytynia, K., Ringhash, J., Sultanem, K., Theurer, J., Thorpe, K. E., & Hutcheson, K. (2021). The PRO-ACTIVE trial protocol: A randomized study comparing the effectiveness of PROphylACTic swallow InterVEntion for patients receiving radiotherapy for head and neck cancer. *BMC Cancer*, *21*(1), Article 1100. <https://doi.org/10.1186/s12885-021-08826-0>
- Nicosia, M. A. (2012). Theoretical estimation of shear rate during the oral phase of swallowing: Effect of partial slip. *Journal of Texture Studies*, *44*(2), 132–139. <https://doi.org/10.1111/jtxs.12005>
- Park, J., Yoo, W., & Yoo, B. (2019). Standard recipes for the preparation of thickened barium liquids used in the diagnosis of dysphagia. *Clinical Nutrition Research*, *8*(4), 265–271. <https://doi.org/10.7762/cnr.2019.8.4.265>
- Peladeau-Pigeon, M., & Steele, C. M. (2013). Technical aspects of a videofluoroscopic swallowing study. *Canadian Journal of Speech-Language Pathology and Audiology*, *37*(3), 216–226. https://cjslpa.ca/files/2013_CJSLPA_Vol37_No_03_182-245/Pigeon-Steele_Fall_2013.pdf

- Power, M., Laasch, H. -U., Kasthuri, R. S., Nicholson, D. A., & Hamdy, S. (2006). Videofluoroscopic assessment of dysphagia: A questionnaire survey of protocols, roles and responsibilities of radiology and speech and language therapy personnel. *Radiography*, *12*(1), 26–30. <https://doi.org/10.1016/j.radi.2005.03.003>
- Rosenbek, J. C., Robbins, J. A., Roecker, E. B., Coyle, J. L., & Wood, J. L. (1996). A penetration-aspiration scale. *Dysphagia*, *11*(2), 93–98. <https://doi.org/10.1007/BF00417897>
- Steele, C. M., Molfenter, S. M., Peladeau-Pigeon, M., & Stokely, S. (2013). Challenges in preparing contrast media for videofluoroscopy. *Dysphagia*, *28*(3), 464–467. <https://doi.org/10.1007/s00455-013-9476-7>
- Steele, C. M., Peladeau-Pigeon, M., Barbon, C. A. E., Guida, B. T., Namasivayam-MacDonald, A. M., Weslania, V. N., Smaoui, S., Tapson, M. S., Valenzano, T. J., Waito, A. A., & Wolkin, T. S. (2019). Reference values for healthy swallowing across the range from thin to extremely thick liquids. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, *62*(5), 1338–1363. https://doi.org/10.1044/2019_JSLHR-S-18-0448
- Stokely, S. L., Molfenter, S. M., & Steele, C. M. (2014). Effects of barium concentration on oropharyngeal swallow timing measures. *Dysphagia*, *29*(1), 78–82. <https://doi.org/10.1007/s00455-013-9485-6>
- United States IDDSI Reference Group. (2021, July). *Common ground between NDD and IDDSI*. International Dysphagia Diet Standardisation Initiative. <https://iddsi.org/IDDSI/media/images/CountrySpecific/UnitedStates/NDD-to-IDDSI-Implementation.pdf>

Acknowledgements

Rosemary Martino is supported by a Canada Research Chair in Swallowing Disorders (Tier II). The authors wish to acknowledge the many clinicians for their valuable feedback and the Swallowing Rehabilitation Research Lab for their assistance with weight/volume calculations.

Disclosures

No conflicts of interest, financial or otherwise, are declared by the authors.

Authors' Note

Correspondence concerning this article should be addressed to Rosemary Martino, Swallowing Lab, Department of Speech-Language Pathology, University of Toronto, 160–500 University Avenue, Toronto, ON, CANADA M5G 1V7. Email: rosemary.martino@utoronto.ca



Speech-Language &
Audiology Canada

Orthophonie et
Audiologie Canada

Communicating care
La communication à coeur

613.567.9968

1.800.259.8519

1000-1 rue Nicholas St.

Ottawa ON K1N 7B7

www.sac-oac.ca | [@SAC_OAC](https://twitter.com/SAC_OAC)

© 2023, SAC

Copyright is held by Speech-Language & Audiology Canada. No part of this publication may be reprinted, reproduced, stored in a retrieval system or transcribed in any manner (electronic, mechanical, photocopy or otherwise) without written permission from SAC. Contact pubs@sac-oac.ca. To cite appropriate credit must be given (SAC, publication name, article title, volume number, issue number and page number[s]).

© 2023, OAC

C'est Orthophonie et Audiologie Canada qui détient le droit d'auteur. Il est interdit de réimprimer, reproduire, mettre en mémoire pour extraction, transcrire de quelque façon que ce soit (électroniquement, mécaniquement, par photocopie ou autrement) une partie quelconque de cette publication sans l'autorisation écrite d'OAC. Contacter pubs@sac-oac.ca. Pour citer adéquatement ce document, veuillez mentionner la référence complète (OAC, le nom de la publication, le titre de l'article, le numéro de volume et de la publication ainsi que les numéros de pages).