

Aus der Klinik und den Polikliniken für Zahn-, Mund- und Kieferkrankheiten
der Universität Würzburg
Poliklinik für Kieferorthopädie
Direktorin: Professor Dr. med. dent. Angelika Stellzig-Eisenhauer

**Untersuchung der laryngealen Regelleistung in Form der
Kurzzeitvariabilität der Grundfrequenz in vorsprachlichen Vokalisationen
des 2. und 3. Lebensmonats von Säuglingen mit und ohne oro-faziale
Spaltbildungen**

Inaugural - Dissertation
zur Erlangung der Doktorwürde der
Medizinischen Fakultät
der
Julius-Maximilians-Universität Würzburg

vorgelegt von
Kirsten Hinderer
aus Weingarten

Würzburg, März 2013



Referentin: Professor Dr. rer. nat. K. Wermke

Korreferentin: Professor Dr. med. W. Shehata-Dieler

Dekan: Professor Dr. med M. Frosch

Tag der mündlichen Prüfung: 12.02.2014

Die Promovendin ist Zahnärztin

Meinen lieben Eltern

Inhaltsverzeichnis

1	Einleitung und Zielsetzung	1
1.1	Spaltbedingte Funktionsstörungen	4
1.2	Auswirkungen der Spaltbildung auf den Sprech- und Spracherwerb	5
2	Material und Methode	8
2.1	OFS-Gruppe (Patientengruppe)	8
2.2	Kontrollgruppe	12
2.3	Voranalyse: Auswertung spektraler und melodischer Eigenschaften	16
2.4	Vorverarbeitung der ausgewählten Vokalisationen	18
2.5	Ermittlung der Grundfrequenz und der Stimmstabilitätsparameter (der Kurzzeitvariabilität von F_0)	19
2.5.1	Mittlere Grundfrequenz F_0 [Hz]	21
2.5.2	Stabilitätsparameter	21
2.6	Deskriptive Statistische Auswertung	23
3	Ergebnisse	24
3.1	Analyse der mittleren Grundfrequenz F_0 [Hz]	24
3.2	Analyse des Parameters F_{hi} [Hz]	28
3.3	Analyse des Parameters F_{lo} [Hz]	30
3.4	Analyse der Gesamtlänge T_{sam} [s]	32
3.5	Analyse des Parameters J_{ita} [μ s]	34
3.6	Analyse des Parameters J_{itt} [%]	38
3.7	Analyse des Parameters Shimmer (Shim) [dB]	41
3.8	Analyse des Pitch Perturbation Quotient (PPQ) [%]	44
4	Diskussion	47
4.1	Analyse der Grundfrequenz F_0	48
4.2	Analyse der Länge der Einzelvokalisationen	51
4.3	Kurzzeitvariabilität der mittleren Grundfrequenz F_0	54
4.3.1	Ursachen der Mikrovariationen	54

4.4	Jitter	55
4.5	Shimmer	58
4.6	Pitch Perturbation Quotient (PPQ)	59
4.7	Fazit	62
5	Zusammenfassung	63
6	Literaturverzeichnis	66
7	Danksagung	75

Abbildungsverzeichnis

Abbildung 1	Schmalbandspektrum eines Säuglingsschreis (CSL 4400)	14
Abbildung 2	Histogramme der mittleren F_0 in allen Vokalisationen der KG	25
Abbildung 3	Histogramme der mittleren F_0 in allen Vokalisationen der OFS-Gruppe	25
Abbildung 4	Boxplot der mittleren Grundfrequenz F_0 der Vokalisationen der sechs Analysegruppen	27
Abbildung 5	Boxplot der mittleren Grundfrequenz F_0 der Vokalisationen der sechs Analysegruppen jeweils mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte	27
Abbildung 6	Histogramme der höchsten gemessenen Grundfrequenz F_{hi} in allen Vokalisationen für die KG	28
Abbildung 7	Histogramme der höchsten gemessenen Grundfrequenz F_{hi} in allen Vokalisationen für die OFS-Gruppe	28
Abbildung 8	Boxplot der F_{hi} - Werte der Vokalisationen der sechs Analysegruppen	29
Abbildung 9	Histogramme der kleinsten gemessenen Werte der Grundfrequenz F_{lo} in allen Vokalisationen für die KG	30
Abbildung 10	Histogramme der kleinsten gemessenen Werte der Grundfrequenz F_{lo} in allen Vokalisationen für die OFS-Gruppe	31
Abbildung 11	Boxplot der F_{lo} - Werte der Vokalisationen der sechs Analysegruppen	32
Abbildung 12	Histogramm der Gesamtlänge Tsam in allen Vokalisationen für die KG	33
Abbildung 13	Histogramm der Gesamtlänge Tsam in allen Vokalisationen für die OFS-Gruppe	33
Abbildung 14	Boxplot der Gesamtlänge Tsam der Vokalisationen der sechs Analysegruppen jeweils mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte	34
Abbildung 15	Histogramme der Jita-Werte in allen Vokalisationen der sechs Analysegruppen	35
Abbildung 16	Boxplot der Jita-Werte aller Vokalisationen der sechs Analysegruppen	37
Abbildung 17	Boxplot der Jita-Werte der Vokalisationen der sechs Analysegruppen jeweils mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte	37
Abbildung 18	Histogramme der Jitt-Werte in allen Vokalisationen der sechs Analysegruppen	38
Abbildung 19	Boxplot der Jitt Werte aller Vokalisationen der sechs Analysegruppen	40

Abbildung 20	Boxplot der Jitt-Werte der Vokalisationen der sechs Analysegruppen jeweils mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte.....	40
Abbildung 21	Histogramme der Shim-Werte in allen Vokalisationen der sechs Analysegruppen	41
Abbildung 22	Boxplot der Shimmer Werte aller Vokalisationen der sechs Analysegruppen	43
Abbildung 23	Boxplot der Shim-Werte der Vokalisationen der sechs Analysegruppen jeweils mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte.....	43
Abbildung 24	Histogramme der PPQ-Werte in allen Vokalisationen der sechs Analysegruppen	44
Abbildung 25	Boxplot der PPQ Werte aller Vokalisationen der sechs Analysegruppen	46
Abbildung 26	Abbildung Boxplot der PPQ-Werte der Vokalisationen der sechs Analysegruppen jeweils mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte.....	46

Tabellenverzeichnis

Tabelle 1	Geschlecht und Spaltausprägung der Patienten	9
Tabelle 2	Hörleistung der Säuglinge der OFS-Gruppe im ersten Lebensjahr*	12
Tabelle 3	Datenbasis Kontrollgruppe: Anzahl der analysierten vorsprachlichen Lautäußerungen pro Kind (Rohdatenset für Voranalyse)	15
Tabelle 4	Datenbasis OFS-Gruppe: Anzahl der analysierten vorsprachlichen Lautäußerungen pro Kind (Rohdatenset für die Voranalyse)	16
Tabelle 5	Finale Analysegruppen	18
Tabelle 6	Analysierte Parameter (MDVP 1993)	20
Tabelle 7	Mittlere Grundfrequenz F_0 aller untersuchten Vokalisationen	26
Tabelle 8	Größter gemessener Wert der Grundfrequenz F_{hi} aller untersuchten Vokalisationen	29
Tabelle 9	Kleinster gemessener Wert der Grundfrequenz F_{lo} aller untersuchten Vokalisationen	31
Tabelle 10	Jita aller untersuchten Vokalisationen	36
Tabelle 11	Jitt aller untersuchten Vokalisationen	39
Tabelle 12	Shimmer aller untersuchten Vokalisationen	42
Tabelle 13	PPQ aller untersuchten Vokalisationen	45

Abkürzungsverzeichnis

BERA	brainstem evoked response audiometry/ Hirnstammaudiometrie
CDAP	Cry-Data-Analysis-Program
d	Tag
dB	Dezibel
EKP	ereigniskorrelierte Potentialmessungen
F_0	mittlere Grundfrequenz
F_{hi}	höchste gemessene Grundfrequenz
	niedrigste gemessene Grundfrequenz
Hz	Hertz
KG-Gruppe	Kontrollgruppe
kHz	Kilohertz
LAHSHAL	standardisierte Klassifikation zur Kennzeichnung oro-fazialer Spalttypen
LKGS-Spalte	Lippen-Kiefer-Gaumen-Segel-Spalte
MDVP	Multi-Dimensional Voice Program
ms	Millisekunde
OAE	otoakustische Emissionsuntersuchung
OFS-Gruppe	Gruppe mit oro-fazialen Spaltbildungen
PPQ	Pitch Perturbation Quotient
s	Sekunde
SIDS	Sudden Infant Death Syndrom (plötzlicher Säuglingstod)
ZVES	Zentrum für vorsprachliche Entwicklung und Entwicklungsstörungen an der Poliklinik für Kieferorthopädie des Universitätsklinikums Würzburg

1 Einleitung und Zielsetzung

Die Erforschung vorsprachlicher Lautäußerungen

Schon die frühesten vorsprachlichen Lautäußerungen sind Teil des Kommunikationssystems eines Säuglings mit seiner Umwelt und stellen in gewisser Weise eine Art „Vorbereitung“ auf die ersten gesprochenen Worte dar („Sprache beginnt mit dem ersten Schrei“; (Lenneberg 1967; Liebermann 1967; Lester 1978; Wermke et al. 1994; Wermke et al. 2002b; Wermke et al. 2011)).

Die Anfänge der objektiven Analyse vorsprachlicher Lautäußerungen von Säuglingen zu diagnostischen Zwecken gehen in die frühen sechziger Jahre des vergangenen Jahrhunderts zurück.

Die skandinavischen Pädiater Ole Wasz-Höckert und John Lind gelten gemeinsam mit ihren Forschungsgruppen als die Urväter und Initiatoren der systematischen Erforschung vorsprachlicher Säuglingslaute, insbesondere der Säuglingsschreie (Wasz-Höckert et al. 1964; Wasz-Höckert et al. 1968; Koivisto et al. 1970; Lind 1971; Michelsson 1971; Lester et al. 1985). Anfänglich richtete sich das Forschungsinteresse vor allem auf diagnostische Fragestellungen; man wollte frühzeitig bestimmte zerebrale Dysfunktionen (mild brain disorders) nichtinvasiv identifizieren. Die Forscher erkannten, dass akustische Veränderungen in Säuglingsschreien in Zusammenhang mit dem Auftreten bestimmter Krankheitsbilder standen (Lind 1965; Wasz-Höckert et al. 1968; Murry et al. 1980; Hirschberg et al. 1982; Lester et al. 1985; Gilbert et al. 1996). Unter anderem wurden bei Störungen des ZNS akustische Besonderheiten und Irregularitäten in den Schreien beschrieben, so bei Hyperbilirubinämie (Koivisto et al. 1970; Vohr 1990), bei Hypoglycämie (Koivisto et al. 1974), bei Herpes Simplex Virus Infektionen (Pettay et al. 1977), beim plötzlichem Kindstod (Sudden Infant Death Syndrom (SIDS)) (Colton et al. 1981), bei Chromosomenanomalien (Michelsson et al. 1980), bei Meningitis (Michelsson et al. 1977a) und bei Asphyxie (Michelsson 1971; Michelsson et al. 1977b). Diese Zusammenhänge ließen hoffen, Abweichungen im Schreimuster von Säuglingen als zusätzliche Information für das Erstellen von Entwicklungsprognosen nutzen zu können (Lind 1971; Golub und Corwin 1982). Diese Hoffnung hat sich jedoch nicht erfüllt, da Säuglingsschreie, bzw. ihre

akustischen Eigenschaften eine enorme inter-individuelle Variabilität zeigen und die Schreimelodie zusätzlich einem angeborenen Entwicklungsprogramm von anfänglich einfachen zu immer komplexeren Mustern folgt (Wermke et al. 2002a; Wermke et al. 2011). Da diese Erkenntnisse in der Zeit der klassischen medizinischen Schreiforschung noch nicht vorlagen, gingen die Untersuchungen von falschen Voraussetzungen aus (fixierte, stabile Schreimuster) und konnten somit nicht zum gewünschten Erfolg führen. Dazu wäre es notwendig, an einer sehr großen Zahl vorsprachlicher Lautäußerungen von gesunden Säuglingen zunächst den Variationsbereich aller diagnostisch relevanten akustischen Merkmale zu bestimmen und dabei die Hörleistungen der Säuglinge, sowie externe Einflüsse, wie z.B. die Sprachumgebung (Mampe et al. 2009) und mütterliche Merkmale (unter anderem Interaktionsmuster mit dem Säugling, Alkoholabusus und Missbrauch anderer Noxen (LaGasse et al. 2005)) zu berücksichtigen. Dies alles sind relativ neue Erkenntnisse, die nicht dazu führen sollten, die großen Leistungen der Pioniere auf diesem Gebiet nicht gebührend zu würdigen.

Insbesondere die Arbeiten von Wermke und Mende haben zu einem neuen Verständnis der frühen Säuglingslaute und ihrer Bedeutung aus der Perspektive des Sprech- und Spracherwerbs beigetragen (Wermke et al. 2011). Die von dieser Arbeitsgruppe belegten systematischen Veränderungen bestimmter akustischer Eigenschaften in den Schreien gesunder Säuglinge in den ersten Lebenswochen stehen, so die Hypothese der Wissenschaftler, in einem engen Zusammenhang mit der frühen Sprachentwicklung (Wermke et al. 2011). Der Einstieg in die Sprache erfolgt über die Prosodie, also die Sprachmelodie und der Erwerb prosodischer Fähigkeiten beginnt faktisch mit dem ersten Schrei (Wermke et al. 2011).

Beide Forschungsrichtungen, die klassische „Schreidiagnostik“ und die neue auf den Spracherwerb gerichtete Perspektive, sind allerdings nicht voneinander zu trennen, denn die ungestörte Funktionsweise der Lautproduktion zugrunde liegenden neuro-physiologischen Mechanismen ist eine Voraussetzung dafür, dass das Melodieprogramm regelhaft ablaufen kann (Wermke et al. 2002b; Wermke et al. 2007; Lederman et al. 2008; Wermke et al. 2011).

Der Prozess des Sprech- und Spracherwerbs ist ein Resultat aus sozialen

Lernprozessen (Hören, Üben, Sprechen), genetischer Veranlagung, dem psycho- und physiologischen Reifegrad und den Leistungen der an der Lautproduktion beteiligten neuro-physiologischen Regelsysteme.

Die neurophysiologischen Reifungs- und Entwicklungsvorgänge sowie die mit dem Alter zunehmende Einflussnahme kortikaler Kontrollmechanismen spiegeln sich in Veränderungen akustischer Eigenschaften der vorsprachlichen Laute wider.

Geeignete akustische Messgrößen erlauben diesbezügliche Untersuchungen. In der vorliegenden Arbeit werden schnelle Modulationen der Grundfrequenz untersucht, also eine Art „Ausführungsgüte“ der Melodiemuster beschrieben. Die „Ausführungsgüte“ der Melodie oder vereinfacht betrachtet, die Stimmstabilität, ist insofern eine sehr wichtige Größe, als dass sie die Kurzzeitvariabilität der mittleren Grundfrequenz F_0 charakterisiert und damit vergleichsweise schnelle neurophysiologische Regelmechanismen der Lautproduktion reflektiert.

Trotz offensichtlich vorhandener Zusammenhänge zwischen Funktionszuständen der an der Lautproduktion beteiligten Strukturen und Mechanismen und deren Reflektion in akustischen Lauteigenschaften bedarf es weiterer systematischer Langzeitstudien, um auch klinisch praktikable Risikomarker und Prognoseindices zu entwickeln. Für alle relevanten akustischen Größen liegen bisher keine für die klinische Praxis ausreichend getesteten und kalibrierten Referenz- und Normwerte von gesunden Säuglingen vor. In Zukunft könnte es möglich werden, frühzeitig wertvolle, medizinische Verfahren ergänzende Zusatzinformationen für die Behandlung von Risikokindern für den Sprech- und Spracherwerb zu erhalten. So könnte zum Beispiel die Evaluation des erreichten Grades der Komplexität der Melodie in Säuglingsvokalisationen des zweiten und dritten Lebensmonats zur Beurteilung frühester sprachrelevanter Leistungen des Säuglings beitragen und von prognostischem Wert sein (Wermke et al. 2007). Dabei stellt sich die Frage, ob es wirklich allein der Melodiekomplexitätsgrad ist, der prognostisch relevant sein könnte, oder ob nicht zusätzlich auch die Güte (im Sinne einer geringen Kurzzeitvariabilität von F_0), mit der bestimmte komplexe Muster vom Säugling produziert werden, dabei von Bedeutung ist. Die vorliegende Arbeit liefert mit ihren Untersuchungen einen Beitrag zur Beantwortung dieser Frage durch

einen Vergleich der Kurzzeitvariabilität von F_0 in vorsprachlichen Vokalisationen von Säuglingen mit und ohne oro-faziale Spaltbildungen.

Oro-faziale Spaltbildungen

Lippen-Kiefer-Gaumen-Segelspalten (LKGS-Spalten) zählen zu den häufigsten angeborenen Fehlbildungen und liegen in Mitteleuropa mit einer Inzidenz von etwa 1:500 vor, wobei Jungen generell häufiger betroffen sind als Mädchen (Schwenzer et al. 2002). Bei LKGS-Spaltbildungen handelt es sich um multifaktoriell entstandene, kongenitale Gesichtsfehlbildungen, die den Hauptteil aller kraniofacialen Dysplasien ausmachen (Andrä et al. 1996).

Je nach Lokalisation und Dimension der oro-fazialen Spaltbildung, die von Mikroformen bis hin zur doppelseitigen vollständigen Lippen-Kiefer-Gaumen-Segel-Spalte reichen kann, ergeben sich verschieden stark ausgeprägte Funktionsstörungen, die sich alle mehr oder weniger stark negativ auf die Sprech- und Sprachentwicklung auswirken können.

1.1 Spaltbedingte Funktionsstörungen

Oro-faziale Spaltbildungen stellen für den betroffenen Säugling eine schwere Beeinträchtigung in funktioneller, ästhetischer und psychologischer Hinsicht dar. Die mit der Spalte einhergehenden anatomischen Größen- und Formabweichungen führen zu Störungen im oro-fazialen Gleichgewicht.

1.2 Auswirkungen der Spaltbildung auf den Sprech- und Spracherwerb

„Eine bestimmte Form bedingt eine entsprechende Funktion, und umgekehrt bewirkt eine bestimmte Funktion eine entsprechende Form.“

(Codoni 1992)

Die Aneignung von Sprache, sowie deren Gebrauch kann nur durch eine intakte akustische Reizaufnahme, eine regelrechte Verarbeitung der aufgenommenen Informationen im zentralen Nervensystem, sowie durch ein funktionsfähiges oro-faziales System als Erfolgsorgan der Sprache gewährleistet werden (Baumann 2004).

Aufgrund pathologischer Veränderungen in Form und Funktion verschiedener anatomischer Strukturen kommt es - verglichen mit gleichaltrigen, nicht spalttragenden Säuglingen - bei Säuglingen mit oro-fazialen Spaltbildungen zu Deviationen und Verzögerungen in der frühen sprachlichen Entwicklung. Säuglinge mit Spaltbildungen treten häufig verspätet in die Phase des kanonischen Babbelns (zielsprachlich geprägte Silbensequenzen) ein und unterscheiden sich bereits in prä-verbale Phasen in ihrem phonetischen Repertoire deutlich von gesunden Gleichaltrigen (Chapman et al. 1992; Grunwell 1993). Diese Entwicklungsverzögerung kann bei betroffenen Säuglingen zu einer Sprachentwicklungsretardierung und damit häufig einhergehend auch zum Zurückbleiben in der kognitiven Entwicklung führen (Chapman et al. 1992; Hochmuth 1993; Schaedler 2002; Jurkutat 2011).

Aufgrund der durch die Spaltbildung verursachten velopharyngealen Insuffizienz kommt es zu einem vermehrten Ausströmen der Luft durch die Nase des betroffenen Säuglings. Die unzureichende Verschlusskompetenz und die daraus resultierende offene Verbindung des Nasen- und Rachenraumes äußert sich in der Phonation als Stimmklangveränderung. Dies kann später zum offenen Näseln; der so genannten Rhinophonia aperta führen, deren Intensität von der Größe der velopharyngealen Restöffnung, sowie von funktionell-

motorischen und neuromuskulären Bewegungs- und Kompensationsmechanismen des Velums und des Pharynx abhängt (Pfeifer et al. 1981; Eggeling 1983). Um den veränderten Stimmklang zu kompensieren, der durch die fehlende Trennung der Mund- und Nasenhöhle und dem damit vergrößerten Resonanzraum entsteht, kommen bei älteren Kindern mimische Ausgleichsbewegungen zum Einsatz, die eine Verbesserung des velopharyngealen Abschlusses und eine Verminderung der nasalen Penetration herbeiführen können (Thiele 1990; Gleiß et al. 1992; Dieckmann 1996; Wyatt et al. 1996). Verwandte Phänomene sind bereits bei Säuglingen zu beobachten.

Abhängig von der Ausprägung und Lokalisation der Spaltbildung ist beim betroffenen Säugling eine normale Lautbildung oft nicht möglich, was im Vergleich zu frühen Artikulationsbewegungen gesunder Säuglinge bei spalttragenden Gleichaltrigen zu einer Abweichung artikulatorischer Bewegungen (später Palatolalie) führt. Ältere Säuglinge und Kleinkinder neigen in diesem Fall zur Bildung kompensatorischer Ersatzlaute (Harding et al. 1996; Pamplona et al. 2000; Runte et al. 2002).

Durch eine spaltbedingte Richtungsabweichung der einströmenden Atemluft kommt es zu Verwirbelungen im Nasopharynx, wodurch das Filtern und Erwärmen der eingeatmeten Luft entfällt. Rezidivierende Infektionen im Nasen- und Rachenraum, sowie eine pathologische Vergrößerung der Gaumen- und Rachenmandeln sind die Folge. Funktionsstörungen der Gaumenmuskulatur führen zu einer verringerten Belüftung des Innenohrs. Durch fehlerhaft inserierende Muskelzüge kann die bei spalttragenden Säuglingen ohnehin im Durchmesser verringerte Tube nicht vollständig geöffnet werden und somit kein Druckausgleich im Mittelohr stattfinden (Schwenzer et al. 2002). Über einen längeren Zeitraum begünstigt dies die Entstehung eines Seromukotympanons, was zu chronischer Otitis media, zu Verwachsungen bzw. Versteifungen der Gehörknöchelchen und somit zu dauerhafter Schwerhörigkeit und daraus entstehenden Störungen der Sprech- und Sprachentwicklung führen kann (Koch et al. 1987; Schönweiler 1993; Boeninghaus et al. 2007). Eine regelmäßige Testung der Hörfunktion ist bei Säuglingen mit oro-fazialer Spaltbildung unerlässlich und wird in der Regel im Rahmen der interdisziplinären Spaltsprechstunde durch Pädaudiologen durchgeführt.

Zielsetzung

In der vorliegenden Arbeit wurden Messgrößen, die die Kurzzeitvariabilität bei der Produktion vorsprachlicher Lautäußerungen reflektieren, analysiert. Die Kurzzeitvariabilität wurde gewählt, da sie unmittelbar die Funktion der der Phonation zugrunde liegenden neuro-physiologischen Regelmechanismen widerspiegelt. Es wurden spontan geäußerte vorsprachliche Lautäußerungen des zweiten und dritten Lebensmonats von Säuglingen mit oro-fazialen Spaltbildungen untersucht und mit denen gleichaltriger, gesunder Säuglinge verglichen.

Der gewählte Altersbereich von zwei bis drei Monaten ist aus verschiedenen Gründen sehr geeignet:

- Instabilitäten der Lautproduktionsmechanismen, die durch postnatale Adaptationsprozesse oder Unreife bedingt waren, sind im gewählten Zeitraum überwunden und eine stabile laryngeale Lautproduktion bei gesunden Säuglingen ist die Regel.
- In diesem frühen Säuglingsalter wird zwar - soweit indiziert - bereits eine kieferorthopädische Frühbehandlung in Form einer Versorgung mit einer Oberkieferplatte begonnen, chirurgisch-operative Maßnahmen finden zu diesem Zeitpunkt jedoch noch nicht statt. Dadurch sind die akustischen Messgrößen nicht durch therapeutische Interventionen maskiert.
- Wermke et al. haben sowohl für gesunde als auch für LKGS-Säuglinge gezeigt, dass die Evaluation des erreichten Grades der Melodiekomplexität in diesem Alter ein geeigneter Entwicklungsmarker ist und dessen klinische Relevanz postuliert (Wermke et al. 2007; Wermke 2009).
- Die intentionale Interaktion zwischen phonatorischer (Melodie) und artikulatorischer (Resonanzfrequenzvariation) Aktivität beginnt während des zweiten und dritten Lebensmonates, was zu verstärkten Rückkopplungseffekten vom Vokaltrakt auf den Stimmapparat führt.

Alle genannten Gründe motivieren die hier durchgeführte Untersuchung der Kurzzeitvariabilität von F_0 in dem gewählten Altersbereich bei dem gewählten Design des Vergleichs zwischen Säuglingen mit und ohne LKGS-Spalten.

Neben der Frage, inwieweit die Oberkieferplatte über ihre kieferorthopädische

Funktion hinaus auch Einfluss auf die Kurzzeitvariabilität von F_0 und damit auf die Stimmstabilität hat, soll untersucht werden, ob sich die in der Kurzzeitvariabilität reflektierten neuro-physiologischen Leistungen der respiratoryngealen Regelsysteme prinzipiell zwischen Säuglingen mit und ohne oro-faziale Spaltbildung unterscheiden. Diese Forschung leistet einen Beitrag zur Entwicklung von Indikatoren zur Früherkennung potentieller Risikokinder für den Sprech- und Spracherwerb, indem sie die bioindikative Valenz der Kurzzeitvariabilität von F_0 untersucht.

Die Analyse der Kurzzeitvariabilität von F_0 in vorsprachlichen Vokalisationen in der vorliegenden Arbeit soll folgende Fragen beantworten:

- Unterscheidet sich die Kurzzeitvariabilität von F_0 in vorsprachlichen Lautäußerungen von Säuglingen mit oro-fazialen Spaltbildungen von denen gesunder Gleichaltriger?
- Hat die eingesetzte Oberkieferplatte einen Einfluss auf die Kurzzeitvariabilität von F_0 und damit auf die Stimmstabilität?

2 Material und Methode

Probanden

2.1 OFS-Gruppe (Patientengruppe)

In der vorliegenden Arbeit wurde eine Analyse von fast 5.000 vorsprachlichen Lautäußerungen des zweiten und dritten Lebensmonats (Mittelwert: 60 d; Alter_{min} 27 d; Alter_{max} 104 d) von 19 (vier weiblichen) Säuglingen mit unterschiedlich stark ausgeprägten nicht-syndromalen oro-fazialen Spaltbildungen (OFS-Gruppe) durchgeführt. Alle vorsprachlichen Lautäußerungen der OFS-Gruppe wurden im Rahmen der interdisziplinären Spaltsprechstunde an der Poliklinik für Kieferorthopädie des Universitätsklinikums Würzburg (Direktorin: Prof. Dr. A. Stellzig-Eisenhauer) von Mitarbeitern des zur Poliklinik gehörenden Zentrums für vorsprachliche Entwicklung und Entwicklungsstörungen (ZVES; Leiterin: Prof. Dr. K. Wermke) aufgenommen und in der Datenbank des ZVES archiviert. Die hier untersuchten Probanden der OFS-Gruppe wurden nach folgenden Kriterien aus dem ZVES-Archiv ausgewählt:

- unauffällige prä- und postnatale Anamnese

- Spontangeburt
- abgesehen von den Spaltbildungen postnatal keine weiteren pathologischen Befunde
- ausreichende Anzahl auswertbarer vorsprachlicher Lautäußerungen im Untersuchungszeitraum

Tabelle 1 gibt eine Übersicht über das Geschlecht und den Spalttyp der für die vorliegende Arbeit untersuchten Säuglinge der OFS-Gruppe.

Tabelle 1 Geschlecht und Spaltausprägung der Patienten

Säugling	Geschlecht	LAHS-Code*	Spalttyp
US	männlich	-- h-S-h --	isolierte Hart- oder Weichgaumen- Spalte
NZ	männlich	-- h-S-h --	
AS	männlich	-- h-S-h --	
SA	weiblich	-- H S H --	
RA	weiblich	-- H-S-H --	
VE	männlich	-- H-S-H --	
IS	männlich	-- h-S-h-a-l	linksseitige Lippen-Kiefer- Gaumen-Segel- Spalte
KL	weiblich	-- h-S-H-A-L	
ON	männlich	-- h-S-H-A-L	
EN	männlich	-- h-S-H-A-L	
CA	männlich	-- H-S-H-A-L	
MO	männlich	-- H-S-H-A-L	
JO	männlich	-- H-S-H-A-L	
AN	männlich	-- H-S-H-A-L	
OB	männlich	l-a-H-S-H --	rechtsseitige Lippen-Kiefer- Gaumen-Segel- Spalte
OU	weiblich	L-A-H-S-H --	
ID	männlich	L-A-H-S-H --	
EL	männlich	L-A-H-S-H --	
EO	männlich	L-A-H-S-H-A-L	beidseitige Lippen-Kiefer-Gaumen-Segel- Spalte

*Die Großbuchstaben des LAHS-Codes (Koch et al. 2003) stehen für eine komplette Spaltbildung der jeweiligen Struktur. Kleinbuchstaben kennzeichnen eine inkomplette Spaltbildung. Die anatomischen Abschnitte werden jeweils von rechts nach links bezeichnet. L= lip (Lippe), A= alveolar palate (Kiefer), H= hard palate (Harter Gaumen), S= soft palate (weicher Gaumen).

Bei allen in der vorliegenden Arbeit untersuchten Säuglingen war eine kieferorthopädische Frühbehandlung mit einer Oberkieferplatte medizinisch indiziert und wurde durchgeführt. Diese Oberkieferplatte erleichtert die Nahrungsaufnahme und dient der Annäherung der durch die Spaltbildung auseinander gewichenen Kiefersegmente (<http://www.kieferorthopaedie.uk-wuerzburg.de/lippen-kiefer-gaumen-segelspalten>).

In der Datenbank des ZVES lagen von allen Säuglingen Lautäußerungen vor, die sowohl mit als auch ohne eingesetzte Oberkieferplatte aufgezeichnet wurden. In einzelnen Fällen variiert die Anzahl der auswertbaren vorsprachlichen Lautäußerungen für beide Plattenkonditionen (mit/ohne Platte) im ausgewählten Untersuchungszeitraum. Das ist darauf zurückzuführen, dass von den Säuglingen nur spontane Lautäußerungen aufgezeichnet werden (keine Schreiauslösung) und sie zum Zeitpunkt der Aufnahme in der Spaltsprechstunde unterschiedlich stark „schreimotiviert“ waren.

Wie aus Tabelle 1 ersichtlich wird, beinhaltet die Gruppe der beidseitigen LKGS-Spalten nur einen Probanden, da die anderen am ZVES archivierten vorsprachlichen Lautäußerungen die für die Analysen in vorliegender Arbeit angelegten Auswahlkriterien (siehe Kapitel 2.3) nicht erfüllten. Trotz der geringen Datenmenge und der damit gegenüber den anderen Analysegruppen eingeschränkten Aussagekraft der ermittelten Ergebnisse, habe ich mich dazu entschieden, die vorsprachlichen Vokalisationen des Säuglings mit der beidseitigen LKGS-Spalte in die Analysen und anschließenden Interpretationen in der vorliegenden Arbeit einzubinden. Dieser Umstand wird in Kapitel 4 (Diskussion) weiter erläutert.

Hörleistungen bei Kindern der OFS-Gruppe

Säuglinge mit oro-fazialen Spaltbildungen und einer damit einhergehenden velopharyngealen Insuffizienz haben im Vergleich zu gesunden Säuglingen ein vielfach erhöhtes Risiko für das Auftreten von Otitis media und Paukenergüssen (Quante, Esser et al. 1971; Goudy, Lott et al. 2006). Der Grund hierfür liegt in einer Belüftungsstörung des Mittelohres, welche ihre Ursache in der gespaltenen Muskulatur im Bereich des weichen Gaumens hat. Unter physiologischen Umständen setzen die Muskelstränge in diesem Bereich am Ostium der Tuba auditiva an. Fehlt diese Verbindung, ist kein Druckausgleich zwischen Mittelohr und Mund-Rachen-Raum möglich (Hirschberg 2001; Boeninghaus et al. 2007). Aus verschiedenen Studien geht hervor, dass die dauerhafte Beeinträchtigung des Hörvermögens einen negativen Einfluss auf die Sprech- und Sprachentwicklung der betroffenen Kinder hat (Hubbard et al. 1985; Jocelyn et al. 1996; Shriberg et al. 2000). Daher sollten Säuglinge mit oro-fazialen Spaltbildungen in der Regel auch engmaschig im Rahmen der interdisziplinären Spaltsprechstunde pädaudiologisch untersucht werden. Tabelle 2 enthält eine Übersicht der pädaudiologischen Befunde aller in der vorliegenden Arbeit untersuchten Säuglinge mit oro-fazialer Spaltbildung. Daraus wird ersichtlich, dass die meisten Säuglinge unter einer geringen bis mittelgradigen Hörbeeinträchtigung leiden. Im Laufe der ersten 18 Lebensmonate erhielt die überwiegende Anzahl der untersuchten Säuglinge eine Paukendrainage zur Belüftung des Mittelohres. Dieser operative Eingriff fand jedoch nicht im Untersuchungszeitraum vorliegender Arbeit statt. Bei fünf Kindern wurden im Verlauf der ersten sechs Lebensmonate keine Hörbefunde an der Klinik und Poliklinik für Hals-, Nasen und Ohrenkrankheiten, plastische und ästhetische Operationen der Universitätsklinik Würzburg erhoben.

Tabelle 2 Hörleistung der Säuglinge der OFS-Gruppe im ersten Lebensjahr*

Säugling	Einstufung der Hörleistung	BERA	
US	1	BERA	
NZ	1	Freifeld	
AS	0	Freifeld	
SA	unbekannt	unbekannt	
RA	1	Freifeld	
VE	2	Freifeld	
IS	1	BERA	
KL	unbekannt	unbekannt	
ON	0	BERA	
EN	1	Freifeld	
CA	1	Freifeld	
MO	unbekannt	unbekannt	
JO	0	BERA	
AN	1	Freifeld	
OB	unbekannt	unbekannt	
OU	1	BERA	
ID	unbekannt	unbekannt	
EL	1	Freifeld	
EO	1	Freifeld	
Einstufung	Hörvermögen	BERA	Freifeld
0	regelrecht	0-40 dB	0-60 dB
1	geringgradige Hörminderung	40-60 dB	60-80 dB
2	mittelgradige Hörminderung	60-70 dB	80-100 dB

*Die Hörbefunde wurden an der Klinik und Poliklinik für Hals-, Nasen und Ohrenkrankheiten, plastische und ästhetische Operationen, Würzburg erhoben und in der angegebenen Bewertung dem ZVES zur Verfügung gestellt (Autorin: PD Dr. med. C. Völter).

2.2 Kontrollgruppe

Um Unterschiede in der hier analysierten Kurzzeitvariabilität der Grundfrequenz vorsprachlicher Lautäußerungen zwischen gesunden Säuglingen und Säuglingen mit oro-fazialen Spaltbildungen aufzeigen zu können, benötigt man geeignete Referenzwerte. Da es in der Fachliteratur bisher keine Referenzwerte in dem hier untersuchten Altersbereich gibt, musste eine eigene Kontrollgruppe analysiert werden. Für die vorliegende Arbeit wurde eine Kontrollgruppe aus insgesamt 24 medizinisch gesunden Säuglingen (über 6.000 Vokalisationen) ohne Hörstörung herangezogen. Die Kinder sind inzwischen bereits im Sprachalter und es ist bekannt, dass sie eine unauffällige Sprachentwicklung

bis zum Alter von zwei Jahren hatten. Dieses Wissen ist sehr wertvoll für die Untersuchungen in der vorliegenden Arbeit, da ich als Referenz eine Kontrollgruppe verwenden konnte, bei der ich von einer regelrechten Entwicklung ausgehen konnte, was ohne dieses retrospektive Design nicht möglich gewesen wäre. Die relevanten Daten dieser Kinder aus ihrer Säuglingszeit wurden mir aus dem Archiv des ZVES zur Verfügung gestellt.

Die Säuglinge der Kontrollgruppe erfüllten, soweit anwendbar, die gleichen medizinischen Auswahlkriterien, wie diejenigen der OFS-Gruppe (siehe Kapitel 2.1). Alle ausgewählten Säuglinge sind darüber hinaus monolingual deutsch aufgewachsen.

Einen Überblick über die Anzahl der vorsprachlichen Äußerungen der Kontrollgruppe, die hier als Referenzbasis herangezogen wurde, gibt Tabelle 3.

Datengrundlage und Datenanalyse

Im Signalanalyselabor am ZVES sind verschiedene Analysesysteme und -programme verfügbar, die eine Umsetzung der Fragestellung der Arbeit ermöglichen. Alle Systeme sind umfangreich getestet und werden routinemäßig bei der vorsprachlichen Diagnostik eingesetzt. Für die Analysen der vorliegenden Arbeit wurden das CSL/MDVP-Auswertesystem (CSL 4400) der Firma KAY/Pentax (USA), sowie das ZVES-interne CDAP-System (pw-project) verwendet.

Die hier analysierten vorsprachlichen Lautäußerungen der Säuglinge der OFS- und der Kontrollgruppe lagen in Form digital aufgezeichneter WAV-Files (48 kHz) und korrespondierender instationärer Schmalband-(45 Hz)-Spektren (Abb.1) im Archiv des ZVES vor.

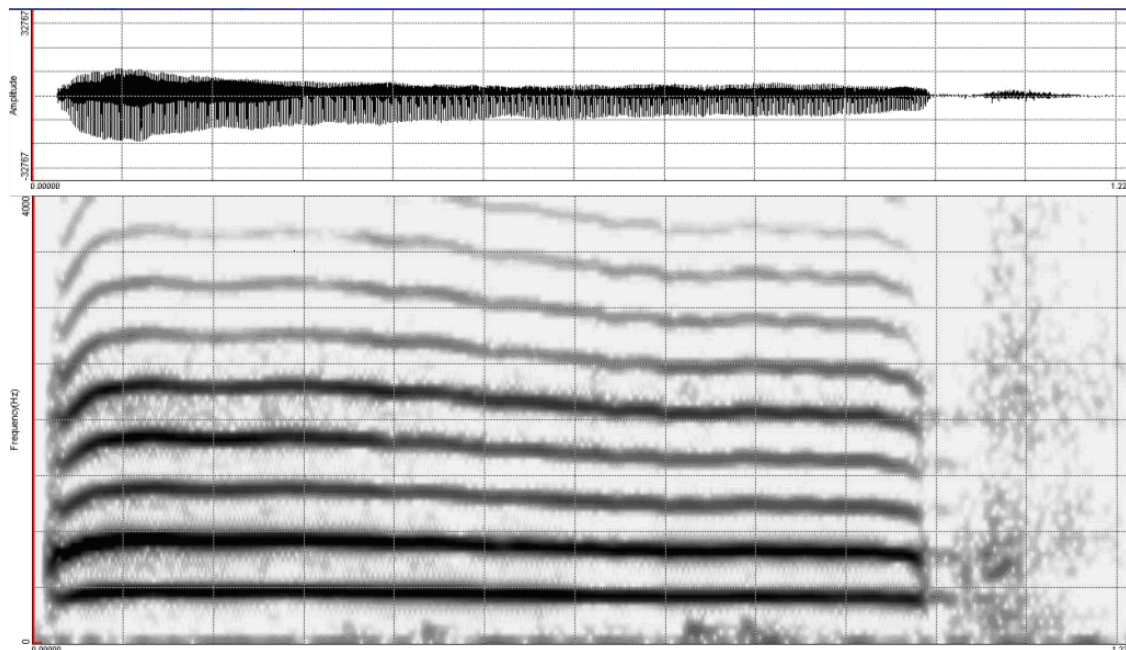


Abbildung 1 Schmalbandspektrogramm eines Säuglingsschreis (CSL 4400)

Auf der X-Achse des Spektrogramms (Abb.1) ist die Dauer der Vokalisation in Millisekunden (ms) dargestellt; die Y-Achse zeigt die Frequenzkomponenten des Signals in Hertz (Hz) bis zu 4 kHz linear. Die Intensität der Harmonischen spiegelt sich im Schwärzungsgrad wider: je stärker die Schwärzung, desto energiereicher ist die jeweilige Frequenzkomponente der Vokalisation. Die unterste waagerechte Linie im Frequenzspektrogramm zeigt den zeitlichen Verlauf der Grundfrequenz F_0 (Melodie). Die darüber liegenden waagerechten Linien repräsentieren die Harmonischen der Grundfrequenz F_0 und stehen untereinander und zu F_0 in einem ganzzahligen Verhältnis. Frequenzbanden, die zwischen den Harmonischen liegen, sind so genannte Subharmonische (in Abbildung 1 nicht vorhanden). Anhand eines Spektrogramms können verschiedene spektrale Eigenschaften einer Vokalisation (die Struktur der Harmonischen/Subharmonischen, plötzliche sprunghafte Änderungen der Frequenz innerhalb eines Signals, glottal erzeugte Segmentierungsphasen, Rauschbanden) identifiziert werden. Die Frequenzspektrogramme (N=10.973; siehe Tab. 4 und 5) wurden zur akustischen Voranalyse verwendet, um geeignete Vokalisationen für die folgende spezifische akustische Auswertung auszuwählen.

Die Rohdatenbasis für die hier durchgeführte Analyse ist in Tabelle 3 bzw. 4 wiedergegeben. Bei der Auswahl der geeigneten finalen Datensätze (Vokalisationen) wurde darauf geachtet, dass von jedem Säugling etwa gleich viele Vokalisationen mit bzw. ohne eingesetzter Oberkieferplatte für die Analyse vorlagen (siehe Kapitel 2.3).

Tabelle 3 Datenbasis Kontrollgruppe: Anzahl der analysierten vorsprachlichen Lautäußerungen pro Kind (Rohdatenset für Voranalyse)

Säugling	Geschlecht	Anzahl der vorsprachlichen Äußerungen		
		2. Monat	3. Monat	Gesamt
AB	m	30	102	132
AK	w	80	124	204
AL	m	301	87	388
AR	w	99	104	203
AT	w	114	202	316
AX	w	112	192	304
BA	w	106	114	220
BC	m	183	236	419
BE	w	49	149	198
BF	w	183	216	399
BI	w	215	92	307
BM	m	92	128	220
BN	w	92	119	211
BO	w	69	117	186
BW	w	135	21	156
BZ	m	82	108	190
CE	m	41	85	126
CP	w	113	22	135
CR	m	99	37	136
CX	m	371	252	623
DV	w	94	23	117
EE	w	224	78	302
EH	m	125	169	294
EL	w	144	102	246
Summe		3153	2879	6032

Tabelle 4 **Datenbasis OFS-Gruppe: Anzahl der analysierten vorsprachlichen Lautäußerungen pro Kind (Rohdatenset für die Voranalyse)**

Säugling	Geschlecht	LAHS-Code	Anzahl der ausgewerteten vorsprachlichen Äußerungen		
			2. Monat	3. Monat	Gesamt
US	männlich	--h-S-h--	94	91	185
NZ	männlich	--h-S-h--	198	70	268
AS	männlich	--h-S-h--	117	55	172
SA	weiblich	--H-S-H--	151	104	255
RA	weiblich	--H-S-H--	117	152	269
VE	männlich	--H-S-H--	129	150	279
IS	männlich	--h-S-h-a-l	151	90	241
KL	weiblich	--h-S-H-A-L	88	88	176
ON	männlich	--h-S-H-A-L	198	385	583
EN	männlich	--h-S-H-A-L	99	130	229
CA	männlich	--H-S-H-A-L	132	329	461
MO	männlich	--H-S-H-A-L	76	132	208
JO	männlich	--H-S-H-A-L	156	20	176
AN	männlich	--H-S-H-A-L	145	100	245
OB	männlich	l-a-H-S-H--	105	141	246
OU	weiblich	L-A-H-S-H--	57	252	309
ID	männlich	L-A-H-S-H--	120	171	291
EL	männlich	L-A-H-S-H--	95	102	197
EO	männlich	L-A-H-S-H-A-L	133	18	151
Summe			2361	2580	4941

2.3 Voranalyse: Auswertung spektraler und melodischer Eigenschaften

Die Voranalyse des Rohdatensets war notwendig, um die für die hier durchgeführte spezifische Analyse geeigneten Vokalisationen auszuwählen. Dies wurde mit Hilfe der im CDAP-System gespeicherten Frequenzspektrogramme durchgeführt. Alle Spektrogramme wurden nach spektralen und melodischen Eigenschaften audio-visuell begutachtet, wie nachfolgend angegeben. Starke Bewegungen der Melodie (bogenartige Modulationen) würden die Werte der Kurzzeitvariabilität von F_0 genauso beeinflussen, wie plötzliche Frequenzsprünge, phonatorisches Rauschen, Subharmonische oder andere Irregularitäten.

Für diese Analyse der Kurzzeitvariabilität von F_0 wurden daher im Ergebnis der Voranalyse nur Vokalisationen verwendet, die folgende spektrale und melodische Eigenschaften aufweisen:

- harmonische Struktur, d.h. frei von phonatorischen Rauschelementen in Form von deutlich erkennbaren Rauschbanden (Fuamenya 2011); kein Auftreten von Subharmonischen (Vermeidung „künstlich“ hoher Werte der Kurzzeitvariabilität - Artefaktvermeidung)
- keine Phänomene von plötzlichen Frequenzsprüngen („Shift“), da diese die Berechnung der Parameter der Kurzzeitvariabilität stark beeinflussen und eine separate Untersuchung bedingen
- keine starken Frequenzmodulationen, sondern nur flache („gerade“) Melodieverläufe mit einer relativ konstanten Melodie (typisches Beispiel in Abb.1), um die Auswahl den so genannten „sustained phonations“ in der Erwachsenensprache anzugleichen; keine mehrbogigen Melodien
- eine Mindestlänge der Vokalisationen von 300ms (um eine Mindestregelzeit zu untersuchen), keine maximale Dauervorgabe

Für die vorliegende Arbeit wurden nur Einzelvokalisationen ausgewählt, das heißt Vokalisationen, die während einer einzigen expiratorischen Phase erzeugt wurden (Einzelschrei, Einzelvokalisationen). Signale mit Nebengeräuschen oder einer schlechten Aufnahmequalität wurden aussortiert. Die Voranalyse lieferte für die nachfolgende spezifische Datenanalyse von den 10.973 Lautäußerungen des Rohdatensets 3626 geeignete Einzelvokalisationen, um die Kurzzeitvariabilität von F_0 in adäquater Weise zu berechnen.

Einteilung der Lautäußerungen in Gruppen

Da die Anzahl der final ausgewählten Einzelvokalisationen in der OFS-Gruppe bezüglich des Spalttyps stark variierte und teilweise sehr klein war, wurden die Daten geeignet in umfassendere Analysegruppen zusammengefasst. Die Zusammenfassung ist in Tabelle 5 angegeben.

Tabelle 5 Finale Analysegruppen

Gruppennummer	Gruppenbezeichnung	beinhaltete Spaltformen
0	KG	Kontrollgruppe
1	hSh	--h-S-h--
2	HSH	--H-S-H--
3	linksseitig	--H-S-H-A-L --h-S-H-A-L --h-S-h-a-l
4	rechtsseitig	L-A-H-S-H-- l-a-H-S-H--
5	beidseitig	L-A-H-S-H-A-L

In den Abbildungen des Ergebnisteils ist aus Gründen der Vereinfachung teilweise die in Tabelle 5 aufgeführte Gruppenbezeichnung anstelle der ausführlichen LASHAL-Nomenklatur verwendet worden.

Spezifische Datenanalyse

2.4 Vorverarbeitung der ausgewählten Vokalisationen

Die im CDAP-Archiv gespeicherten Audio-Files beinhalten aus Gründen der Qualitätssicherung bei der manuellen Segmentierung der Rohdaten neben der Vokalisation in der Expirationsphase grundsätzlich immer auch die nachfolgenden Inspirationsgeräusche. Für die Datenanalyse in der vorliegenden Arbeit störten die Inspirationsanteile, da sie Werte der Kurzzeitvariabilität von F_0 unkontrollierbar beeinflusst hätten und mussten daher in einem vorausgehenden Analyseschritt zunächst manuell eliminiert werden. Dazu wurde mit Hilfe von Cursors der Inspirationsbereich bei jeder einzelnen der 3626 Vokalisationen manuell markiert und herausgeschnitten und die verbleibende, rein expiratorische Lautäußerung neu gespeichert. Dieser Prozess wurde auch auditiv perzeptiv kontrolliert.

Dieses Vorgehen stellt sicher, dass in den nachfolgenden Analysen der Kurzzeitvariabilität von F_0 tatsächlich nur die expiratorischen, also intentional produzierten Lautäußerungen berücksichtigt werden. Gleichzeitig wurde in diesem Bearbeitungsschritt die Dauer (Gesamtlänge T_{sam} [s]) der Einzelvokalisationen objektiv bestimmt (Meßgenauigkeit ± 40 ms). So genannte Kurzlaute (<300 ms) wurden identifiziert und anschließend eliminiert, da diese

in der Regel vegetative Begleitgeräusche sind, die in vorliegender Arbeit nicht berücksichtigt werden.

2.5 Ermittlung der Grundfrequenz und der Stimmstabilitätsparameter (der Kurzzeitvariabilität von F_0)

Die Grundfrequenz F_0 selbst, ihr zeitlicher Verlauf (Melodie), sowie verschiedene, mit ihr im Zusammenhang stehende Größen, wie z.B. die Kurzzeitvariabilität, stellen in der „Stimmdiagnostik“ bei Säuglingen wichtige Analysegrößen dar (Wasz-Höckert et al. 1968; Makoi et al. 1970; Michelsson 1971; Lester et al. 1985; Wasz-Höckert et al. 1985; Fuller et al. 1986; Pearce et al. 1993; Protopapas et al. 1997; Michelsson et al. 1999; Wermke et al. 2002a; Hauschildt 2006; Steck-Walter 2007). Anhand dieser Messgrößen ist es möglich, Unterschiede in expiratorischen Lautäußerungen zwischen Säuglingen mit oro-fazialen Spaltbildungen und solchen ohne Spaltbildungen aufzuzeigen und zu beurteilen. Die Auswahl der Parameter zur Charakterisierung der Kurzzeitvariabilität von F_0 basiert hier auf vorausgegangenen Arbeiten mit ähnlicher Thematik (Lind et al. 2002; Zeipert 2004; Hauschildt 2006). Nachfolgend werden die Parameter kurz dargestellt. Die für diese spezifische Analyse ausgewählten Vokalisationen wurden mithilfe des MDVP-Moduls des CSL 4400 der Firma KAY/Pentax analysiert. Die Definitionen und Beschreibungen der einzelnen Parameter sind dem MDVP-Manual (MDVP 1993) entnommen (siehe Tabelle 6). In Kapitel 2.5.1 und 2.5.2 werden diese Größen detaillierter beschrieben.

Tabelle 6 **Analysierte Parameter (MDVP 1993)**

Parameter	Definition
Gesamtlänge Tsam [s]	Dauer der Einzelvokalisation (expiratorische Lautäußerung)
Mittlere Grundfrequenz F_0 [Hz]	$F_0 = \frac{1}{N} \sum_{i=1}^N F_0^{(i)}$
F_{hi} (höchste in Melodiekontur vorkommende Frequenz) [Hz]	$F_{hi} = \max \{ F_0^{(i)} \}$
F_{lo} (niedrigste in Melodiekontur vorkommende Frequenz) [Hz]	$F_{lo} = \min \{ F_0^{(i)} \}$
Absoluter Jitter [μ s]	$Jita = \frac{1}{N-1} \sum_{i=1}^{N-1} T_o^{(i)} - T_o^{(i+1)} $
Relativer Jitter [%]	$Jitt = \frac{\frac{1}{N-1} \sum_{i=1}^{N-1} T_o^{(i)} - T_o^{(i+1)} }{\frac{1}{N} \sum_{i=1}^N T_o^{(i)}}$
Shimmer [dB]	$Shim = \frac{\frac{1}{N-1} \sum_{i=1}^{N-1} A^{(i)} - A^{(i+1)} }{\frac{1}{N} \sum_{i=1}^N A^{(i)}}$
Pitch Perturbation Quotient [%]	$PPQ = \frac{\frac{1}{N-4} \sum_{i=1}^{N-4} \left \frac{1}{5} \sum_{r=0}^4 T_o^{(i+r)} - T_o^{(i+2)} \right }{\frac{1}{N} \sum_{i=1}^N T_o^{(i)}}$

$T_0^{(i)}$: Einzelperioden $i = 1, 2, \dots, N$, $A^{(i)}$: Einzelperioden $i = 1, 2, \dots, N$

2.5.1 Mittlere Grundfrequenz F_0 [Hz]

Die Grundfrequenz (auch Grundschiwingung oder Grundton) bezeichnet die tiefste, also unterste Frequenz in einem harmonischen Frequenzgemisch. Der Begriff Frequenz ist definiert als die Anzahl von Schwingungen pro Zeit; im Bereich der menschlichen Stimme als Anzahl der Schwingungen der Stimmlippen pro Zeiteinheit. Die Grundfrequenz verändert sich über die Zeit der Einzelvokalisationen. In vorliegender Arbeit wurde die mittlere Grundfrequenz der analysierten Einzelvokalisationen berechnet.

$$F_0 = \frac{1}{N} \sum_{i=1}^N F_0^{(i)}, \text{ wobei } F_0^{(i)} = \frac{1}{T_0^{(i)}} \text{ mit}$$

$T_0^{(i)}$: Einzelperioden $i = 1, 2, \dots, N$

Die **höchste Frequenz F_{hi}** stellt den höchsten gemessenen Wert und die **niedrigste Frequenz F_{lo}** den niedrigsten gemessenen Wert der Grundfrequenz innerhalb der analysierten expiratorischen Lautäußerung dar.

Die **Gesamtlänge T_{sam} [s]** eines analysierten Signals bezeichnet man die expiratorische Länge (Schreilänge) des jeweiligen Signals.

2.5.2 Stabilitätsparameter

Jitter

Mit „Jitter“ bezeichnet man Kurzzeitvariationen der Grundfrequenz und beschreibt Schwankungen der Periodizität der Grundfrequenz innerhalb eines Stimmsignals zwischen aufeinander folgenden Schwingungen der Stimmlippen (Klingholz 1991). Solche sehr kurzzeitigen Periodizitätsschwankungen werden sowohl absolut als auch relativ berechnet. Bei pathologischen Veränderungen der Stimme nimmt das Ausmaß der Kurzzeitvariabilität zu, was sich in einer Erhöhung der gemessenen Werte widerspiegelt (Haji et al. 1986; Orlikoff et al. 1989; Hauschildt 2006). Ähnliches gilt bei Unreife der neuro-physiologischen Kontrollmechanismen der Stimmgebung oder bei mangelnden auditiven Rückkopplungsmechanismen.

Der **absolute Jitter [µs]** beschreibt die mittlere Kurzzeitvariation der Grundfrequenz eines Signals.

$$Jita = \frac{1}{N-1} \sum_{i=1}^{N-1} |T_o^{(i)} - T_o^{(i+1)}| \quad \text{mit}$$

$$T_o^{(i)} : \text{ Einzelperioden} \quad i = 1, 2, \dots, N$$

Der **relative Jitter [%]** drückt die Standardabweichung des Jitters aufeinander folgender Perioden, bezogen auf die Grundfrequenz des jeweiligen Stimmsignals, aus.

$$Jitt = \frac{\frac{1}{N-1} \sum_{i=1}^{N-1} |T_o^{(i)} - T_o^{(i+1)}|}{\frac{1}{N} \sum_{i=1}^N T_o^{(i)}} \quad \text{mit}$$

$$T_o^{(i)} : \text{ Einzelperioden} \quad i = 1, 2, \dots, N$$

Pitch Perturbation Quotient [%]

Dieser Parameter beschreibt kurzzeitliche Veränderungen in der mittleren Grundfrequenz F_0 , gemittelt über eine bestimmte Anzahl (hier fünf) von Schwingungsperioden. Dies senkt die Empfindlichkeit gegenüber „lokalen Ausreißern“ der Grundfrequenz bzw. Frequenzbestimmungsfehlern. Ein geringer PPQ-Wert spricht für eine geringe Variabilität von F_0 ; ein hoher PPQ-Wert hingegen für stärkere Abweichungen (Zeipert 2004; Hauschildt 2006).

$$PPQ = \frac{\frac{1}{N-4} \sum_{i=1}^{N-4} \left| \frac{1}{5} \sum_{r=0}^4 T_o^{(i+r)} - T_o^{(i+2)} \right|}{\frac{1}{N} \sum_{i=1}^N T_o^{(i)}} \quad \text{mit}$$

$$T_o^{(i)} : \text{ Einzelperioden} \quad i = 1, 2, \dots, N$$

Shimmer [dB]

Der Parameter Shimmer wird in dB angegeben und beschreibt die durchschnittliche Differenz zwischen aufeinander folgenden Amplituden eines Signals. Er stellt ein Maß für die Variabilität der Amplitude dar. Eine Amplitude wird angegeben als der mittlere Abstand zwischen zwei Frequenzmaxima (Haji et al. 1986).

$$Shim = \frac{\frac{1}{N-1} \sum_{i=1}^{N-1} |A^{(i)} - A^{(i+1)}|}{\frac{1}{N} \sum_{i=1}^N A^{(i)}} \quad \text{mit}$$

$A^{(i)}$: Einzelperioden $i = 1, 2, \dots, N$

2.6 Deskriptive Statistische Auswertung

Die mit Hilfe der MDVP-Software berechneten objektiven Maßzahlen wurden unter Verwendung von Microsoft Office Excel 2003 automatisch tabellarisch erfasst und anschließend mit der Statistiksoftware „Statistical Package of Social Sciences“ (IBM SPSS Version 20) weiterverarbeitet.

Für jede Gruppe und jede Maßzahl wurden zunächst der Median, der Minimum- und Maximumwert, sowie das erste und das dritte Quartil der Verteilung bestimmt. Verteilungseigenschaften wurden mit Hilfe von Histogrammen charakterisiert. Um die Messdaten der Säuglinge der OFS-Gruppe und die der Kontrollgruppe auf hinreichende Normalverteilung zu prüfen, kam der Shapiro-Wilk-Test zur Anwendung. Im Anschluss daran wurden Q-Q-Plots und Histogramme erstellt. Für die statistische Testung der Gruppenunterschiede (Mittelwertunterschiede) wurde eine One-Way-ANOVA mit anschließender Post-Hoc-Analyse (Tukey) durchgeführt. Darüber hinaus wurde eine Dunnett-Testung vorgenommen, um den Kontrollmittelwert (KG) gegen die anderen Mittelwerte zu testen. Bei signifikantem Test auf Varianzhomogenität, also Ungleichheit der Varianzen, wurde der Welch-F Wert angegeben. Für die statistische Auswertung wurde ein Signifikanzniveau von $p=0,05$ gewählt. Ergibt ein Test eine Irrtumswahrscheinlichkeit von $p<0,05$, so liegt eine signifikante Abweichung vor, bei einem ermittelten p -Wert $<0,01$ handelt es sich um eine

sehr signifikante Abweichung und bei $p < 0,001$ spricht man von einer höchst signifikanten Abweichung (Zöfel 2003). Die Werte aller Berechnungen und die Ergebnisse der statistischen Tests werden im Kapitel 3 (Ergebnisse) detailliert angegeben.

In vorliegender Arbeit ist ein Boxplotdiagramm dahingehend definiert, dass die untere Begrenzung der Box die 25. und die obere Begrenzung der Box die 75. Perzentile darstellt. Dazwischen liegt definitionsgemäß der Interquartilbereich. Der Medianwert wird durch die mittlere Linie dargestellt; die äußeren Markierungen repräsentieren das Maximum- bzw. das Minimum. Ausreißerwerte werden durch einen Kreis dargestellt und sind zwischen 1,5 und drei Boxlängen von den äußeren Begrenzungslinien der Box entfernt. Extremwerte, welche sich mehr als drei Balkenlängen von der oberen oder unteren Begrenzungslinie der Box befinden, werden durch ein Sternchen repräsentiert.

3 Ergebnisse

In der vorliegenden Arbeit wurde die Kurzzeitvariabilität von F_0 in insgesamt 3626 geeigneten, aus über 10.000 Signalen ausgewählten Einzelvokalisationen aus dem zweiten und dritten Lebensmonat analysiert. Produziert wurden diese von 19 Säuglingen mit unterschiedlich stark ausgeprägten isolierten Gaumenspalten bzw. Lippen-Kiefer-Gaumen-Segelspalten, sowie von 24 Säuglingen ohne oro-faziale Spaltbildung.

3.1 Analyse der mittleren Grundfrequenz F_0 [Hz]

Die Verteilungseigenschaften der F_0 -Werte für alle Vokalisationen beider Gruppen (OFS- und Kontrollgruppe) sind in Abbildung 2 und 3 dargestellt. Obwohl beide Verteilungen nicht hinreichend normalverteilt sind, zeigen sie doch ein sehr ausgeglichenes, symmetrisches Muster - ein Fakt, der die geeignete Auswahl der hier analysierten Vokalisationen mittels akribischer Voranalyse unterstreicht. In den dargestellten Histogrammen ist jeweils der Medianwert als vertikale Orientierungslinie eingezeichnet. Die Verteilungen sind sehr ähnlich (Histogramme siehe Abbildung 2 und 3).

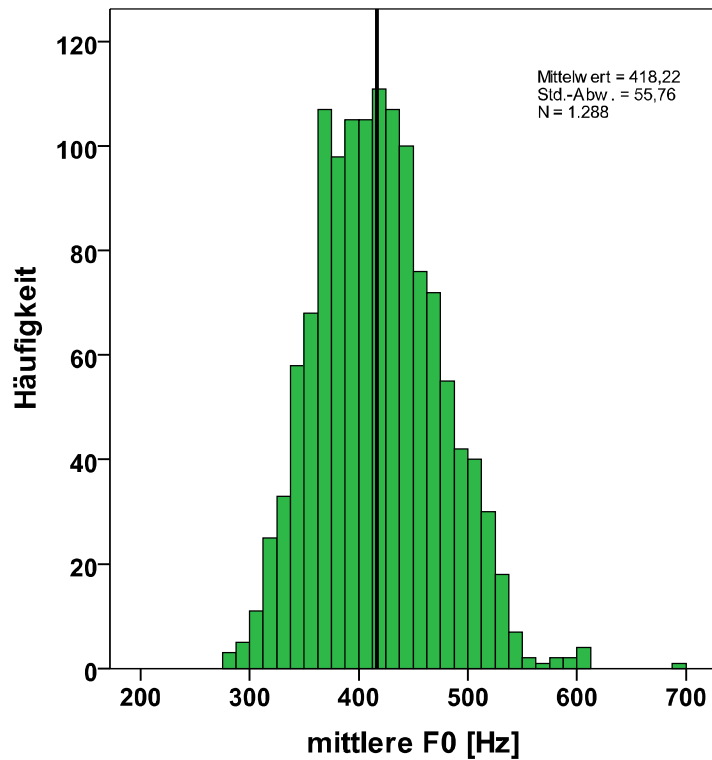


Abbildung 2 Histogramme der mittleren F_0 in allen Vokalisationen der KG

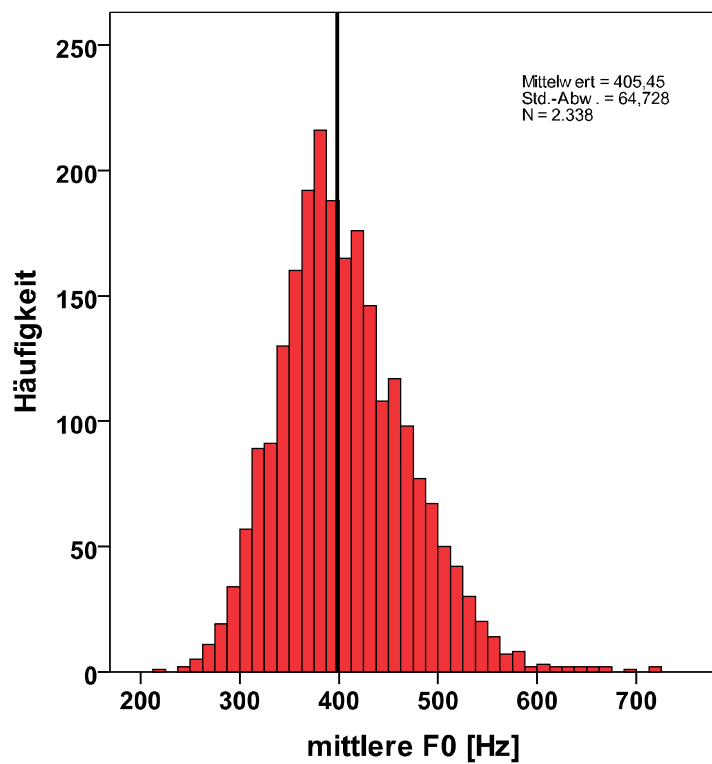


Abbildung 3 Histogramme der mittleren F_0 in allen Vokalisationen der OFS-Gruppe

Die Ergebnisse der Analyse der mittleren Grundfrequenz F_0 über den gesamten Untersuchungszeitraum für die sechs Analysegruppen (siehe Tabelle 5) sind in Tabelle 7 aufgeführt und in Abbildung 4 graphisch dargestellt. Die Ergebnisse der Tests auf Normalverteilung sind ebenfalls aufgeführt.

Tabelle 7 Mittlere Grundfrequenz F_0 aller untersuchten Vokalisationen

Analysegruppe	N	Median [Hz]	25. Perzentile [Hz]	75. Perzentile [Hz]	Minimum [Hz]	Maximum [Hz]	Shapiro-Wilk p-Wert
KG	1288	416,60	376,78	455,32	282,68	695,47	<0,0001
hSh	335	378,91	355,38	499,97	276,25	656,48	<0,0001
HSH	417	382,63	344,81	418,73	224,39	578,35	0,129
linksseitig	862	421,43	376,10	470,01	247,14	723,53	<0,0001
rechtsseitig	593	399,41	352,10	457,99	259,20	620,74	<0,0001
beidseitig	131	409,62	387,93	418,79	287,37	498,86	<0,0001

Für die Medianwerte der HSH-Gruppe (383 Hz) und der hSh-Gruppe (379 Hz) ergaben sich etwas niedrigere Werte als bei den anderen Gruppen (Werte zwischen 399 Hz bis 417 Hz).

Die im Mittel höchste gemessene maximale Grundfrequenz wurde in der Gruppe der linksseitigen Spaltbildungen (724 Hz) und die im Mittel niedrigste minimale F_0 in der HSH-Gruppe (224 Hz) ermittelt.

In Abbildung 4 und 5 sind die Verteilungseigenschaften der Werte im Vergleich zwischen den Gruppen als Boxplot dargestellt.

Der in der Literatur angegebene Referenzbereich der mittleren Grundfrequenz für gesunde Kinder (350-650 Hz) (Lester et al. 1985) liegt im Boxplot (Abb. 4) zwischen den beiden horizontalen Orientierungslinien. Die „Box“, d.h. der Bereich zwischen der 25. und 75. Perzentile liegt bei allen Gruppen innerhalb diesen normalen Bereiches – die leichte Unterschreitung in der HSH-Gruppe ist inhaltlich unbedeutend.

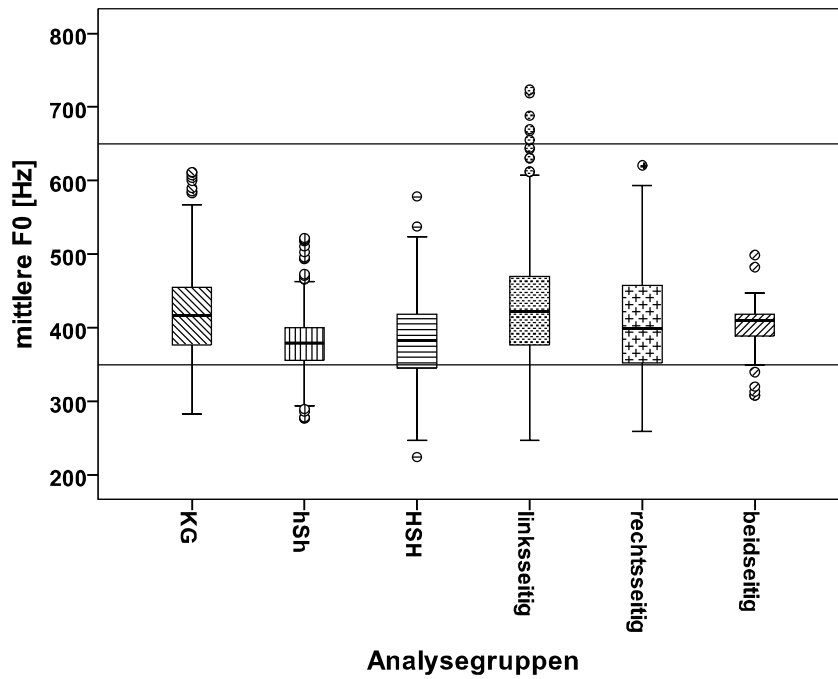


Abbildung 4 Boxplot der mittleren Grundfrequenz F_0 der Vokalisationen der sechs Analysegruppen

Ein Vergleich der mittleren Grundfrequenz in Vokalisationen, die mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte erzeugt wurden, lieferte keinen markanten Einfluss der Plattenkondition (Abb. 5).

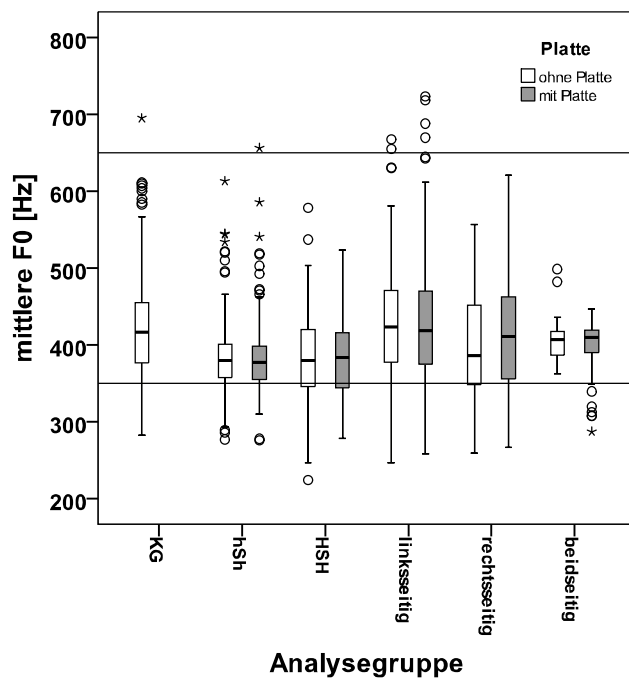


Abbildung 5 Boxplot der mittleren Grundfrequenz F_0 der Vokalisationen der sechs Analysegruppen jeweils mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte

3.2 Analyse des Parameters F_{hi} [Hz]

Die Verteilungseigenschaften der F_{hi} -Werte für alle Vokalisationen beider Gruppen (OFS- und Kontrollgruppe) sind in Abbildung 6 und 7 dargestellt. In den gezeigten Histogrammen ist der Medianwert jeweils als vertikale Orientierungslinie eingezeichnet. Die Verteilung der F_{hi} -Werte ist tendenziell bimodal in beiden Gruppen. Die Verteilungsmuster sind erstaunlich ähnlich (Histogramme siehe Abbildung 6 und 7).

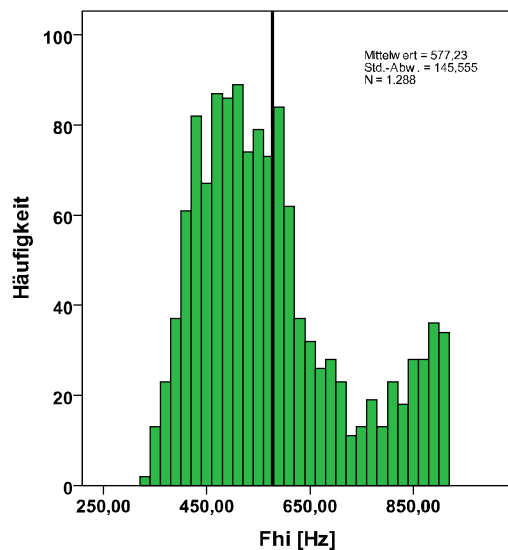


Abbildung 6 Histogramme der höchsten gemessenen Grundfrequenz F_{hi} in allen Vokalisationen für die KG

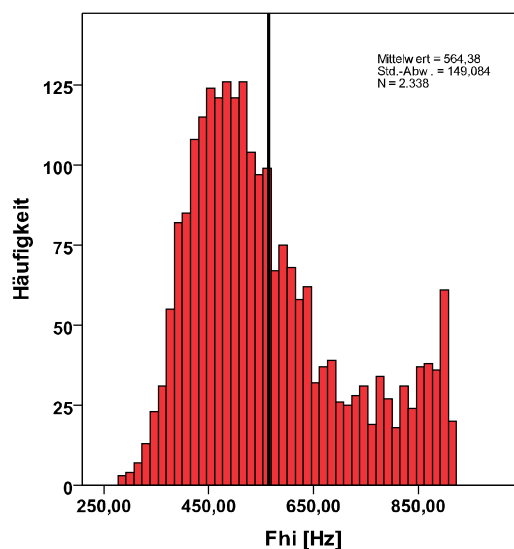


Abbildung 7 Histogramme der höchsten gemessenen Grundfrequenz F_{hi} in allen Vokalisationen für die OFS-Gruppe

Die Ergebnisse der Analyse der maximalen Werte der Grundfrequenz F_{hi} über den gesamten Untersuchungszeitraum für die sechs Analysegruppen sind in Tabelle 8 aufgeführt und in Abbildung 8 grafisch dargestellt. Die Ergebnisse der Tests auf Normalverteilung sind ebenfalls aufgeführt.

Tabelle 8 Größter gemessener Wert der Grundfrequenz F_{hi} aller untersuchten Vokalisationen

Analysegruppe	N	Median [Hz]	25. Perzentile [Hz]	75. Perzentile [Hz]	Minimum [Hz]	Maximum [Hz]	Shapiro-Wilk p-Wert
KG	1288	545,22	470,22	646,27	330,20	918,40	<0,0001
hSh	335	480,11	432,43	602,91	342,55	909,54	<0,0001
HSH	417	500,11	427,28	597,93	246,01	904,16	<0,0001
linksseitig	862	544,53	479,07	659,73	281,62	918,38	<0,0001
rechtsseitig	593	546,98	451,86	694,06	284,75	917,72	<0,0001
beidseitig	131	514,48	477,59	601,54	389,67	888,60	<0,0001

In Abbildung 8 sind die Verteilungseigenschaften der Werte im Vergleich zwischen den Gruppen als Boxplot dargestellt.

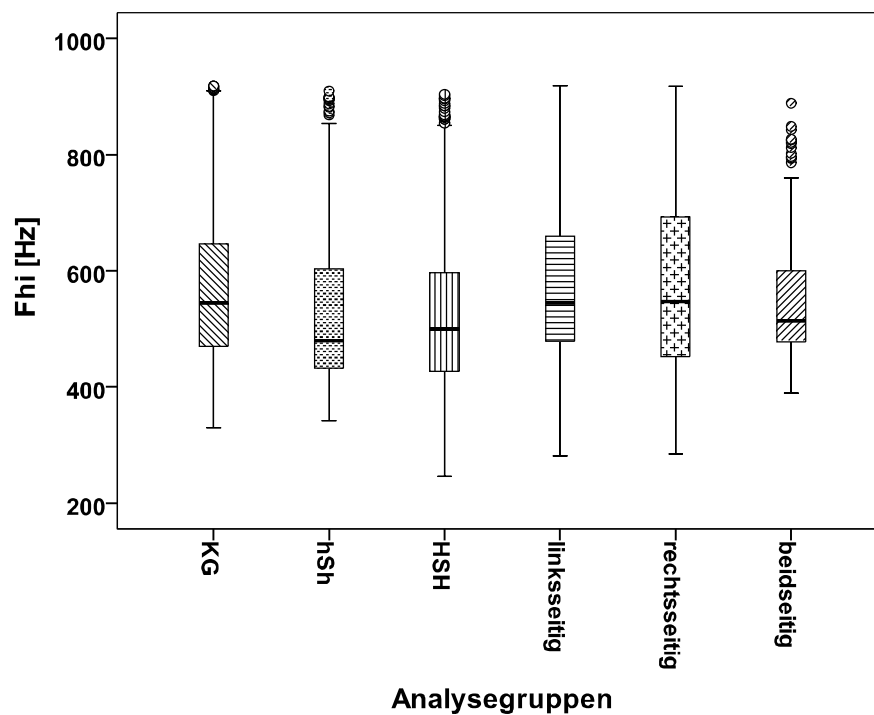


Abbildung 8 Boxplot der F_{hi} - Werte der Vokalisationen der sechs Analysegruppen

Wie schon die Analyse der mittleren Grundfrequenz (siehe Kapitel 3.1), liefert auch die Analyse der höchsten gemessenen Werte der Grundfrequenz keine inhaltlich bedeutsamen Unterschiede zwischen den Gruppen.

3.3 Analyse des Parameters F_{lo} [Hz]

Die Verteilungseigenschaften der F_{lo} -Werte aller Vokalisationen beider Gruppen (OFS- und Kontrollgruppe) sind in Abbildung 9 und 10 dargestellt. In den gezeigten Histogrammen ist der Medianwert jeweils als vertikale Orientierungslinie eingezeichnet. Die Verteilungsmuster der F_{lo} -Werte sind in beiden Gruppen relativ ähnlich, wobei in der KG eine leichte Bimodalität der Verteilung erkennbar ist (Histogramme siehe Abbildung 9 und 10).

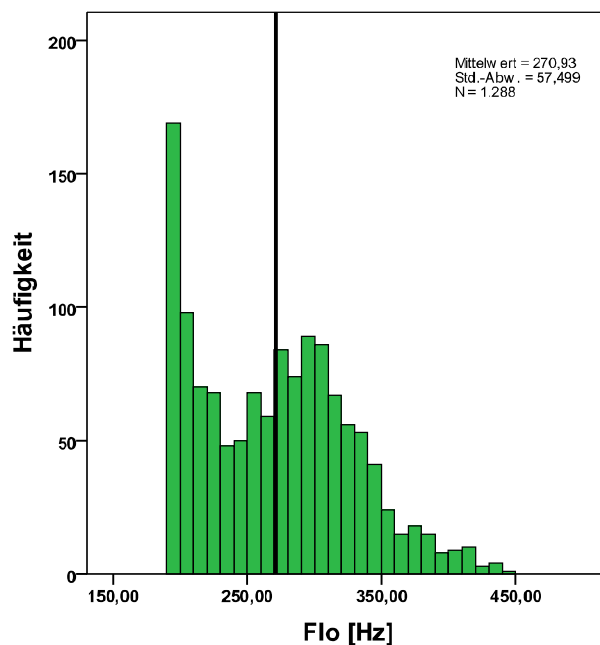


Abbildung 9 Histogramme der kleinsten gemessenen Werte der Grundfrequenz F_{lo} in allen Vokalisationen für die KG

Die Ergebnisse der Analyse der kleinsten gemessenen Werte der Grundfrequenz F_{lo} über den gesamten Untersuchungszeitraum für die sechs Analysegruppen sind in Tabelle 9 aufgeführt und in Abbildung 11 grafisch dargestellt. Die Ergebnisse der Tests auf Normalverteilung sind ebenfalls aufgeführt.

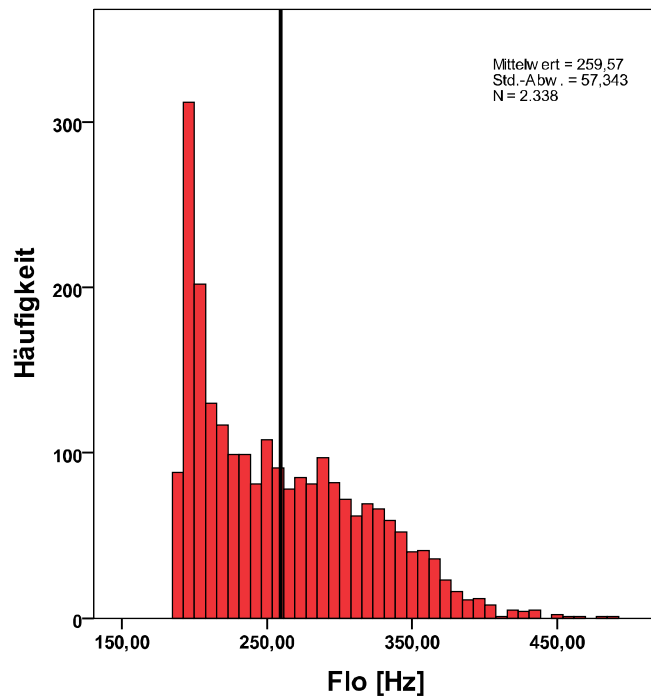


Abbildung 10 Histogramme der kleinsten gemessenen Werte der Grundfrequenz F_{lo} in allen Vokalisationen für die OFS-Gruppe

Tabelle 9 Kleinster gemessener Wert der Grundfrequenz F_{lo} aller untersuchten Vokalisationen

Analysegruppe	N	Median [Hz]	25. Perzentile [Hz]	75. Perzentile [Hz]	Minimum [Hz]	Maximum [Hz]	Shapiro-Wilk p-Wert
KG	1288	271,40	271,84	310,30	190,57	515,14	<0,0001
hSh	335	245,35	203,26	297,15	191,00	456,01	<0,0001
HSH	417	226,89	201,05	274,26	190,88	405,96	<0,0001
linksseitig	862	268,27	213,33	317,53	190,63	485,99	<0,0001
rechtsseitig	593	254,71	212,09	303,48	191,02	438,20	<0,0001
beidseitig	131	241,69	195,49	251,15	190,53	343,48	<0,0001

In Abbildung 11 sind die Verteilungseigenschaften der Werte im Vergleich zwischen den Gruppen als Boxplot dargestellt.

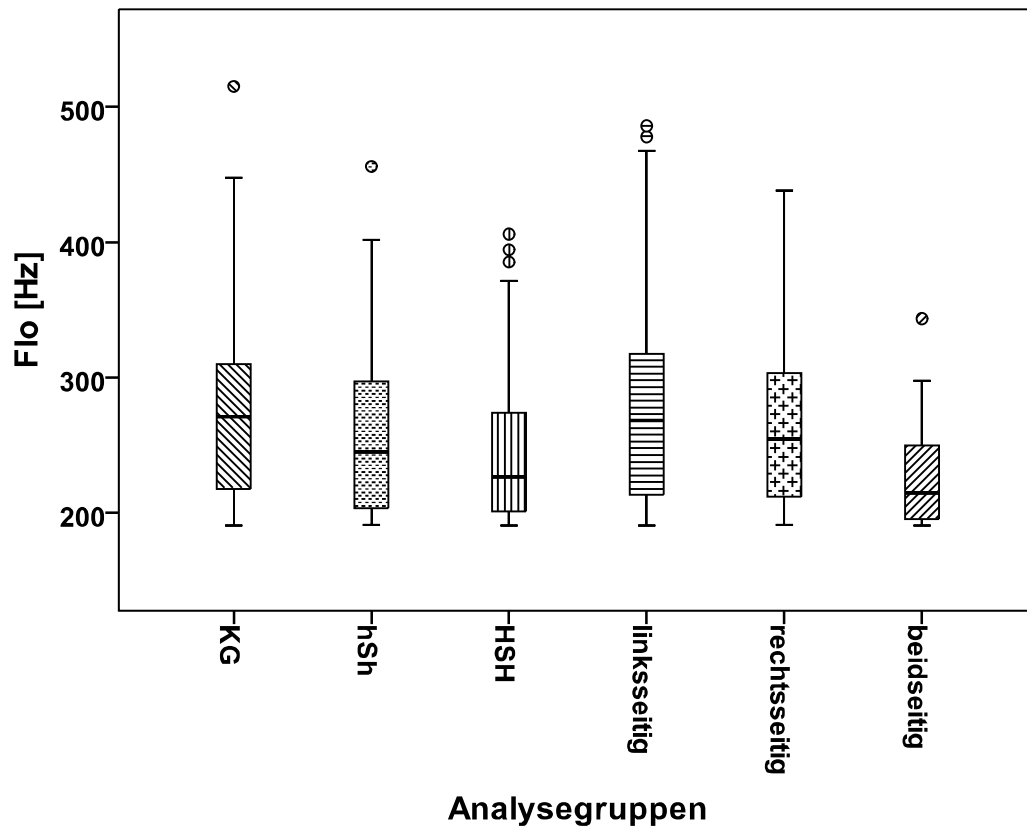


Abbildung 11 Boxplot der F_{1o} - Werte der Vokalisationen der sechs Analysegruppen

3.4 Analyse der Gesamtlänge Tsam [s]

Die Vokalisationslänge wurde als Co-Faktor mit in die Analyse einbezogen, um den eventuellen Einfluss der Phonationsdauer auf die Stimmstabilität zu berücksichtigen.

Die Verteilungseigenschaften der Gesamtlänge Tsam für alle Vokalisationen beider Gruppen (OFS- und Kontrollgruppe) sind in Abbildung 12 und 13 dargestellt. Die Verteilungen in beiden Gruppen sind sehr ähnlich, bzw. nahezu identisch, so dass etwaige Unterschiede in den Stimmstabilitätsparametern nicht auf unterschiedliche Vokalisationslängen zurückzuführen sind. In den dargestellten Histogrammen ist jeweils der Medianwert als vertikale Orientierungslinie eingezeichnet (Histogramme siehe Abbildung 12 und 13).

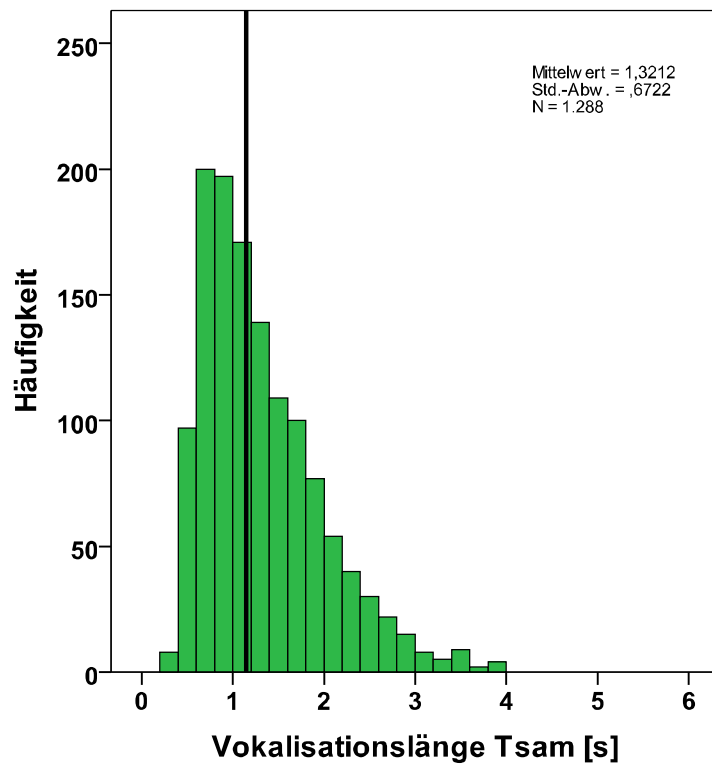


Abbildung 12 Histogramm der Gesamtlänge Tsam in allen Vokalisierungen für die KG

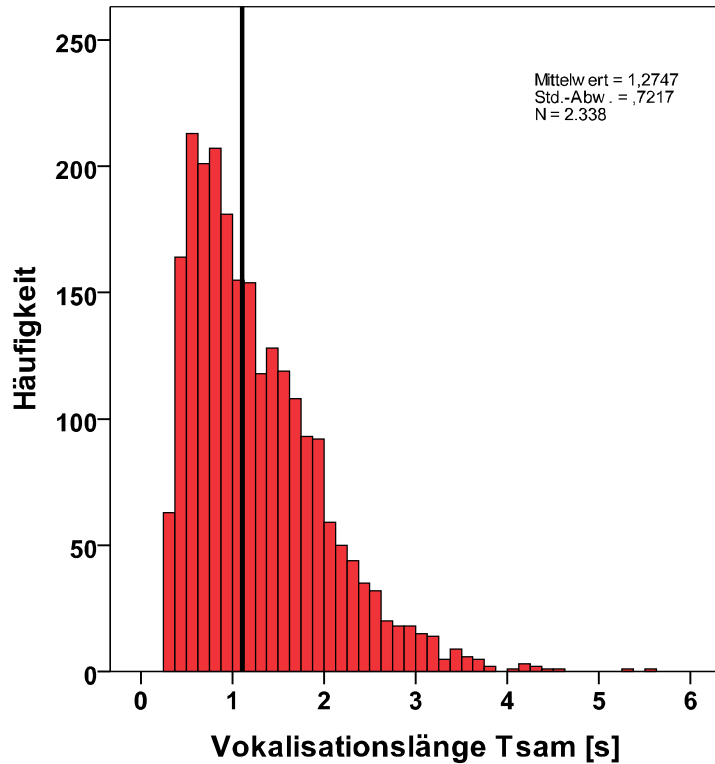


Abbildung 13 Histogramm der Gesamtlänge Tsam in allen Vokalisierungen für die OFS-Gruppe

Um sicherzustellen, dass die Vokalisationslänge auch bei Berücksichtigung der Plattenkondition keinen maskierenden Einfluss auf die Messgrößen der Stimmstabilität haben, wurden die Verteilungseigenschaften der Vokalisationslängen auch bezüglich dieses Faktors untersucht, aufgrund der im Histogramm erkennbaren Verteilungseigenschaften wurde eine log-Normierung vorgenommen (Abbildung 14).

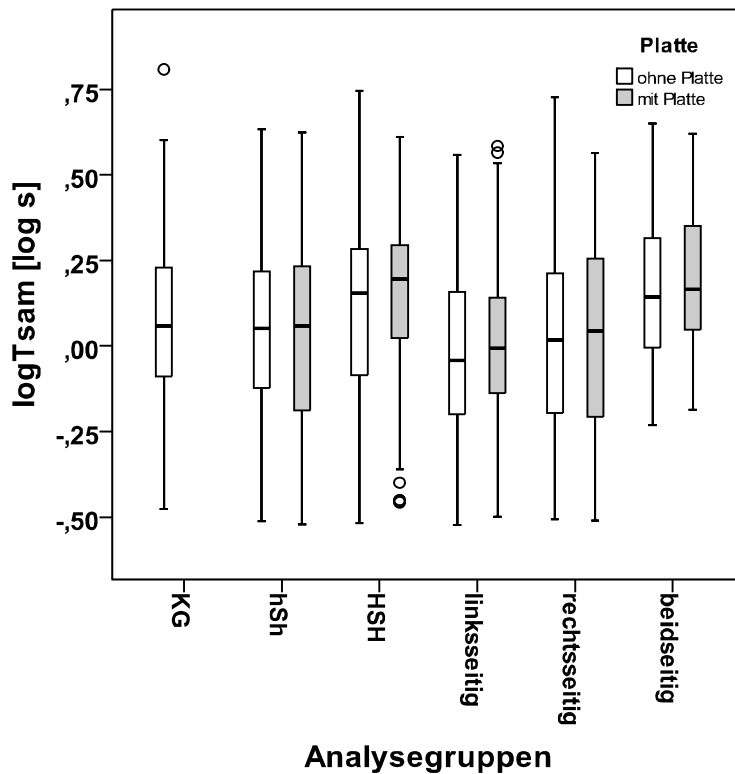


Abbildung 14 Boxplot der Gesamtlänge Tsam der Vokalisierungen der sechs Analysegruppen jeweils mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte

3.5 Analyse des Parameters Jita [μs]

Die Verteilungseigenschaften der Jita-Werte für alle Vokalisierungen der sechs Analysegruppen sind in Abbildung 15 als Histogramme dargestellt.

Die Verteilungsmuster in allen sechs Analysegruppen sind relativ ähnlich; einzig die Verteilung in der Gruppe der beidseitigen Spaltbildungen unterscheidet sich im Verteilungsmuster von den anderen Gruppen. Wie bereits in Kapitel 2.1 dargestellt, beinhaltet die Gruppe der beidseitigen Spaltbildungen nur einen Probanden, was die Vergleichbarkeit der ermittelten Werte in dieser Gruppe mit

denen der anderen Analysegruppen einschränkt.

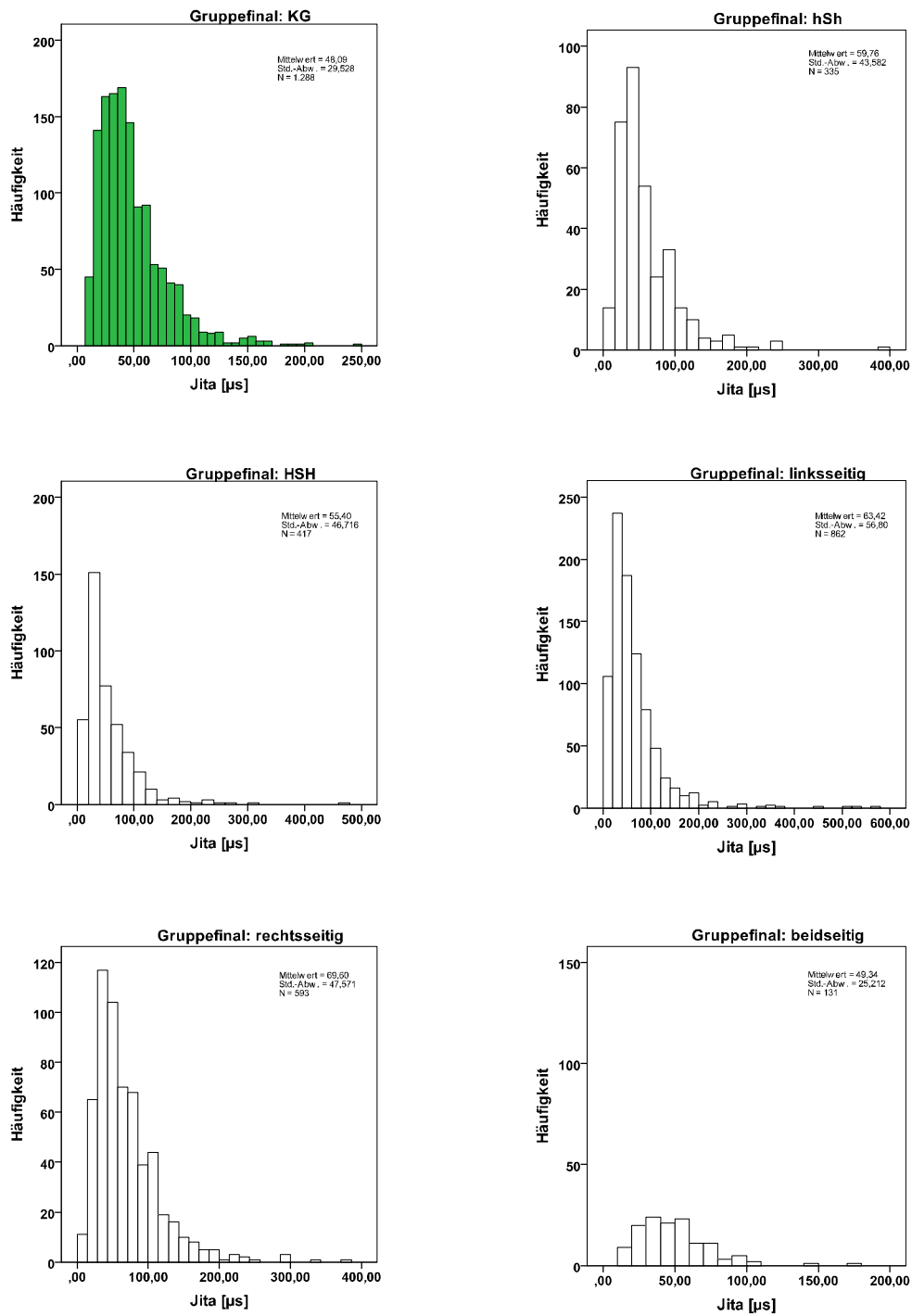


Abbildung 15 Histogramme der Jita-Werte in allen Vokalisationen der sechs Analysegruppen

Die Ergebnisse der Analyse von Jita [μs] über den gesamten Untersuchungszeitraum für die sechs Analysegruppen sind in Tabelle 10 aufgeführt und in Abbildung 16 und 17 graphisch dargestellt. Die Ergebnisse der Tests auf Normalverteilung sind ebenfalls aufgeführt.

Tabelle 10 Jita aller untersuchten Vokalisationen

Analysegruppe	N	Median [μs]	25. Perzentile [μs]	75. Perzentile [μs]	Minimum [μs]	Maximum [μs]	Shapiro-Wilk p-Wert
KG	1288	41,29	27,27	61,56	7,59	245,05	<0,0001
hSh	335	46,68	32,63	73,24	11,83	397,50	<0,0001
HSH	417	40,27	25,65	69,24	9,92	470,55	<0,0001
linksseitig	862	49,23	30,17	78,55	5,81	560,97	<0,0001
rechtsseitig	593	57,06	37,40	89,02	9,83	376,91	<0,0001
beidseitig	131	44,51	31,92	60,92	12,15	171,44	<0,0001

Beim Betrachten der Medianwerte fällt auf, dass die KG und die HSH-Gruppe niedrigere Werte aufweisen, als die restlichen Gruppen. Die höchsten Medianwerte sind in der Gruppe der rechtsseitigen Spaltbildungen zu finden.

Die ANOVA-Analyse lieferte signifikante Gruppenunterschiede (Welch-Test: $p < 0,0001$). Die Post-Hoc-Tests nach Tukey lieferten die folgenden Ergebnisse der Mehrfachvergleiche:

Die Kontrollgruppe unterscheidet sich signifikant von allen anderen Gruppen mit Ausnahme der hSh- und der „beidseitigen“-Gruppe:

hSh $p = 0,492$; HSH $p < 0,0001$; linksseitig $p < 0,0001$; rechtsseitig $p < 0,0001$, beidseitig $p = 0,820$.

Der Dunnett-T-Test lieferte identische Ergebnisse (signifikante Unterschiede zwischen der KG und den Gruppen HSH, linksseitig und rechtsseitig).

In Abbildung 16 und 17 sind die Verteilungseigenschaften der Werte im Vergleich zwischen den Gruppen als Boxplot log-normiert dargestellt.

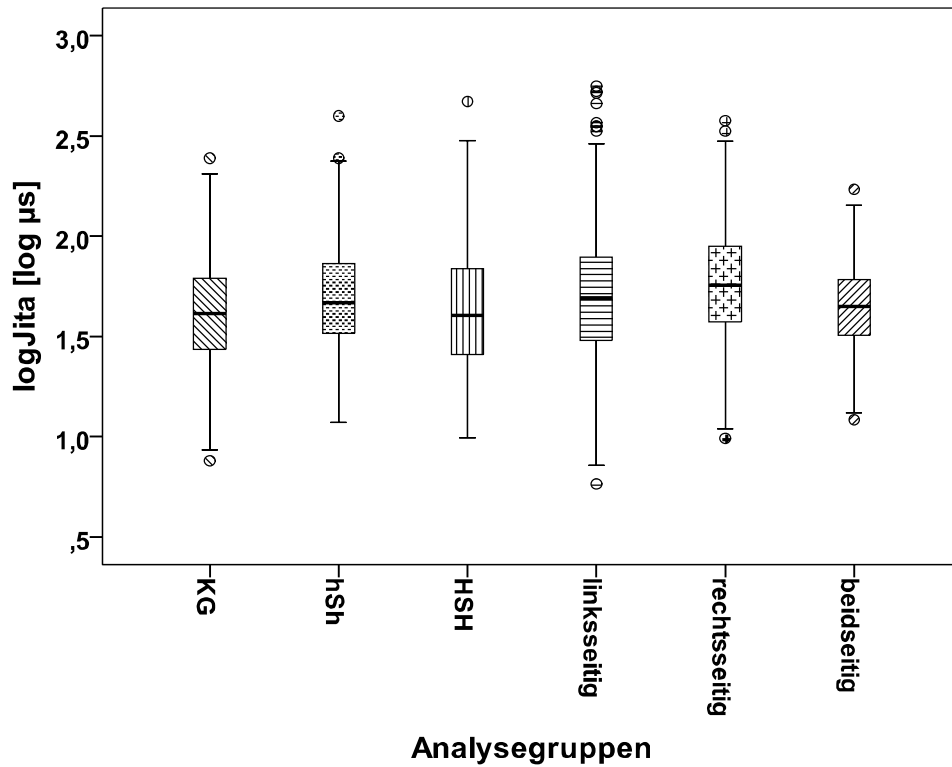


Abbildung 16 Boxplot der Jita-Werte aller Vokalisationen der sechs Analysegruppen

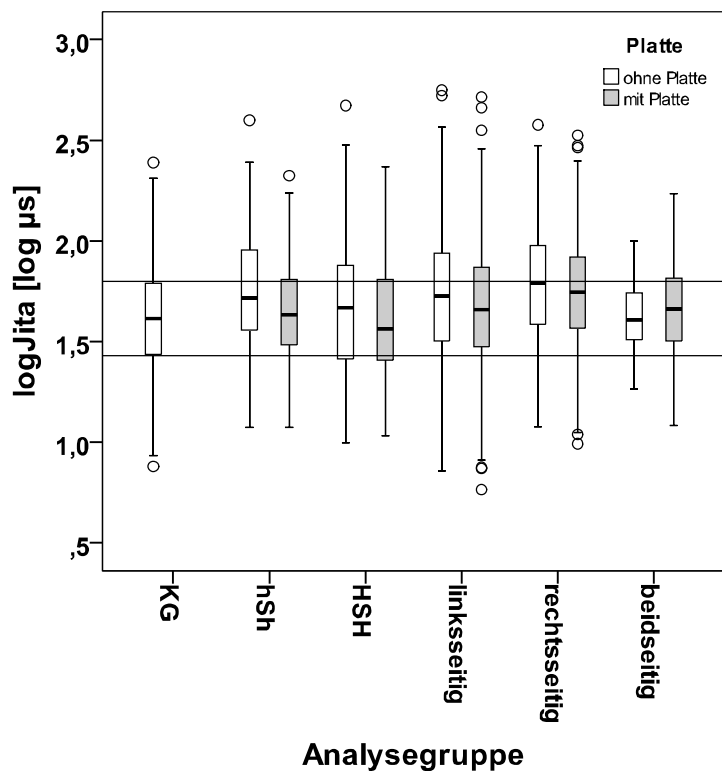


Abbildung 17 Boxplot der Jita-Werte der Vokalisationen der sechs Analysegruppen jeweils mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte

3.6 Analyse des Parameters Jitt [%]

Die Verteilungseigenschaften der Jitt-Werte für alle Vokalisationen der sechs Analysegruppen sind in Abbildung 18 als Histogramme dargestellt.

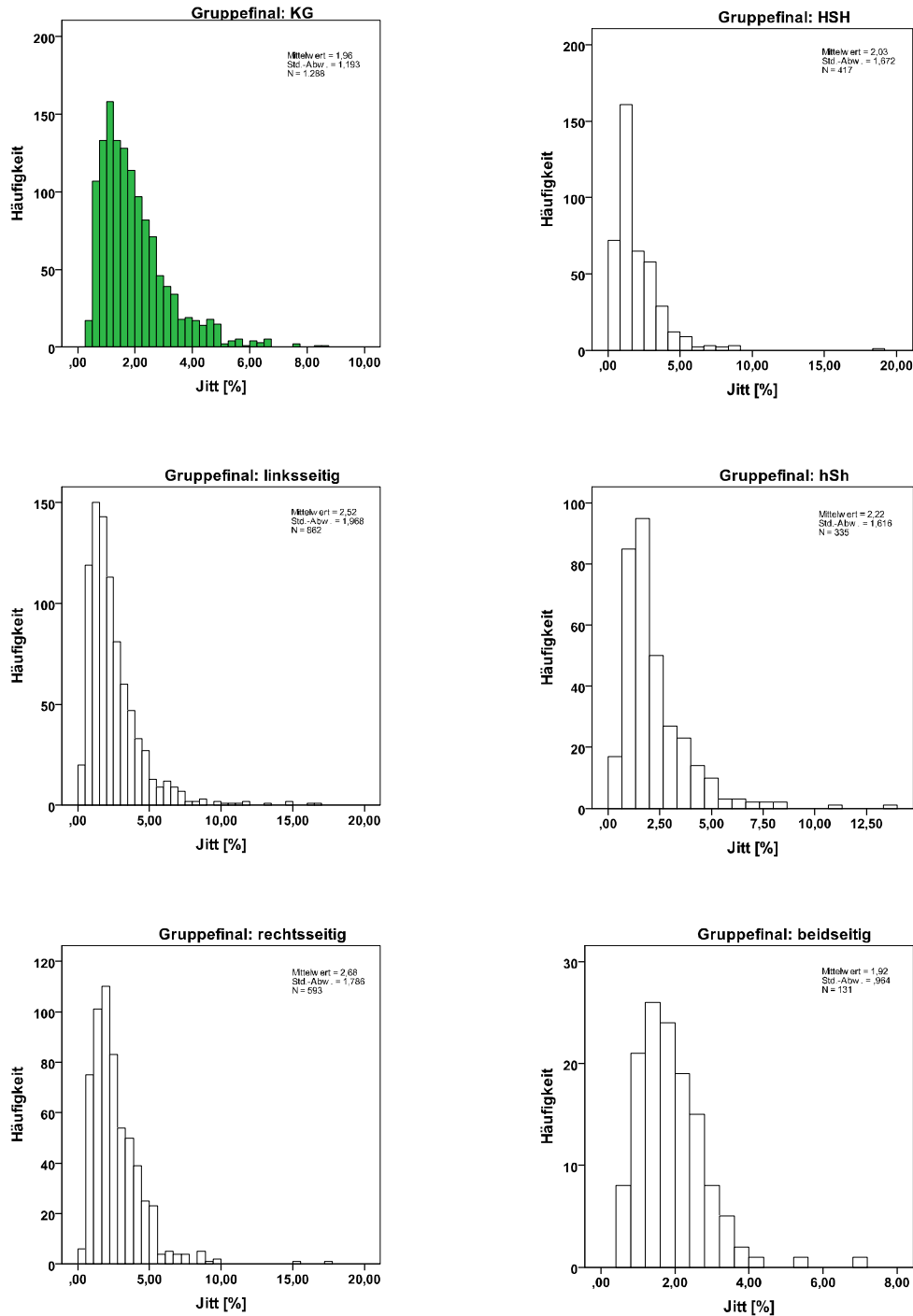


Abbildung 18 Histogramme der Jitt-Werte in allen Vokalisationen der sechs Analysegruppen

Die Ergebnisse der Analyse von Jitt über den gesamten Untersuchungszeitraum für die sechs Analysegruppen sind in Tabelle 11 aufgeführt und in Abbildung 19 und 20 grafisch dargestellt. Die Ergebnisse der Tests auf Normalverteilung sind ebenfalls aufgeführt.

Tabelle 11 Jitt aller untersuchten Vokalisationen

Analysegruppe	N	Median [%]	25. Perzentile [%]	75. Perzentile [%]	Minimum [%]	Maximum [%]	Shapiro-Wilk p-Wert
KG	1288	1,69	1,09	2,49	0,32	8,55	<0,0001
hSh	335	1,78	1,22	2,78	0,44	13,98	<0,0001
HSH	417	1,43	0,95	2,65	0,43	18,48	<0,0001
linksseitig	862	1,99	1,25	3,19	0,32	16,83	<0,0001
rechtsseitig	593	2,25	1,44	3,43	0,45	17,35	<0,0001
beidseitig	131	1,76	1,24	2,42	0,47	7,09	<0,0001

Die in den Gruppen der links- und rechtsseitig ausgeprägten oro-fazialen Spaltbildungen ermittelten Medianwerte sind im Vergleich zu den Werten der anderen Gruppen leicht erhöht.

Bei den Maximalwerten konnte der größte Wert in der HSH-Gruppe (18,5 %) und der niedrigste in der Gruppe der beidseitigen Spaltbildungen (7,1 %) ermittelt werden.

Die ANOVA-Analyse lieferte signifikante Gruppenunterschiede (Welch-Test: $p < 0,0001$). Die Post-Hoc-Tests nach Tukey lieferten folgende Ergebnisse der Mehrfachvergleiche:

Die Kontrollgruppe unterscheidet sich signifikant von der HSH- und von der Gruppe der rechtsseitigen Spaltbildungen:

hSh $p = 0,951$; HSH $p < 0,0001$; linksseitig $p = 0,137$; rechtsseitig $p < 0,0001$; beidseitig $p = 0,992$.

Der Dunnett-T-Test lieferte identische Ergebnisse (signifikante Unterschiede zwischen der KG und den Gruppen HSH und rechtsseitig).

In Abbildung 19 und 20 sind die Verteilungseigenschaften der Werte im Vergleich zwischen den Gruppen als Boxplot log-normiert dargestellt.

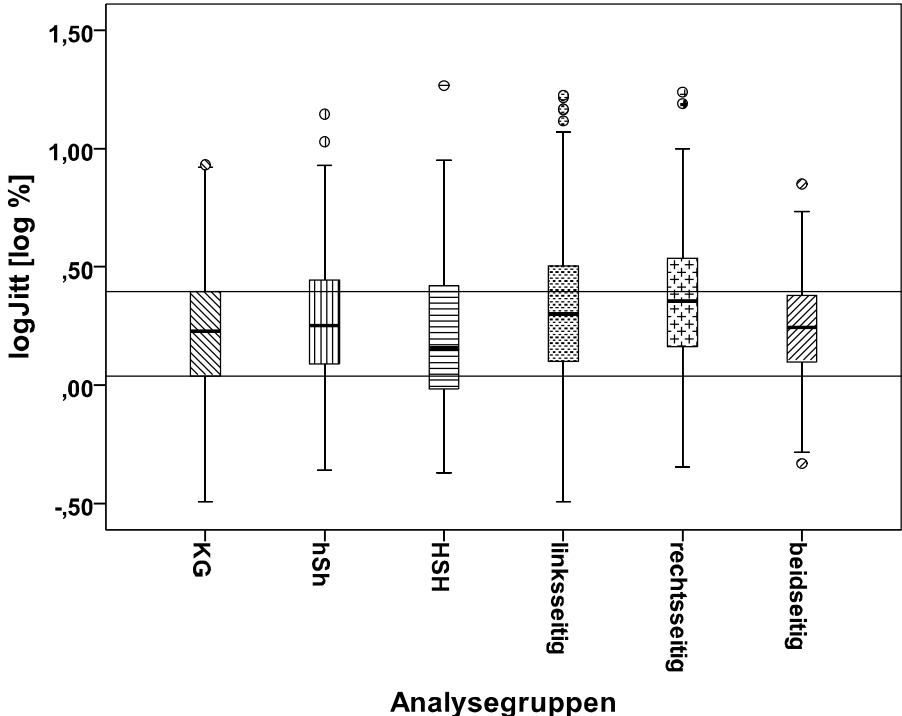


Abbildung 19 Boxplot der Jitt Werte aller Vokalisationen der sechs Analysegruppen

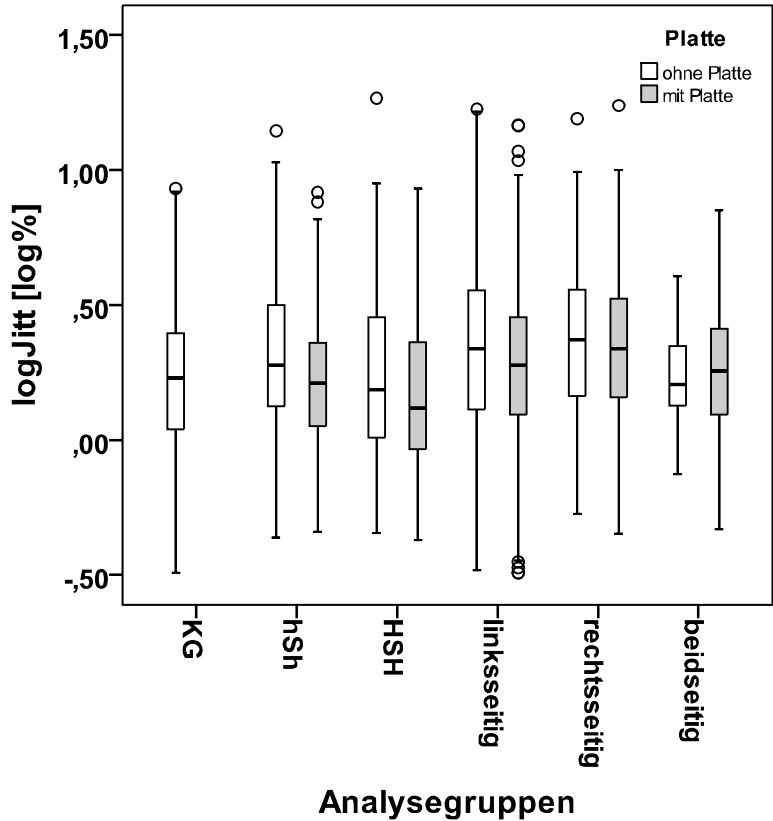


Abbildung 20 Boxplot der Jitt-Werte der Vokalisationen der sechs Analysegruppen jeweils mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte

3.7 Analyse des Parameters Shimmer (Shim) [dB]

Die Verteilungseigenschaften der Shim-Werte für alle Vokalisationen der sechs Analysegruppen sind in Abbildung 21 als Histogramme dargestellt.

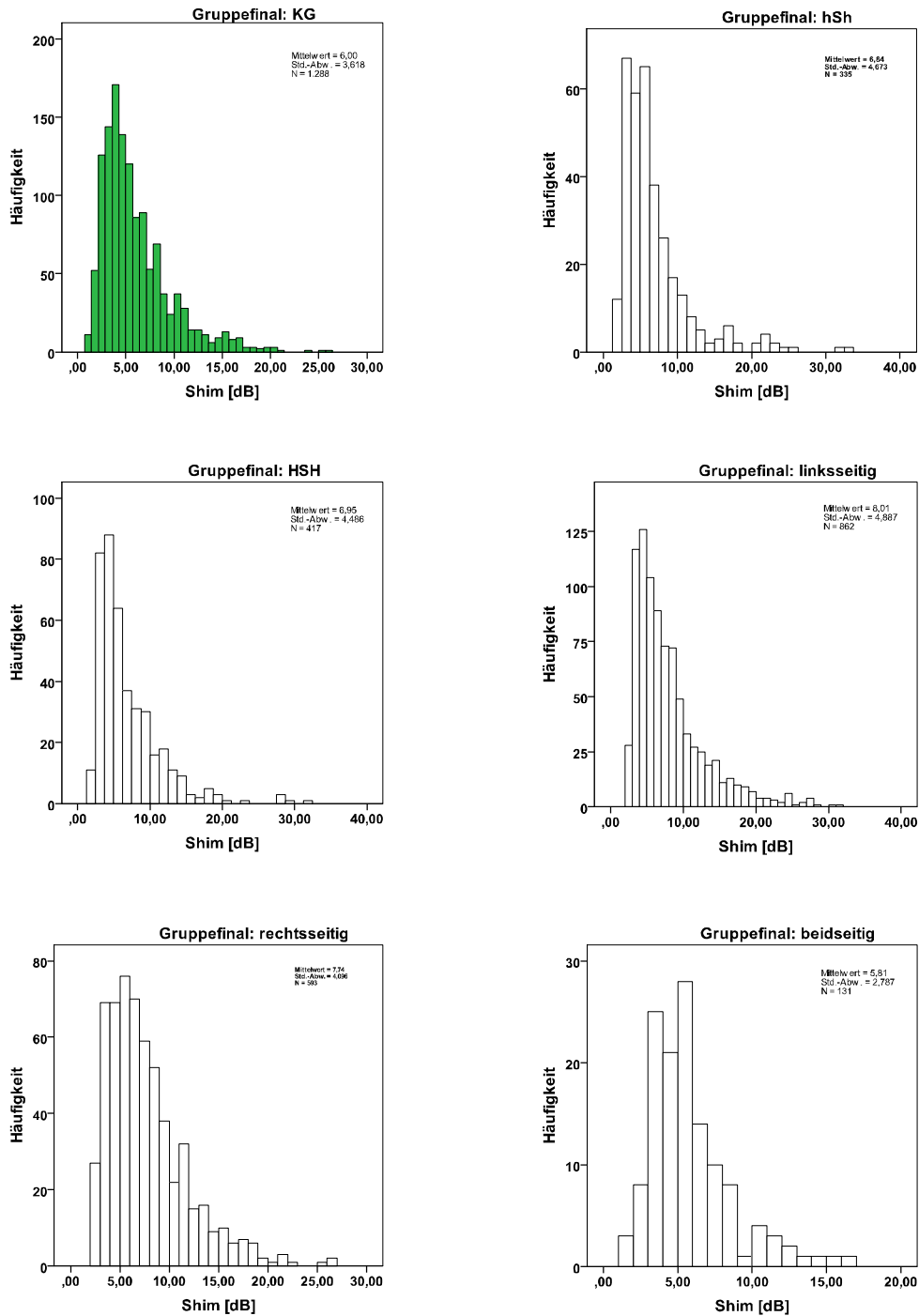


Abbildung 21 Histogramme der Shim-Werte in allen Vokalisationen der sechs Analysegruppen

Die Ergebnisse der Analyse von Shim über den gesamten Untersuchungszeitraum für die sechs Analysegruppen sind in Tabelle 12 aufgeführt und in Abbildung 22 und 23 grafisch dargestellt. Die Ergebnisse der Tests auf Normalverteilung sind ebenfalls aufgeführt.

Tabelle 12 Shimmer aller untersuchten Vokalisationen

Analysegruppe	N	Median [dB]	25. Perzentile [dB]	75. Perzentile [dB]	Minimum [dB]	Maximum [dB]	Shapiro-Wilk p-Wert
KG	1288	5,01	3,53	7,48	0,73	25,86	<0,0001
hSh	335	5,50	3,92	7,98	1,50	32,69	<0,0001
HSH	417	5,47	3,90	8,77	2,18	31,46	<0,0001
linksseitig	862	6,59	4,52	9,68	2,05	31,80	<0,0001
rechtsseitig	593	6,75	4,84	9,65	2,07	26,84	<0,0001
beidseitig	131	5,15	3,85	6,91	1,41	16,60	<0,0001

Der niedrigste Median- (5 dB) und Minimalwert (0,7 dB) wurde für die Gruppe der Säuglinge ohne oro-faziale Spaltbildung (KG) ermittelt.

Im Bereich des Maximalwertes liegt der höchste gemessene Wert in der hSh-Gruppe (33 dB).

Die ANOVA- Analyse lieferte signifikante Gruppenunterschiede (Welch-Test: $p < 0,0001$). Die Post-Hoc-Tests nach Tukey lieferten die folgenden Ergebnisse der Mehrfachvergleiche:

Die Kontrollgruppe unterscheidet sich signifikant von allen anderen Gruppen mit Ausnahme der „beidseitigen“ Gruppe:

hSh $p < 0,0001$; HSH $p < 0,0001$; linksseitig $p = 0,003$; rechtsseitig $p < 0,0001$; beidseitig $p = 0,997$.

Der Dunnett-T-Test lieferte identische Ergebnisse (signifikante Unterschiede zwischen der KG und den Gruppen hsh, HSH und rechtsseitig).

In Abbildung 22 und 23 sind die Verteilungseigenschaften der Werte im Vergleich zwischen den Gruppen als Boxplot log-normiert dargestellt.

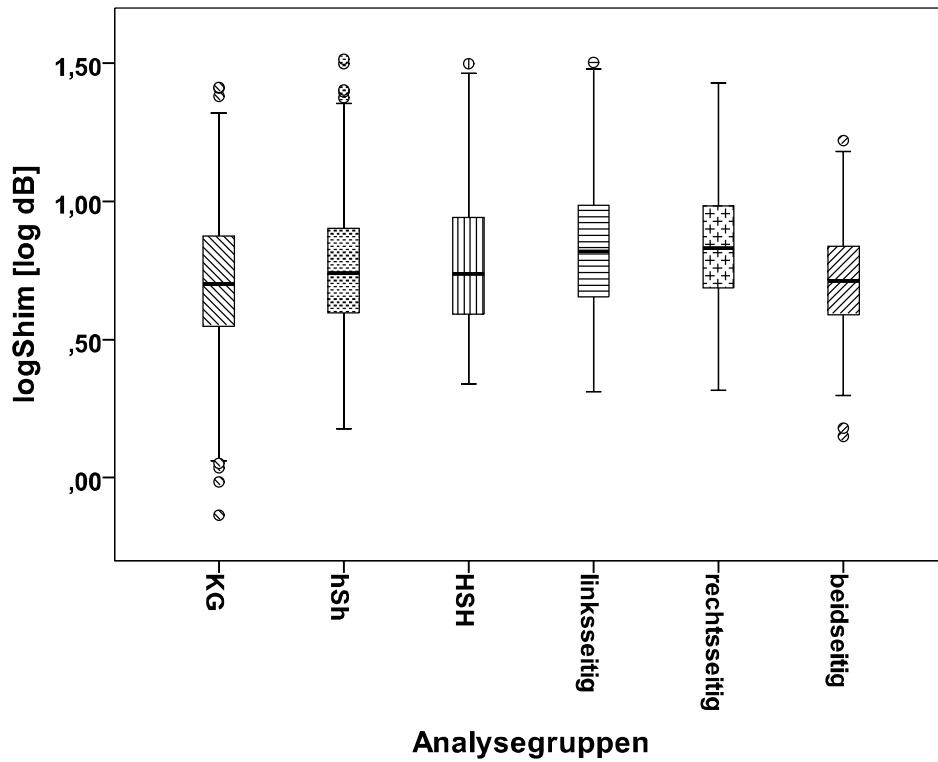


Abbildung 22 Boxplot der Shimmer Werte aller Vokalisationen der sechs Analysegruppen

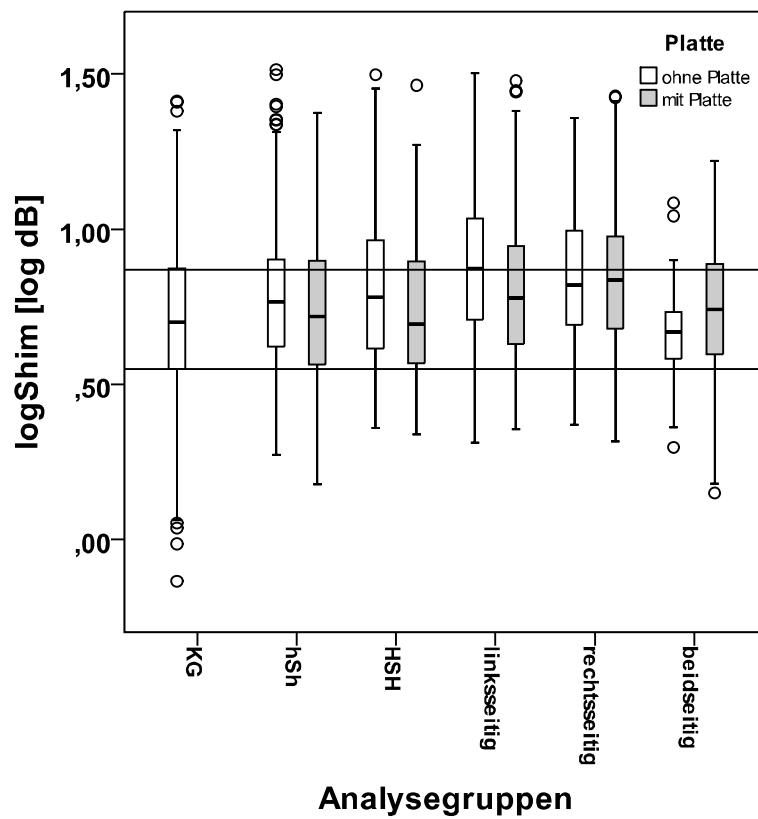


Abbildung 23 Boxplot der Shim-Werte der Vokalisationen der sechs Analysegruppen jeweils mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte.

3.8 Analyse des Pitch Perturbation Quotient (PPQ) [%]

Die Verteilungseigenschaften der PPQ-Werte für alle Vokalisationen der sechs Analysegruppen sind in Abbildung 24 als Histogramme dargestellt.

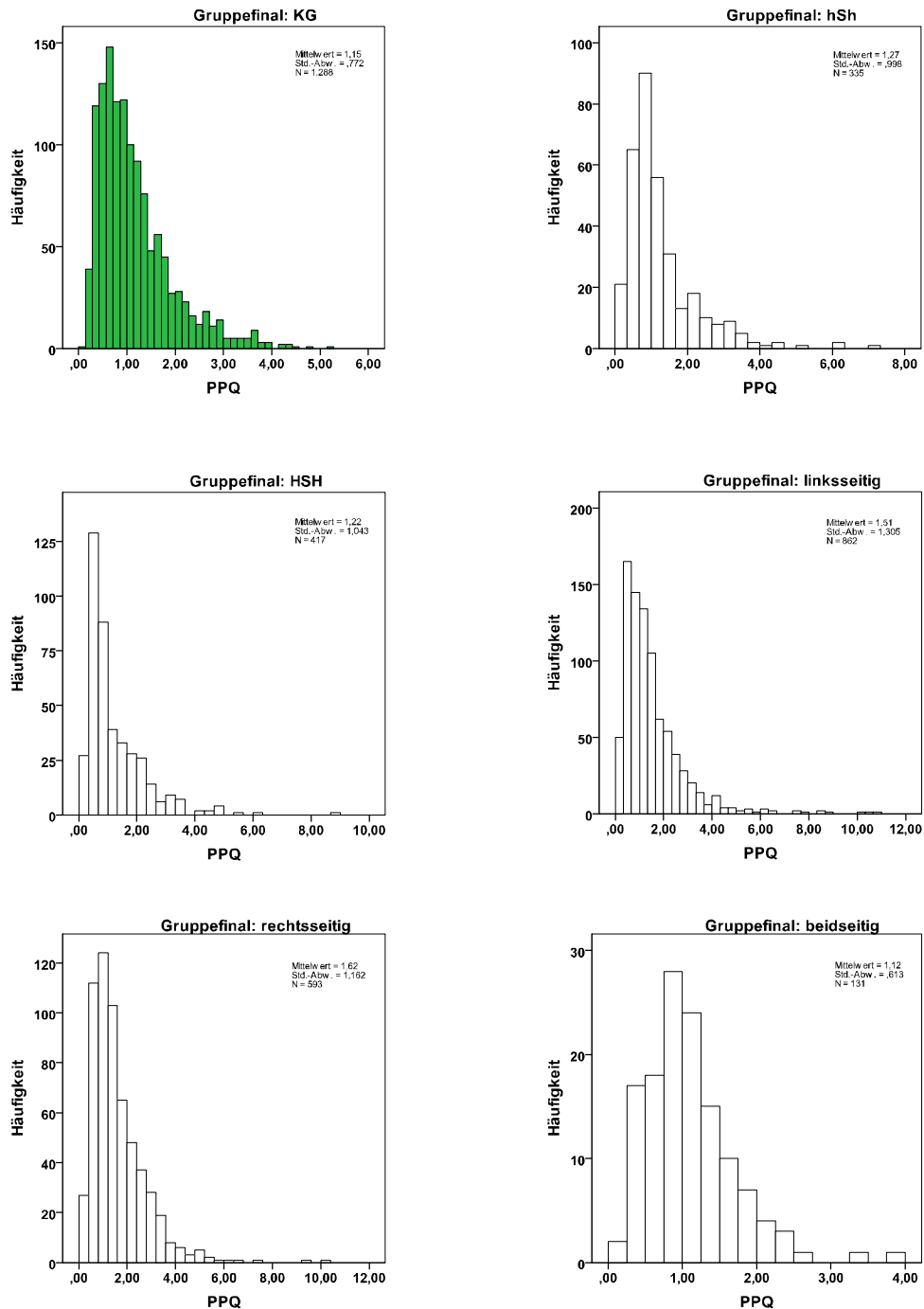


Abbildung 24 Histogramme der PPQ-Werte in allen Vokalisationen der sechs Analysegruppen

Die Ergebnisse der Analyse von PPQ über den gesamten Untersuchungszeitraum für die sechs Analysegruppen sind in Tabelle 13 aufgeführt und in Abbildung 25 und 26 grafisch dargestellt. Die Ergebnisse der Tests auf Normalverteilung sind ebenfalls aufgeführt.

Tabelle 13 PPQ aller untersuchten Vokalisationen

Analysegruppe	N	Median [%]	25. Perzentile [%]	75. Perzentile [%]	Minimum [%]	Maximum [%]	Shapiro-Wilk p-Wert
KG	1288	0,95	0,60	1,49	0,14	5,27	<0,0001
hSh	335	0,94	0,65	1,53	0,16	7,29	<0,0001
HSH	417	0,81	0,51	1,62	0,19	9,00	<0,0001
linksseitig	862	1,17	0,66	1,91	0,13	10,58	<0,0001
rechtsseitig	593	1,32	0,82	2,10	0,20	10,27	<0,0001
beidseitig	131	1,00	0,70	1,39	0,22	3,91	<0,0001

Betrachtet man die gemessenen Maximalwerte, so fallen - im Vergleich zu den anderen Gruppen - höhere Werte in den Gruppen der einseitigen Spaltbildungen auf.

Die ANOVA- Analyse lieferte signifikante Gruppenunterschiede (Welch-Test: $p < 0,0001$). Die Post-Hoc-Tests nach Tukey lieferten die folgenden Ergebnisse der Mehrfachvergleiche:

Die Kontrollgruppe unterscheidet sich signifikant von der HSH- und der „rechtsseitigen“ Gruppe:

hSh $p = 0,890$; HSH $p < 0,0001$; linksseitig $p = 0,411$; rechtsseitig $p < 0,0001$; beidseitig $p = 0,999$.

Der Dunnett-T-Test lieferte identische Ergebnisse (signifikante Unterschiede zwischen der KG und den Gruppen HSH und rechtsseitig).

In Abbildung 25 und 26 sind die Verteilungseigenschaften der Werte im Vergleich zwischen den Gruppen als Boxplot log-normiert dargestellt.

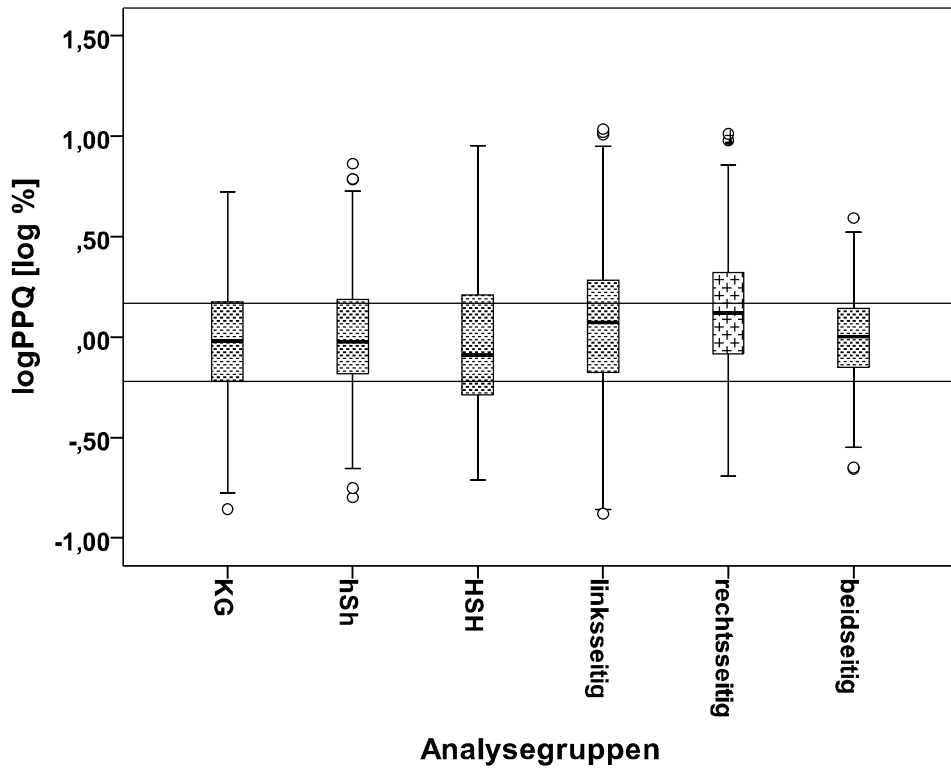


Abbildung 25 Boxplot der PPQ Werte aller Vokalisationen der sechs Analysegruppen

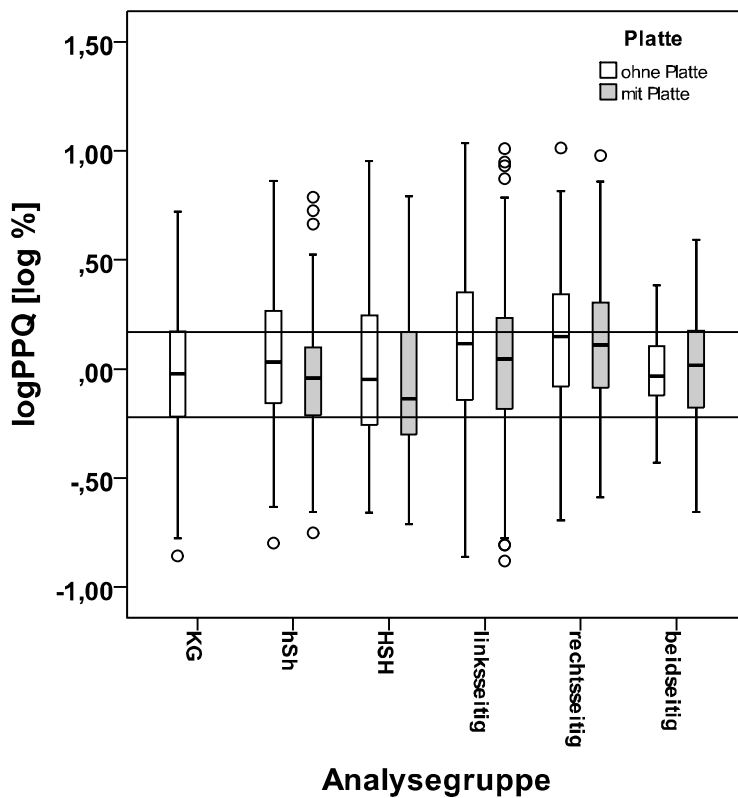


Abbildung 26 Boxplot der PPQ-Werte der Vokalisationen der sechs Analysegruppen jeweils mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte

4 Diskussion

Die Berechnung der mittleren Grundfrequenz F_0 [Hz], sowie ihre ermittelten Höchst- und Tiefstwerte (F_{hi} [Hz] und F_{lo} [Hz]) als eine der meist untersuchten und aussagekräftigsten Größen bezüglich neuro-physiologischer Funktionszustände anhand von Schreieigenschaften (Wasz-Höckert et al. 1968; Makoi et al. 1970; Michelsson 1971; Lester et al. 1985; Wasz-Höckert et al. 1985; Fuller et al. 1986; Pearce et al. 1993; Protopapas et al. 1997; Michelsson et al. 1999; Wermke et al. 2002a; Hauschildt 2006; Steck-Walter 2007; Birr 2009) ermöglichte in der vorliegenden Untersuchung eine Beurteilung des normalen Funktionszustandes der an der Phonation beteiligten Strukturen und Mechanismen. Stark erhöhte oder sehr hohe (>1000 Hz) mittlere F_0 -Werte können, so belegen die oben zitierten Studien, Hinweise auf neuro-physiologische Dysfunktionen liefern (Lind 1971; Golub et al. 1982).

Der Normwert der mittleren Grundfrequenz bei gesunden Säuglingen des hier untersuchten Altersbereiches liegt nach bisherigen Untersuchungen zwischen 350 und 650 Hz (Lester et al. 1985; Michelsson et al. 1999).

Kommt es innerhalb der an der laryngealen Lautproduktion beteiligten Regelsysteme zu Dysfunktionen, können Erhöhungen der mittleren Grundfrequenz F_0 oder der F_0 -Variabilität, das Auftreten von plötzlichen F_0 -Sprüngen („Shift“) oder stark instabile Melodieverläufe innerhalb einer Einzelvokalisation die Folge sein (Wasz-Höckert et al. 1968; Koivisto et al. 1970; Michelsson 1971; Lester 1978; Michelsson et al. 1983; Corwin et al. 1992; Lester et al. 2002). Dies gilt nicht nur für Säuglingsvokalisationen, sondern auch für Stimmsignale erwachsener Sprecher (Haji et al. 1986). Sehr schnelle Variationen der Grundfrequenz sind, bedingt durch die Weichheit des Materials (Stimmlippen), bei gesunden Sprechern normal. Reichen diese Kurzzeitvariationen allerdings über ein bestimmtes Maß hinaus, können pathologische Konditionen morphologischer oder neuro-physiologischer Art vorliegen (Maryn et al. 2009).

In der vorliegenden Arbeit wurden sehr kurzzeitige F_0 -Variationen untersucht,

die die Regulierung der der Phonation zugrunde liegenden Mechanismen unmittelbar reflektieren – aufgrund der kurzen Zeiten besteht keine Kompensationsmöglichkeit bei Regelausfällen.

Untersuchungen zur Kurzzeitvariabilität stützen sich häufig auf die Parameter Jitter, PPQ und Shimmer (Horii 1979; 1985; Klingholz et al. 1985; Haji et al. 1986; Newman et al. 1989; Bamberg et al. 1990; Klingholz 1991; Hall et al. 1992). Im Säuglingsalter gibt es einige wenige Untersuchungen dieser Parameter. So untersuchte Bernadett Zeipert (Zeipert 2004) erstmalig Stimmstabilitätsparameter und Lautlängen von Einzelvokalisationen des ersten Lebenshalbjahres, produziert von drei Säuglingen mit LKGS-Spalten, bezüglich ihrer Altersabhängigkeit bzw. ihrer Veränderung nach chirurgischer Spalt-Korrektur und verglich dafür die Stimmstabilität der betroffenen Säuglinge vor und nach erfolgter Operation.

In Fortsetzung dieses Ansatzes analysierte Stephanie Hauschildt Einzelvokalisationen in den ersten sechs Lebensmonaten von sechs Säuglingen mit LKGS-Spalten unter dem Einfluss der kieferorthopädischen Frühbehandlung. Um eventuelle Zusammenhänge zwischen der Stimmstabilität des betroffenen Säuglings und der erfolgten Therapie deutlich machen zu können, unterschied sie in ihrer Arbeit zwischen Vokalisationen, die mit und ohne eingesetzte Oberkieferplatte produziert wurden (Hauschildt 2006). Katrin Lind beschreibt die Entwicklung der Stimmstabilität über die ersten drei Lebensmonate anhand der Parameter Jitter, Shimmer und PPQ eines Säuglings ohne pathologische Spaltbildung und stellt Korrelationen zwischen den verschiedenen Parametern her (Lind 1999).

4.1 Analyse der Grundfrequenz F_0

Da hier im Wesentlichen der Einfluss der Vokaltraktmalformation der OFS-Gruppe und damit im Zusammenhang stehend gleichzeitig der Oberkieferplatte auf die Kurzzeitvariabilität der Grundfrequenz untersucht werden sollten, musste zunächst gewährleistet werden, dass diese nicht durch zerebrale Dysfunktionen, bedingt durch verdeckte Syndrome, bei der OFS-Gruppe beeinflusst wird. Um das Vorliegen einer solchen zerebralen Dysfunktion

auszuschließen, war in diesem Fall keine direkte, sondern nur eine indirekte Diagnostik durch die Leistung der Erfolgsorgane des ZNS (in diesem Fall die Stimmproduktion) möglich. Die mittleren und maximalen Grundfrequenzwerte der Einzelvokalisationen sind bei jungen Säuglingen ein Indikator für eine potentielle Funktionsstörung, sofern sie bestimmte Wertebereiche überschreiten (wenn nicht Schmerz die Schreie ausgelöst hat, was hier ausgeschlossen wurde). Die Analyse der mittleren Grundfrequenz der vorsprachlichen Lautäußerungen ergab für die Laute der OFS-Gruppe Median-Werte zwischen 379 Hz und 421 Hz und für die KG einen Wert von 417 Hz. Alle Werte liegen in derselben Größenordnung und sind inhaltlich nicht verschieden. Diese Werte indizieren damit keine Annahme einer gestörten neuro-physiologischen Funktion der der Lautproduktion zugrunde liegenden Strukturen und Mechanismen. Dennoch kann man verdeckte Syndrome in der OFS-Gruppe nicht mit vollständiger Sicherheit ausschließen, aber es gibt zunächst aus dieser Perspektive keine Hinweise darauf. Bestätigt wird dies auch durch die Ähnlichkeit der Verteilungseigenschaften (Histogramme) der mittleren Grundfrequenz beider Gruppen.

Betrachtet man Abbildung 4 (Boxplot von F_0), so wird ersichtlich, dass nahezu alle in der vorliegenden Arbeit ermittelten Werte (sowohl der OFS- als auch der Kontrollgruppe) innerhalb des in der Literatur verwendeten angegebenen Normalbereichs der mittleren Grundfrequenz für gesunde Säuglinge (350-650 Hz) liegen.

Die Unterscheidung zwischen Vokalisationen, die mit bzw. ohne eingesetzte Oberkieferplatte produziert wurden, und die Gegenüberstellung der beiden Plattenkonditionen ergab, dass die Oberkieferplatte offenbar keinen signifikanten Einfluss auf die mittlere Grundfrequenz im Untersuchungszeitraum hat (siehe auch Kapitel 3.1). Dies stützt die diagnostisch relevanten Befunde bezüglich der Melodiekomplexität bei Säuglingen mit und ohne oro-faziale Spaltbildungen in diesem Alter (Wermke 2009).

Entgegen den Beobachtungen von Hauschildt, die in ihrer Untersuchung etwas höhere Werte der Grundfrequenz bei Säuglingen der OFS-Gruppe fand (Hauschildt 2006), sind die hier berechneten Werte aller Analysegruppen etwas

niedriger als die der KG (siehe Tabelle 7).

Sapienza zeigte (Sapienza et al. 1996), dass es bei Erwachsenen mit Gaumenspalten zu einer kompensatorischen F_0 -Erhöhung kommt, die der Steigerung der Vokalintensität bei lauter Sprache dient. In Anlehnung an diese Studie interpretiert Hauschildt die erhöhten mittleren Grundfrequenzwerte in ihrer Arbeit als einen eventuell kompensatorischen Prozess bzw. als Folge der bei Gaumenspalten häufig auftretenden motorischen und neurologischen Beeinträchtigungen. Die vorliegenden Untersuchungen konnten diesen Befund und diese Interpretation nicht bestätigen. Ein Grund für die unterschiedlichen Befunde könnte darin liegen, dass in oben genannter Studie nicht zwischen Schreilaute und so genannten „Komfort-Lauten“ unterschieden wurde, während Hauschildt nur Säuglingsschreie untersucht hat. Komfortlaute (z.B. Gurren) haben eine etwas tiefere mittlere Grundfrequenz als Schreie.

Allerdings stützt Zeiperts Untersuchung, die ebenfalls nur Säuglingsschreie verwendete, die Befunde vorliegender Arbeit. Sie fand in ihrer Arbeit einen Anstieg der mittleren Grundfrequenz innerhalb der ersten sechs Lebensmonate und ermittelte Medianwerte zwischen 355 Hz bis 454 Hz über den gesamten Untersuchungszeitraum. Für die ersten acht Lebenswochen fand sie einen Medianwert von 416 Hz und liegt damit in der gleichen Größenordnung wie die Ergebnisse in der vorliegenden Arbeit und auch anderen Untersuchungen (Mühler 1996).

Mühler ermittelt für die OFS-Gruppe in seiner Studie einen Medianwert von 416 Hz (Mühler 1996). Lind und Wermke zeigen für den zweiten und dritten Lebensmonat eine mittlere Grundfrequenz von 409 bzw. 410 Hz bei Säuglingen ohne oro-faziale Spaltbildung (Lind et al. 2002).

Der Vergleich der hier beschriebenen Ergebnisse mit weiteren Arbeiten anderer Autoren ist aus methodischen Gründen nicht möglich. Für die vorliegenden Analysen wurden ausschließlich spontane Lautäußerungen und keine „Schmerzschreie“ verwendet. Andere als die genannten Studien untersuchten so genannte „stressbedingte“ Vokalisationen. Dies sind Signale, die in Notsituationen unter heftiger affektiver Einflussnahme erzeugt werden. Es ist leicht einzusehen, dass die Stimmkontrolle hier von derjenigen ruhiger, im

relaxierten Zustand erzeugter Vokalisationen abweicht. Notsituationen wie Schmerz lösen im menschlichen Körper verschiedene Reaktionen aus. So kommt es unter anderem zu einer Erhöhung des subglottalen Drucks, was eine Erhöhung der Schwingungsfrequenz und in Folge dessen eine steigende Stimmintensität und eine erhöhte Grundfrequenz mit sich bringt (Fuller et al. 1986; Lind 1999).

4.2 Analyse der Länge der Einzelvokalisationen

Die Länge expiratorischer Lautäußerungen (Einzelvokalisationen) bei Säuglingen spiegelt die Verknüpfung verschiedener Regelkreise wider und eignet sich deshalb gut zur Beurteilung allgemeiner Reifungsprozesse. Vorsprachliche Vokalisationen stehen in direktem Zusammenhang mit der Atmung des Säuglings (Ostwald et al. 1968; Murry et al. 1980). Eine regelrechte Atemfrequenz setzt eine entsprechende uneingeschränkte Funktion und Reife der Lungen, der Atemhilfsmuskeln und anderer beteiligter anatomischen Strukturen (z.B. Zwerchfell, Rippenbögen) voraus und ist außerdem eng mit dem Alter und dem allgemeinen Gesundheitszustand des Säuglings verbunden. Im ersten Lebensmonat erreicht die Atemfrequenz eines Säuglings mit 87 Atemzügen pro Minute ein Maximum und fällt innerhalb der folgenden Monate auf 42 Atemzüge pro Minute ab. Obwohl sich die Frequenz der Atmung im ersten Lebensjahr halbiert, bleibt die Dauer der Inspiration in den ersten acht Lebensmonaten konstant; lediglich die Expirationsphase gewinnt deutlich an Länge hinzu (Ostwald et al. 1968; Murry et al. 1980; Lind 1999; Zeipert 2004).

Lind berichtet in ihrer Arbeit von unwillentlich geäußerten Inspirationsgeräuschen bei Neugeborenen (Lind 1999). Für die vorliegende Arbeit wurden im Vorfeld alle zu analysierenden vorsprachlichen Lautäußerungen dahingehend kontrolliert. Um eine Verfälschung der Ergebnisse aufgrund dieser Inspirationsgeräusche zu verhindern, wurden diese manuell eliminiert (siehe Kapitel 2.4).

Ebenso wie die Grundfrequenz hängt auch die Länge einer Lautäußerung vom affektiven Zustand ab. So werden in der Literatur für stressbedingte Äußerungen größere Gesamtlängen angegeben als für spontane

Lautäußerungen (Wasz-Höckert et al. 1968; Fuller et al. 1986).

In vorliegender Arbeit wurde die Dauer der Einzelvokalisationen als Co-Faktor mit in die Analyse einbezogen, um den eventuellen Einfluss der Phonationsdauer auf die Stimmstabilität beim Gruppenvergleich zu berücksichtigen.

Aus den Ergebnissen wird deutlich, dass die mittlere Einzelvokalisationsdauer der KG (Median 1,14 s) und der OFS-Gruppe (Median 1,10 s) nahezu identisch sind.

Auch die Verteilungsdiagramme der Werte beider Gruppen sind sehr ähnlich (siehe Abb. 12 und 13), so dass etwaige Unterschiede in der Stimmstabilität nicht auf unterschiedliche Vokalisationslängen zurückzuführen sind.

Abbildung 14 zeigt, dass die Vokalisationen innerhalb der einzelnen Analysegruppen, die mit eingesetzter Gaumenplatte produziert wurden, etwas länger sind, als diejenigen, die ohne eingesetzte Platte produziert wurden. Im Vergleich zu den Werten der KG wird jedoch deutlich, dass bis auf wenige Ausnahmen (Gruppe „beidseitig“), alle erhobenen Werte im normalen Bereich gesunder Säuglinge liegen. Wie in Kapitel 2.1 dargestellt, beinhaltet die Gruppe der beidseitigen Spaltbildungen nur einen Probanden, was die Vergleichbarkeit der ermittelten Ergebnisse in dieser Gruppe mit denen der anderen Analysegruppen bzw. anderen Studien nur bedingt erlaubt. Die hier ermittelten Lautlängen der Einzelvokalisationen entsprechen im Wesentlichen den Werten in der Literatur.

Bereits 1969 untersuchte Massengill die Schreilänge von Säuglingen mit LKGS-Spalten (Massengill 1969) und kam zu einer durchschnittlichen Gesamtlänge von 0,8 s im ersten und 1,4 s im vierten Lebensmonat.

Mühler ermittelt in seiner Studie Vokalisationslängen der ersten Lebensstage bei Säuglingen mit LKGS-Spalten von 1,6 bis 1,9 s und zwischen 1,26 bis 1,35 s bei den Säuglingen der Kontrollgruppe (Mühler 1996) und liegt damit leicht über den hier ermittelten Werten.

Borschberg und Ruppert kommen in einer Zwillingsstudie zu einer durchschnittlichen Lautlänge von 1,6 s in den ersten drei Lebensmonaten (Borschberg et al. 1998).

Lind gibt in ihrer Untersuchung vorsprachlicher Lautäußerungen gesunder Säuglinge mittlere Schreilängen von 0,91 s im zweiten und 1,64 s im dritten Lebensmonat an (Lind 1999).

Wermke et al. untersuchten vorsprachliche Lautäußerungen von Säuglingen mit verschiedenen stark ausgeprägten oro-fazialen Spalten. Für den Medianwert der Lautlänge der ersten drei Lebensmonate in der OFS-Gruppe ermittelten sie Werte zwischen 0,5 und 2,15 s und liegen damit leicht über den Ergebnissen anderer Studien. Der errechnete Wert für die Kontrollgruppe liegt mit 1,43 s im Bereich der Ergebnisse anderer Arbeiten (Wermke et al. 2002a).

Zeipert ermittelt für vorsprachliche Lautäußerungen der zweiten Lebenswoche spalt-tragender Säuglinge eine durchschnittliche Lautlänge von 1,7 s (Zeipert 2004) und liegt damit leicht über den Werten der vorliegenden Arbeit.

Deutlich höhere Werte (3,5 s in der OFS-Gruppe und 2,8 s in der Kontrollgruppe) berichtet Michelsson, die allerdings Schmerzschreie untersuchte, in ihren Beobachtungen bei Säuglingen mit oro-fazialen Spaltbildungen in den ersten Lebenstagen (Michelsson et al. 1975).

Vergleicht man die Angaben zur Lautlänge vorsprachlicher Vokalisationen in vorausgegangenen Untersuchungen mit denen in der vorliegenden Arbeit, so könnte man annehmen, dass die vorsprachlichen Lautäußerungen bei Kindern mit oro-fazialen Spaltbildungen tendenziell länger sind als bei gesunden Gleichaltrigen. Dies konnte im Hinblick auf die ermittelten Werte in vorliegenden Analysen jedoch nicht bestätigt werden. Im Unterschied zu allen vorangegangenen Untersuchungen ist jedoch zu beachten, dass in der vorliegenden Untersuchung nur ausgewählte Einzelvokalisationen analysiert wurden. Berücksichtigt man diesen Umstand, ergibt sich eine höhere Übereinstimmung zwischen allen Studien, die spontane Vokalisationen untersucht haben.

Die Tatsache, dass die vorsprachlichen Vokalisationen bei Säuglingen mit orofazialen Spaltbildungen in anderen Untersuchungen länger sind als Vokalisationen gesunder Gleichaltriger, könnte partiell auch auf eine fehlende, bzw. erschwerte auditive Rückkopplung bei betroffenen Säuglingen zurückzuführen sein. Partielle Hörstörungen führen bei diesen Säuglingen zu Unterschieden im Klangbild, Rhythmus und Länge der vorsprachlichen Lautäußerungen.

4.3 Kurzzeitvariabilität der mittleren Grundfrequenz F_0

Da sich der glottale Schwingungsmechanismus zur Erzeugung eines Tones aus verschiedenen Komponenten eines biologischen Systems zusammensetzt, können Kurzzeitvariabilitäten in jedem menschlichen Stimmsignal - sowohl bei einer vorliegenden Sprechstörung, als auch beim gesunden Sprecher - nachgewiesen werden (Ludge et al. 1989).

4.3.1 Ursachen der Mikrovariationen

Neurologische Ebene

Nervenimpulse, die eine rhythmische Kontraktion der motorischen Einheiten in der Muskulatur der Stimmlippen bewirken, gelten als ursächlich für die Entstehung von Mikrovariationen auf neurologischer Ebene. Die Entstehung von Jitter wurde unter anderem am Beispiel des Musculus thyroaritenoides genauer analysiert (Titze 1991; Lippert 2007). So kommt es durch Nervenimpulse zu einem Zucken des Muskels, was wiederum zu rhythmischen Kontraktionen der Stimmlippen führt. Die neuronalen Impulse sind jedoch nicht konstant, da die Anzahl und die Länge der motorischen Einheiten in einem Muskel variieren können. Diese Umstände führen schließlich zu Mikrovariationen der muskulären Kontraktilität, welche den Spannungszustand der Stimmlippen und somit auch die Grundfrequenz des Stimmsignals definieren (Orlikoff 1989; Klingholz 1991; Titze 1991; Lattner 1995). Diese Vorgänge sind in ähnlicher Weise an allen laryngealen Muskeln zu beobachten.

Biomechanische Ebene

Als weitere Ursache für die Kurzzeitvariabilität gelten Einflüsse auf biomechanischer Ebene. An erster Stelle ist hier die Bedeutung des Pulsschlags zu nennen. Durch die pulssynchrone, rhythmische Volumenänderung der Stimmlippen kommt es zu einer periodischen Stimmlippenbewegung. Wissenschaftliche Studien zeigen, dass die Grundfrequenz menschlicher Stimmsignale periodischen Schwankungen unterliegt, die dem zeitlichen Abstand zwischen zwei Pulsschlägen entspricht (Orlikoff et al. 1989). Asymmetrien oder Irregularitäten in der bindegewebigen Struktur der Stimmlippen führen zu Abweichungen der glottalen Parameter. Es ist davon auszugehen, dass es zu einer „inneren Vibration“ innerhalb der Stimmlippen kommt (Klingholz 1991), welche mit steigender Grundfrequenz abnimmt (Haji et al. 1986). Diese Tatsache deckt sich mit der Erkenntnis, dass Mikrovariationen ebenfalls geringere Werte bei steigender Grundfrequenz aufweisen. Jitter nimmt im Zusammenhang mit der Höhe von F_0 exponentiell ab und ist bei pathologischen Vorgängen im Stimmapparat erhöht (Horii 1979; Orlikoff et al. 1989; 1990; Klingholz 1991).

Als weitere Ursachen der Mikrovariationen gelten Abhängigkeiten vom Alter, Geschlecht, Gesundheit, sowie Zungenbewegungen des Betroffenen (Lattner 1995).

4.4 Jitter

Jitter bezeichnet eine Variabilität der Grundfrequenz in einem Stimmsignal und ist per Definition eine „meist unregelmäßige Kurzzeitvariation der Periodenlänge zwischen aufeinander folgenden glottalen Schwingungsperioden“ (Klingholz 1991).

Bei steigender Grundfrequenz eines Stimmsignals kommt es zu einer Abnahme des zugehörigen Jitter-Wertes (Klingholz 1991). Horii zeigt, dass die Lautstärke und der relative Jitter-Wert innerhalb einer vorsprachlichen Lautäußerung in einem umgekehrt reziproken Verhältnis zueinander stehen (Horii 1979). Oben genannte Zusammenhänge machen deutlich, dass absolute Jitter-Werte

abhängig von der jeweiligen Grundfrequenz eines Stimmsignals sind.

Nur wenige wissenschaftliche Arbeiten stellen ihre ermittelten Jitter-Werte in absoluter Form dar. Horii ermittelte an gesunden, nicht spalt-tragenden, erwachsenen Probanden im Alter von 28-34 Jahren einen Medianwert von 36 μs (Horii 1979). Dieser Wert ist deutlich kleiner, als die Ergebnisse in vorliegender Arbeit, was aber nicht verwundert, da es sich in der Arbeit von Horii um erwachsene Probanden handelt. Für die nicht spalt-tragende Kontrollgruppe ergibt sich in der vorliegenden Arbeit ein Medianwert von 41,29 μs ; in der OFS-Gruppe konnten Werte zwischen 40,27 bis 57,06 μs ermittelt werden. Die Vergleichbarkeit der in vorliegender Arbeit erhobenen Werte mit oben genannter Analyse ist aufgrund der Unterschiede innerhalb der Probandengruppen (Alter, Vorhandensein einer oro-fazialen Spaltbildung) jedoch schwierig.

Betrachtet man die Verteilungseigenschaften (Histogramme) in vorliegender Arbeit, so fällt die Ähnlichkeit innerhalb der Analysegruppen mit Ausnahme der Verteilung in der Gruppe der beidseitigen Spaltbildungen auf.

Die ANOVA-Analyse lieferte signifikante Unterschiede zwischen der Kontrollgruppe und der HSH-Gruppe, sowie den Gruppen mit einseitiger Spaltbildung; jedoch keine signifikanten Unterschiede zwischen der KG und der hSh-Gruppe. Dies zeigt, dass die Malformation des Vokaltraktes einen Rückkopplungseffekt auf die laryngealen Prozesse hat. Bei einer nur leicht ausgeprägten Weichgaumenspalte ist dies nicht der Fall. In der Regel wird aus Gründen der Vereinfachung nur das Quelle-Filter-Modell der Lautproduktion nach Fant angenommen (Fant 1960). Die Untersuchungen von Titze (Titze 1991) haben allerdings gezeigt, dass es auch eine Rückkopplung auf die Quelle (Larynx) des Vokaltraktes gibt. Demnach ist es interessant zu betrachten, inwiefern der Rückkopplungseffekt durch das Einsetzen der Oberkieferplatte beeinflusst wird.

Betrachtet man den Einfluss der Oberkieferplatte auf die Stimmstabilität, so zeigt sich eine fast ausnahmslose Verbesserung derselben mit dem Einsetzen der Platte, also eine anzunehmende positive Wirkung der Oberkieferplatte. Es ist das erste Mal, dass dieser Effekt gezeigt werden konnte.

Neuere Studien geben Jitter als relative Werte an. Diese Art der Darstellung hat unter anderem den Vorteil, dass das Jittermaß bei leichten Tonhöenschwankungen innerhalb eines Tonsignals aufgrund der Relativierung kaum beeinflusst wird (Klingholz 1991). In der vorliegenden Arbeit wurde sowohl der absolute, als auch der relative Jitter aller analysierten Lautäußerungen erhoben und im Kapitel 3.5 und 3.6 dargestellt.

Es wurden für die Kontrollgruppe ein medianer Jitter-Wert von 1,7 % und für die OFS-Gruppe Werte zwischen 1,4 % und 2,3 % ermittelt (siehe Kapitel 3.6). Diese Ergebnisse liegen in der gleichen Größenordnung wie die erhobenen Jitter-Werte anderer Studien.

Lind gibt in ihrer Arbeit einen medianen Jitter-Wert von 1,59 % bei gesunden Säuglingen an (Lind 1999).

Fuller und Horii untersuchten verschiedene Lautqualitäten (Hunger, Schmerz, Quengeln) von Säuglingen und konnten Ergebnisse zwischen 2,1 % und 2,7 % vorweisen (Fuller et al. 1986). Dies zeigt die bereits oben erwähnte Abhängigkeit der Messgröße von affektiven Zuständen und bestätigt das hier gewählte, strenger standardisierte Design im Vergleich zu vorangegangenen Säuglingsstudien ähnlicher Art.

Betrachtet man die Ergebnisse der vorliegenden Analysen, fällt auf, dass die kleinsten Median-Werte in der OFS-Gruppe für die Analysegruppe HSH (1,43 %) ermittelt wurden und damit sogar unter den Werten der KG liegen. Dies kann anhand der vorliegenden Daten nicht schlüssig interpretiert werden. Die höchsten gemessenen Median-Werte stammen aus der Gruppe der rechtsseitigen Spaltbildungen (2,25 %). Dies scheint mir ein aus diagnostischer Perspektive sehr interessanter Befund, den man in zukünftigen Arbeiten auf seine Relevanz prüfen sollte.

Ein wichtiges Ergebnis der Untersuchung ist der Befund, dass sich ähnlich wie bei der Analyse der Jita-Werte auch bei der Analyse von Jitter ein positiver Effekt der Oberkieferplatte auf die Stimmstabilität gezeigt hat. Dieses Ergebnis stützt die Annahme eines stabilisierenden Effektes der Oberkieferplatte bei der Lautproduktion und deutet auf ihre positive Funktion über unmittelbar kieferorthopädische Aspekte hinaus hin.

Die zum Teil erhebliche Malformation des Vokaltraktes bei den Säuglingen der OFS-Gruppe und die bei erwachsenen Spaltträgern nachgewiesenen zerebralen Besonderheiten machen eine Beeinflussung des hochkomplexen neuro-physiologischen Regelnetzwerkes der Lautproduktion sehr wahrscheinlich (Nopoulos et al. 2000; Nopoulos et al. 2001; Boes et al. 2007; Devolder et al. 2012; van der Plas et al. 2012). Bereits bei Neugeborenen mit oro-fazialen Spalten wurden im Vergleich zu Kindern ohne Spaltbildung Abweichungen in hirnhysiologischen Verarbeitungsleistungen mittels so genannten Ereigniskorrelierten Potentialmessungen (EKP) festgestellt (Cheour et al. 1999).

Würde sich der stabilisierende Effekt der Oberkieferplatte auf die laryngealen Lautproduktionsmechanismen in nachfolgenden Untersuchungen bestätigen, wäre dies ein diagnostisch relevanter Befund für die Bedeutung der kieferorthopädischen Frühbehandlung, die heute noch nicht in allen Spaltzentren in Deutschland routinemäßig durchgeführt wird.

Die Tatsache, dass die Jitter-Werte in den Analysegruppen der einseitigen Spaltbildungen am größten sind, lässt die Schlussfolgerung zu, dass Säuglinge mit einseitigen Spaltbildungen und damit asymmetrischen anatomischen Strukturen größere Schwierigkeiten haben, die Stimmstabilität aufrecht zu erhalten, als Gleichaltrige mit beidseitig vollständig ausgeprägten Spaltbildungen vom HSH-Typ. Ein Befund, der unbedingt durch nachfolgende Studien evaluiert werden sollte, da er sowohl theoretisch als auch klinisch von Bedeutung ist.

4.5 Shimmer

Shimmer stellt die durchschnittliche Differenz zwischen aufeinander folgenden Amplituden eines Sprachsignals dar und steht wie die anderen, bereits genannten Stimmstabilitätsparameter außer mit dem Reifegrad und dem Entwicklungszustand des betroffenen Säuglings auch mit der Intensität der Lautproduktion in Zusammenhang (siehe auch Kapitel 3.7).

In der vorliegenden Arbeit konnte für die Kontrollgruppe ein medianer Shimmer-Wert von 5 dB ermittelt werden. Die Analysen der vorsprachlichen

Lautäußerungen der OFS-Gruppe ergaben Werte zwischen 5,5 und 6,8 dB, sind also gegenüber der KG leicht erhöht. Für die hier errechneten Werte gibt es keine Vergleichswerte in der Literatur.

Horii analysierte 12 erwachsene männliche Probanden und konnte in deren Singstimme einen durchschnittlichen Shimmer von nur 1,14 dB und in deren normal modulierter Phonation einen Wert von 0,48 dB ermitteln (Horii 1985).

Haji gibt als Durchschnittswert für die gesunde Stimme Erwachsener Werte zwischen 0,05 und 0,22 dB an (Haji et al. 1986). Aus diesen Arbeiten wird deutlich, dass die ermittelten Shimmer-Werte bei gesunden bzw. trainierten Erwachsenenstimmen deutlich niedriger sind, als bei den spalt-tragenden Säuglingen in der vorliegenden Arbeit.

Hall und Yairi analysierten stotternde Jungen im Vorschulalter und konnten einen durchschnittlichen relativen Shimmer-Wert von 6,61 % zeigen; für ihre Kontrollgruppe ermittelten sie 4,53 % (Hall et al. 1992).

Die Untersuchungen vom Bamberg et al (Bamberg et al. 1990) an stotternden Kindern zeigten ähnliche Ergebnisse.

Ein niedriger Shimmer-Wert steht demnach für eine „bessere“ Stimme - was sich auch mit den Ergebnissen in der vorliegenden Untersuchung deckt.

Spannend ist, dass auch hier wiederum, wie schon bei den frequenzbasierten Werten, die größten Werte in den Gruppen der einseitigen oro-fazialen Spaltbildungen auftraten. Außerdem zeigte sich auch hier, dass die Oberkieferplatte einen positiven Effekt auf die Stimmstabilität der betroffenen OFS-Säuglinge ausübt und im Gegensatz zu den Lauten ohne eingesetzte Oberkieferplatte eine etwas höhere Stimmstabilität zu verzeichnen ist.

4.6 Pitch Perturbation Quotient (PPQ)

Der PPQ erlaubt sowohl eine Beurteilung der Regularität der Stimmlippenoszillation, als auch eine Bewertung laryngealer Entwicklungsprozesse und neuromuskulärer, sowie phonatorischer Kontrollmechanismen der menschlichen Stimme (Wermke et al. 2002a).

In vorliegender Arbeit wurde für die Probanden der Kontrollgruppe ein Medianwert von 0,95 % errechnet. Die Werte für die OFS-Gruppe liegen

zwischen 0,81 % (HSH) und 1,32 % (rechtsseitige Spaltbildung). Damit sind die im Rahmen dieser Arbeit ermittelten Werte fast ausschließlich deutlich höher, als vergleichbare Werte in anderen Studien. Die Gruppen der einseitig ausgeprägten Spaltbildungen weisen auch hier signifikant höhere Werte als die Kontrollgruppe auf.

Wermke ermittelte für spalt-tragende Säuglinge in den ersten Lebensmonaten einen medianen PPQ-Wert von 0,61 % (Wermke et al. 2002a). Zeipert analysierte die vorsprachlichen Lautäußerungen der ersten Lebensmonate von drei spalt-tragenden Säuglingen und gibt als medianen PPQ-Wert 0,35 % an (Zeipert 2004). Lind zeigt in ihrer Arbeit einen Medianwert von 0,93 % für gesunde Säuglinge (Lind 1999) und stimmt somit in etwa mit dem in vorliegender Arbeit angegebenen Wert der Kontrollgruppe überein (0,95 %).

Borschberg und Ruppert analysierten vorsprachliche Lautäußerungen der ersten drei Lebensmonate von Zwillingen und errechneten einen medianen PPQ-Wert von 1,4 % (Borschberg et al. 1998). Mit diesem Wert liegen sie damit über den Ergebnissen der vorliegenden Arbeit.

Dass die Kurzzeitstabilität der Grundfrequenz unter anderem von den anatomischen Gegebenheiten des Probanden abhängt, wird aus verschiedenen Studien deutlich. Bereits Hauschildt konnte zeigen, dass sich der relative PPQ von spalt-tragenden Säuglingen mit eingesetzter Gaumenplatte (0,43 %) von dem spalt-tragender Säuglinge ohne Platte deutlich unterscheidet (0,61 %) (Hauschildt 2006). Durch das Entfernen der Gaumenplatte unterliegt das laryngeale System einer erhöhten Regelanforderung. Je nach Reifegrad und Entwicklungszustand des betroffenen Säuglings kommt es zu einer mehr oder weniger ausgeprägten Erhöhung der Stimmstabilitäts-Parameter, bzw. zu einer Verminderung der Stimmstabilität.

Die vorliegenden Ergebnisse zeigen, dass die Gruppen der einseitigen Spaltbildungen einmal mehr die größten ermittelten Werte aufweisen. Diese Tatsache, die sich auch in den Ergebnissen der anderen Stimmstabilitätsparameter widerspiegelt, wäre ein interessanter Ausgangspunkt für weiterführende Untersuchungen. Einmal mehr kann der stabilisierende Effekt der Oberkieferplatte, der dazu führt, dass die Stimmstabilität bei

Vokalisationen mit eingesetzter Oberkieferplatte im Vergleich zu Vokalisationen ohne Oberkieferplatte etwas höher ist, gezeigt werden.

Der Perturbations-Quotient spiegelt unter anderem den Reifegrad eines Säuglings wider. Wermke und Mende zeigten, dass die ermittelten Werte bei Frühchen fast doppelt so hoch sind wie bei spontan geborenen Säuglingen (Wermke et al. 1994). Mit zunehmendem Entwicklungsstand des Säuglings kommt es zu einer Zunahme der Stimmstabilität. Da die Säuglinge der OFS- und der Kontrollgruppe hier altersgleich waren, können der Einfluss des Alters und die in den Ergebnissen vorangegangener Untersuchungen postulierte Entwicklungsverzögerung bei spalt-tragenden Säuglingen keine Rolle spielen. Steck-Walter berichtet von einer deutlichen Entwicklungsverzögerung in bestimmten Bereichen der zeitlichen Organisation der Phonation bei Säuglingen mit oro-fazialen Spaltbildungen, welche sich unter anderem in stark verlängerten Lauten und in der selteneren spontanen Produktion intentional segmentierter Laute äußert (Steck-Walter 2007). Birr zeigt eine Verzögerung der Melodieentwicklung bei Säuglingen mit oro-fazialen Spalten um etwa vier Wochen (Birr 2009) und auch Ostermann berücksichtigt in seiner Arbeit die bei Kindern mit Spaltbildungen verlangsamten Entwicklungsprozesse (Ostermann 2010). Die pädaudiologischen Untersuchungen der in der vorliegenden Arbeit untersuchten Säuglinge verdeutlichen den Umstand, dass bei fast allen Kindern mit oro-fazialer Spaltbildung eine transitorische, unterschiedlich stark ausgeprägte Beeinträchtigung des Hörvermögens vorlag (siehe Tabelle 2). Durch diese Einschränkung können die Werte der Stimmstabilität in der OFS-Gruppe ebenfalls erhöht sein, spielt doch die auditive Rückkopplung, wie man von Sängern weiß, eine entscheidende Rolle dabei. Da leider nicht für alle untersuchten Säuglinge die Ergebnisse pädaudiologischer Untersuchungen vorliegen, kann dieses Argument nicht widerlegt werden. Dies belegt, wie essentiell detaillierte pädaudiologische Untersuchungen nicht nur für die Rehabilitation betroffener Säuglinge, sondern auch für die klinische Forschung sind. Weiterführende Studien sollten daher ein besonderes Augenmerk auf die Vollständigkeit der pädaudiologischen Befunde zum Zeitpunkt der Vokalisationsaufnahme legen.

4.7 Fazit

Bei den Probanden der OFS-Gruppe in der vorliegenden Arbeit liegen - soweit einschätzbar - ausnahmslos nicht-syndromale, oro-faziale Spaltbildungen vor. Die hier berichteten Ergebnisse stimmen mit denen anderer Autoren im Wesentlichen sehr gut überein und zeigen, dass die betroffenen Säuglinge trotz partiell starker Malformationen des Vokaltraktes bereits eine sehr hohe neurophysiologische Regelkapazität laryngealer Prozesse zeigen. Dies wird deutlich, wenn man bedenkt, dass es sich bei den hier erhobenen Parametern zur Stimmstabilität teilweise um Variabilitäten im Mikro- und Millisekunden-Bereich handelt. Vorliegende Arbeit untersucht die Stimmstabilität erstmalig unter dem Aspekt des Einflusses einer erfolgten kieferorthopädischen Frühbehandlung, was die Diskussion der hier ermittelten Ergebnisse erschwert. Die Tatsache, dass bei nahezu allen Analysen ein positiver Effekt der Oberkieferplatte zu verzeichnen war, spricht stark dafür, dass sich dieses kieferorthopädische Gerät positiv auf die Stabilität der Phonation auswirkt. Möglicherweise ist die durch die Platte partiell wieder hergestellte „Normalität“ in der Vokaltraktgeometrie für das gesamte phonatorische System besser zu kontrollieren.

Alle hier untersuchten Säuglinge erhielten von der ersten Lebenswoche an eine kieferorthopädische Frühbehandlung und waren im Untersuchungszeitraum somit an die Oberkieferplatte gewöhnt. Die Platte „simuliert“ die physiologische Situation gesunder Säuglinge. Die Situation bei kurzfristig herausgenommener Oberkieferplatte, die hier die Kondition „ohne Platte“ repräsentiert, stellt eine Herausforderung für das laryngeale Regelsystem der betroffenen Säuglinge dar. Durch das Herausnehmen der Platte kommt es zu einer plötzlichen Veränderung der Resonanzsituation im oberen Pharynx und damit einhergehend auch der Rückkopplungseffekte auf den Larynx. Vor diesem Hintergrund ist es nicht verwunderlich, dass es zu einer leichten Verschlechterung der Werte der Messgrößen, die hier die Stimmstabilität charakterisieren, kommt. Um den stabilisierenden Effekt der Oberkieferplatte tatsächlich zu belegen, wäre eine vergleichende Untersuchung mit Säuglingen ohne kieferorthopädische Frühbehandlung, also ohne Plattenversorgung bei

gleichem Spalttyp erforderlich.

Ein interessanter Ausgangspunkt für weiterführende Arbeiten wäre auch die Analyse vorsprachlicher Vokalisationen von syndromalen Säuglingen, um Hinweise darauf zu finden, ob die Untersuchung der Stimmstabilität für die frühzeitige Diagnostik verdeckter Syndrome bei Kindern mit LKGS-Spalten geeignet sein könnte.

5 Zusammenfassung

Lippen-Kiefer-Gaumen-Segel-Spalten (LKGS-Spalten) sind multifaktoriell entstandene kongenitale Gesichtsfehlbildungen und zählen zu den häufigsten angeborenen Fehlbildungen. Je nach Lokalisation und Dimension der oro-fazialen Spaltbildung, die von Mikroformen bis hin zur doppelseitigen vollständigen Lippen-Kiefer-Gaumen-Segel-Spalte reichen kann, ergeben sich verschieden stark ausgeprägte Funktionsstörungen, die sich alle mehr oder weniger stark negativ auf die Sprech- und Sprachentwicklung betroffener Säuglinge auswirken.

Vorliegende Arbeit analysiert vorsprachliche Lautäußerungen des zweiten und dritten Lebensmonates von 19 Säuglingen mit oro-fazialen Spaltbildungen, wobei das Hauptaugenmerk auf der Analyse verschiedener Stimmstabilitätsparameter lag. Die Stimmstabilität ist insofern eine sehr wichtige Größe, als sie die Kurzzeitvariabilität der Grundfrequenz F_0 charakterisiert und damit vergleichsweise schnelle neurophysiologische Regelmechanismen der Lautproduktion unmittelbar reflektiert.

Die Fragestellungen, ob sich vorsprachliche Vokalisationen von Säuglingen mit oro-fazialen Spaltbildungen von denen gesunder Gleichaltriger unterscheiden, bzw. ob eine kieferorthopädische Frühbehandlung in Form einer eingesetzten Oberkieferplatte positive Auswirkungen auf die Stimmstabilität hat, wurden in den hier vorliegenden Analysen untersucht.

Alle Probanden der oro-fazialen Spalt-Gruppe (OFS-Gruppe) wurden einer kieferorthopädischen Frühbehandlung mit einer Oberkieferplatte unterzogen.

Um die ermittelten Ergebnisse bewerten zu können, diente eine Gruppe von 24 gesunden, gleichaltrigen Säuglingen als Referenz.

Insgesamt wurden nach geeigneter Vorauswahl und Vorverarbeitung von mehr als 10.000 Einzelvokalisation final 3626 vorsprachliche Vokalisationen für die Feinanalyse ausgewählt und mit Hilfe des MDVP-Moduls CSL 4400 der Firma KAY/Pentax bearbeitet und anschließend mit dem ZVES-internen CDAP-System analysiert. Die Analysen in vorliegender Arbeit konzentrierten sich dabei auf die mittlere, maximale und minimale Grundfrequenz und die Länge der Einzelvokalisationen, sowie auf verschiedene Stimmstabilitätsparameter (Jitter, Shimmer, PPQ). Für die Grundfrequenz der Lautäußerungen konnten keine deutlichen Unterschiede zwischen Säuglingen mit oro-fazialen Spaltbildungen und den gesunden Gleichaltrigen festgestellt werden. Es konnte gezeigt werden, dass die Oberkieferplatte keinen maßgeblichen Einfluss auf die mittlere Grundfrequenz vorsprachlicher Vokalisationen hat.

Ähnlich verhält es sich bei der Analyse der Lautlänge aller vorsprachlichen Vokalisationen; ein Merkmal, das als Co-Faktor in die Untersuchung mit einbezogen wurde. Auch hier liegen die ermittelten Werte in engen Grenzen und stimmen mit den Ergebnissen anderer Studien überein. Die Verteilungseigenschaften der Vokalisationenlängen in der OFS- und Kontrollgruppe sind sehr ähnlich und haben keinen differenzierenden Einfluss auf die Stimmstabilität im Gruppenvergleich.

Die vorliegende Arbeit untersucht die Stimmstabilität erstmalig unter dem Aspekt des Einflusses einer erfolgten kieferorthopädischen Frühbehandlung. Die Tatsache, dass bei nahezu allen Analysen ein positiver Effekt der Oberkieferplatte zu verzeichnen war, spricht stark dafür, dass sich diese kieferorthopädische Maßnahme positiv auf die Stabilität der Phonation auswirkt. Möglicherweise ist die durch die Platte partiell wieder hergestellte „Normalität“ in der Vokaltraktgeometrie für das gesamte phonatorische System besser zu kontrollieren. Andererseits ist zu bedenken, dass die Situation „ohne Platte“ hier insofern nur bedingt vergleichbar ist, als dass die Platte nur kurzzeitig während der Aufnahme herausgenommen wurde. Bezüglich des Spalttyps ergaben die Analysen des Parameters Jita signifikante Abweichungen zwischen der

Kontrollgruppe und den einseitig ausgeprägten Spaltbildungen, sowie der HSH-Gruppe. Bei der Untersuchung von Jitter zeigt sich ein ähnliches Bild. Bis auf einzelne Ausnahmen sind die Verteilungseigenschaften des Parameters in allen sechs Analysegruppen sehr ähnlich. Signifikante Abweichungen von der KG konnten für die HSH- und die Gruppe der rechtsseitigen Spaltbildungen festgestellt werden.

In vorliegender Arbeit konnten vor allem signifikante Unterschiede zwischen der Kontrollgruppe und der Gruppe mit rechtsseitiger LKGS-Spalte gefunden werden. Inwieweit dieser Befund tatsächlich Bestand hat, müssen weiterführende Studien zeigen, in denen insbesondere ein stärkeres Augenmerk auf adäquate begleitende pädaudiologische Untersuchungen gelegt werden sollte.

6 Literaturverzeichnis

- Andrä A und Neumann HJ (1996). Lippen-, Kiefer-, Gaumenspalten. Entstehung - Klinik - Behandlungskonzepte, Reinbek.
- Bamberg C, Hanley J, et al. (1990). Pitch and amplitude perturbation in adult stutterers and nonstutterers. Seattle, American Speech-Language-Hearing Association.
- Baumann D (2004). Ergebnisse der Sprachentwicklung nach Gaumenspaltenverschluss im frühen Kindesalter, Ruhr-Universität Bochum.
- Birr M (2009). Melodiekomplexität – ein geeigneter Frühindikator potentieller Sprachentwicklungsstörungen bei Säuglingen mit orofazialen Spalten? Melodiestrukturanalysen in Lautäußerungen der ersten zwölf Lebenswochen. Dissertation. Julius-Maximilians-Universität Würzburg.
- Boenninghaus HG und Lenarz T (2007). HNO: Hals-Nasen-Ohrenheilkunde, Springer.
- Boes AD, Murko V, et al. (2007). "Social function in boys with cleft lip and palate: relationship to ventral frontal cortex morphology." Behav Brain Res 181(2): 224-231.
- Borschberg H und Ruppert R (1998). Vergleich stimmlicher Eigenschaften und anthropometrischer Merkmale bei mono- und dizygoten Zwillingen im ersten Lebensjahr. Dissertation. Humboldt-Universität zu Berlin.
- Chapman K und Hardin M (1992). "Phonetic and phonological skills of two-year olds with cleft palate." Cleft Palate Craniofac J 29: 435-443.
- Cheour M, Ceponiene R, et al. (1999). "Brain dysfunction in neonates with cleft palate revealed by the mismatch negativity." Clin Neurophysiol 110(2): 324-328.
- Codoni S (1992). "Anwendung der myofunktionellen Diagnostik und Therapie bei der Behandlung des LKG-Spalten-Kindes." Spaltträger-Forum 2: 22-28.
- Colton RH und Steinschneider A (1981). "The cry characteristics of an infant who died of the sudden infant death syndrome." J Speech Hear Disord 46(4): 359-363.

- Corwin MJ, Lester BM, et al. (1992). "Effects of in utero cocaine exposure on newborn acoustical cry characteristics." *Pediatrics* 89(6 Pt 2): 1199-1203.
- Devolder I, Richman L, et al. (2012). "Abnormal Cerebellar Structure Is Dependent on Phenotype of Isolated Cleft of the Lip and/or Palate." *Cerebellum*.
- Dieckmann O (1996). "Sprachentwicklung bei Lippen-, Kiefer-, Gaumenspalten aus sprachheilpädagogischer Sicht." In: "Andrä, A., Neumann, H.-J. (Hrsg.): Lippen-, Kiefer-, Gaumenspalten – Entstehung, Klinik, Behandlungskonzepte." Reinbek. 253-279.
- Eggeling V (1983). *Subjektive und objektive Parameter in der Sprachdiagnostik bei Patienten mit Lippen-Kiefer-Gaumenspalten. Dissertation.* Westfälische Wilhelms-Universität Münster.
- Fant G (1960). *Acoustic Theory of Speech Production*, Mouton, The Hague.
- Fuamenya NA (2011). *Quantitative analysis of subharmonic and noise phenomena in vocalizations of young infants: Comparing infants with and without orofacial clefts. Dissertation.* Julius-Maximilians-Universität Würzburg.
- Fuller BF und Horii Y (1986). "Differences in fundamental frequency, jitter, and shimmer among four types of infant vocalizations." *J Commun Disord* 19(6): 441-447.
- Gilbert HR und Robb MP (1996). "Vocal fundamental frequency characteristics of infant hunger cries: birth to 12 months." *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 34(3): 237-243.
- Gleiß U und Cohrs-Sauer S (1992). *Sprechmotorische Untersuchungen mittels der Sprach-Farbbild-Transformation (SFT) bei Kindern mit Dyslalie oder mit Lippen-Kiefer-Gaumenspalte*, Medizinische Hochschule Hannover.
- Golub HL und Corwin MJ (1982). "Infant cry: a clue to diagnosis." *Pediatrics* 69(2): 197-201.
- Grunwell P (1993). *Analysing cleft palate speech*. London, Whurr.
- Haji T, Horiguchi S, et al. (1986). "Frequency and amplitude perturbation analysis of electroglottograph during sustained phonation." *J Acoust Soc Am* 80(1): 58-62.

- Hall KD und Yairi E (1992). "Fundamental frequency, jitter, and shimmer in preschoolers who stutter." *J Speech Hear Res* 35(5): 1002-1008.
- Harding A und Grunwell P (1996). "Characteristics of cleft palate speech." *Eur J Disord Commun* 31(4): 331-357.
- Hauschildt S (2006). Akustische Eigenschaften von Säuglingslauten bei eingesetzter versus nicht eingesetzter Oberkieferplatte - ein Beitrag zur Untersuchung des Einflusses der kieferorthopädischen Frühbehandlung auf die vorsprachliche Entwicklung von Kindern mit Lippen-Kiefer-Gaumen-Segelspalte. Dissertation. Julius-Maximilians-Universität Würzburg.
- Hirschberg J (2001). "Functional consequences of cleft palate and its management." *Orv Hetil* 142(24): 1259-1263.
- Hirschberg J und Szende T (1982). "Pathological cry, stridor and cough in infants: A clinical-acoustic study." Budapest: Akademiai Kiado.
- Hochmuth M (1993). Rehabilitative Spracherziehung. Die Gestaltung der rehabilitativen Spracherziehung bei Spaltkindern mit palatal bedingten Dyslalien. Berlin, Becker, K.-P., Becker, R.: Rehabilitative Spracherziehung: 228-244.
- Horii Y (1979). "Fundamental frequency perturbation observed in sustained phonation." *J Speech Hear Res* 22(1): 5-19.
- Horii Y (1985). "Jitter and shimmer in sustained vocal fry phonation." *Folia Phoniatr (Basel)* 37(2): 81-86.
- Hubbard TW, Paradise JL, et al. (1985). "Consequences of unremitting middle-ear disease in early life. Otologic, audiologic, and developmental findings in children with cleft palate." *N Engl J Med* 312(24): 1529-1534.
- Jocelyn LJ, Penko MA, et al. (1996). "Cognition, communication, and hearing in young children with cleft lip and palate and in control children: a longitudinal study." *Pediatrics* 97(4): 529-534.
- Jurkutat A (2011). Sprachentwicklungsstörungen bei Kindern mit orofazialen Spalten. Dissertation. Ludwig-Maximilians-Universität Würzburg. Würzburg.
- Klingholz F (1991). "Jitter." *Sprache Stimme Gehör* 15: 79-85.

- Klingholz F und Martin F (1985). "Quantitative spectral evaluation of shimmer and jitter." J Speech Hear Res 28(2): 169-174.
- Koch J, Koch H, et al. (2003). "[Facial clefts and their coding with LAHS nomenclature]." Mund Kiefer Gesichtschir 7(6): 339-344.
- Koch J, Schiel H, et al. (1987). "Neue Gesichtspunkte zur kausalen Therapie der Hör- und Sprachentwicklungsstörungen durch Gaumenspalten." Monatsschrift Kinderheilkunde 3(135): 65-78.
- Koivisto M, Michelsson K, et al. (1974). "Spectrographic analysis of pain cry of hyperglycemia in newborn infants. ." XIV International Congress of Pediatrics, 1, 250.
- Koivisto M, Wasz-Höckert O, et al. (1970). "Cry studies in neonatal hyperbilirubinemia." Acta Paediatr Scand Suppl 206: Suppl 206:226+.
- LaGasse L, Neal A, et al. (2005). "Assessment of infant cry: acoustic cry analysis and parental perception."
- Lattner S (1995). Mikrovariationen der gesunden Stimme.
- Lederman D, Zmora E, et al. (2008). "Classification of cries of infants with cleft-palate using parallel hidden Markov models." Med Biol Eng Comput 46(10): 965-975.
- Lenneberg EH (1967). Biological foundations of language. New York.
- Lester B (1978). "The Organization of Crying in the Neonate." Journal of Pediatric Psychology 3(3): 122-130.
- Lester B und Boukydis Z (1985). "Infant Crying: Theoretical and Research Perspectives." New York: Plenum Press.
- Lester B, Tronick EZ, et al. (2002). "The maternal lifestyle study: effects of substance exposure during pregnancy on neurodevelopmental outcome in 1-month-old infants." Pediatrics 110(6): 1182-1192.
- Liebermann P (1967). "Intonation, perception and language." Cambridge, Massachusetts: MIT Press.
- Lind J (1965). "Newborn infant crying." Acta Paediatr Scand Suppl. 163.
- Lind J (1971). "The infant cry." Proc R Soc Med 64(5): 468.

- Lind K (1999). Ontogenetische Entwicklung Vorsprachlicher Äußerungen in den ersten drei Lebensmonaten. Dissertation. Ludwig-Maximilians-Universität Würzburg.
- Lind K und Wermke K (2002). "Development of the vocal fundamental frequency of spontaneous cries during the first 3 months." *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 64(2): 97-104.
- Lippert H (2007). *Lehrbuch Anatomie*, Urban & Fischer Verlag/Elsevier GmbH.
- Ludge W und Gips P (1989). "Microcomputer-aided studies of cry jitter uttered by newborn children based upon high-resolution analysis of fundamental frequencies." *Comput Methods Programs Biomed* 28(3): 151-156.
- Makoi Z, Popper P, et al. (1970). "Analysis of infant cry as an indicatory function." *Acta Paediatr Acad Sci Hung* 11(3): 281-284.
- Mampe B, Friederici AD, et al. (2009). "Newborns' cry melody is shaped by their native language." *Curr Biol* 19(23): 1994-1997.
- Maryn Y, Corthals P, et al. (2009). "A Comparative Study between Multi-Dimensional Voice Program and Praat." *Folia Phoniatica et Logopaedica* 61: 217-226.
- Massengill RM, Jr. (1969). "Cry characteristics in cleft-palate neonates." *J Acoust Soc Am* 45(3): 782-784.
- MDVP (1993). *Operations Manual*.
- Michelsson K (1971). "Cry analyses of symptomless low birth weight neonates and of asphyxiated newborn infants." *Acta Paediatr Scand Suppl* 216: 1-45.
- Michelsson K und Michelsson O (1999). "Phonation in the newborn, infant cry." *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 49: 297-301.
- Michelsson K und Rinne A (1983). "Spektrographische Babayschreianalysen zur neuropädischen Diagnostik." *Sozialpädiatrie* 11: 604-608.
- Michelsson K, Sirvio P, et al. (1975). "Spectrographic analysis of pain cry in neonates with cleft palate." *Biol Neonate* 26(5-6): 353-358.
- Michelsson K, Sirvio P, et al. (1977a). "Sound spectrographic cry analysis of infants with bacterial meningitis." *Dev Med Child Neurol* 19(3): 309-315.

- Michelsson K, Sirvio P, et al. (1977b). "Pain cry in full-term asphyxiated newborn infants correlated with late findings." *Acta Paediatr Scand* 66(5): 611-616.
- Michelsson K, Tuppurainen N, et al. (1980). "Cry analysis of infants with karyotype abnormality." *Neuropediatrics* 11(4): 365-376.
- Mühler G (1996). "Die Schreiperiode von Säuglingen mit Gaumen - und Segelspalten." *Sprache Stimme Gehör* 20: 66-71.
- Murry T und Murry J (1980). "Infant Communication: Cry and Early Speech." Houston, TX: College-Hill Press.
- Newman P, Harris RW, et al. (1989). "Vocal jitter and shimmer in stuttering." *Journal of Fluency Disorders* 14: 87-95.
- Nopoulos P, Berg S, et al. (2000). "Abnormal brain morphology in patients with isolated cleft lip, cleft palate, or both: a preliminary analysis." *Cleft Palate Craniofac J* 37(5): 441-446.
- Nopoulos P, Berg S, et al. (2001). "Increased incidence of a midline brain anomaly in patients with nonsyndromic clefts of the lip and/or palate." *J Neuroimaging* 11(4): 418-424.
- Orlikoff RF und Baken RJ (1989). "The effect of the heartbeat on vocal fundamental frequency perturbation." *J Speech Hear Res* 32(3): 576-582.
- Orlikoff RF und Baken RJ (1990). "Consideration of the relationship between the fundamental frequency of phonation and vocal jitter." *Folia Phoniatri (Basel)* 42(1): 31-40.
- Ostermann T (2010). Die Analyse segmentierter vorsprachlicher Melodiestrukturen von Säuglingen mit orofazialen Spalten im Alter von 2-3 Monaten. Dissertation. Ludwig-Maximilians-Universität Würzburg. Würzburg.
- Ostwald PF, Phibbs R, et al. (1968). "Diagnostic use of infant cry." *Biol Neonat* 13(1): 68-82.
- Pamplona MC, Ysunza A, et al. (2000). "Linguistic development in cleft palate patients with and without compensatory articulation disorder." *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 54(2-3): 81-91.

- Pearce S und Taylor B (1993). "Time-frequency analysis of infant cry: measures that identify individuals." *Physiol Meas* 14(3): 253-262.
- Pettay O, Donner M, et al. (1977). "New aspects of the diagnosis of herpes simplex virus (HSV) infections in the newborn. ." XV International Congress of Pediatrics, 4, 235.
- Pfeifer G, Pirsig W, et al. (1981). *Lippen-Kiefer-Gaumen-Spalten*, Ernst Reinhardt Verlag München.
- Protopapas A und Eimas PD (1997). "Perceptual differences in infant cries revealed by modifications of acoustic features." *J Acoust Soc Am* 102(6): 3723-3734.
- Runte C, Runte B, et al. (2002). "Die Bedeutung von Lautbildungsstörungen in der zahnärztlichen Praxis." *ZWR* 4: 168-173
- Sapienza CM, Brown WS, et al. (1996). "Respiratory and laryngeal function associated with experimental coupling of the oral and nasal cavities." *Cleft Palate Craniofac J* 33(2): 118-126.
- Schaedler A (2002). *Untersuchungen zum Sprachentwicklungsverlauf von Kindern mit Lippen-, Kiefer-, Gaumenspalten im Alter von 0-1;6 Jahren*. Fachbereich Rehabilitationswissenschaften der Humboldt-Universität zu Berlin, Philosophische Fakultät IV.
- Schönweiler R (1993). "Audiometrische, sprachliche, entwicklungspsychologische und soziodemographische Befunde bei 1300 sprachauffälligen Kindern und deren Bedeutung für ein individuelles Rehabilitationskonzept." *Sprache Stimme Gehör* 17(1): 6-11.
- Schwenzer N und Ehrenfeld M (2002). *Spezielle Chirurgie*. Band 2. Kapitel 7, Thieme.
- Shriberg LD, Flipsen P, Jr., et al. (2000). "Risk for speech disorder associated with early recurrent otitis media with effusion: two retrospective studies." *J Speech Lang Hear Res* 43(1): 79-99.
- Steck-Walter S (2007). *Quantitative Strukturanalyse vorsprachlicher Vokalisationen von Säuglingen mit orofazialen Spalten im zweiten Lebenshalbjahr bei kieferorthopädischer Frühbehandlung*. Würzburg.

- Thiele M (1990). Computer-Aerometrie: Ein geeignetes Verfahren zur objektiven Beurteilung der sprachlichen Rehabilitation bei Lippen-Kiefer-Gaumenspalten? Marburg, Universität Marburg.
- Titze IR (1991). "A model for neurologic sources of aperiodicity in vocal fold vibration." *J Speech Hear Res* 34(3): 460-472.
- van der Plas E, Caspell CJ, et al. (2012). "Height, BMI, and pituitary volume in individuals with and without isolated cleft lip and/or palate." *Pediatr Res* 71(5): 612-618.
- Vohr BR (1990). "New approaches to assessing the risks of hyperbilirubinemia." *Clin Perinatol* 17(2): 293-306.
- Wasz-Höckert O, Lind J, et al. (1968). "The infant cry: A spectrographic and auditory analysis." *Clinics in Developmental Medicine* No. 29. London: Spastics International Pub.
- Wasz-Höckert O, Michelsson K, et al. (1985). *Twenty-Five Years of Scandinavian Cry Research* Lester BM, Boukydis CFZ (eds.) Infant Crying. Theoretical and Research Perspectives. B Lester und Z Boukydis. New York, London, Plenum Press.
- Wasz-Höckert O, Partanen TJ, et al. (1964). "The identification of some specific meanings in infant vocalization." *Experientia* 20(3): 154.
- Wermke K (2009). *LKGS-Spalten und ihre Folgen für den Spracherwerb bei LKGS-Kindern.*
- Wermke K, Hauser C, et al. (2002a). "Spectral analysis of prespeech sounds (spontaneous cries) in infants with unilateral cleft lip and palate (UCLP): a pilot study." *Cleft Palate Craniofac J* 39(3): 285-294.
- Wermke K, Leising D, et al. (2007). "Relation of melody complexity in infants' cries to language outcome in the second year of life: a longitudinal study." *Clin Linguist Phon* 21(11-12): 961-973.
- Wermke K und Mende W (1994). "Ontogenetic development of infant cry and non-cry vocalisations as early stages of speech abilities." In: Aulanko R, Korpijaakko-Huuhka AM (eds) *Proceedings of the 3rd congress of the international phonetics and linguistics association, Helsinki, Finland*, pp 181-189.

Wermke K und Mende W (2011). "From Emotion to Notion. The Importance of Melody. Eds. J. Decety & J. Cacioppo." Handbook of Social Neuroscience Oxford University Press 624-648.

Wermke K, Mende W, et al. (2002b). "Developmental aspects of infant's cry melody and formants." Med Eng Phys 24(7-8): 501-514.

Wyatt R, Sell D, et al. (1996). "Cleft palate speech dissected: a review of current knowledge and analysis." Br J Plast Surg 49(3): 143-149.

Zeipert B (2004). Vorsprachliche Lautäußerungen (Säuglingsschreie) von Kindern mit Lippen-, Kiefer- und Gaumenspalten im ersten Lebenshalbjahr. Eine Längsschnittstudie. Dissertation. Humboldt-Universität zu Berlin.

Zöfel P (2003). Statistik für Psychologen, Addison-Wesley Verlag.

7 Danksagung

An erster Stelle möchte ich mich neben Frau Professor Dr. A. Stellzig-Eisenhauer vor allem bei Frau Professor Dr. rer. nat. Kathleen Wermke, Leiterin des Zentrums für vorsprachliche Entwicklung und Entwicklungsstörungen, für die Überlassung dieses Promotionsthemas und für das Vertrauen, das sie mir von Anfang an entgegengebracht hat, bedanken.

Sowohl ihre herzliche Art als auch ihre hervorragende Betreuung und äußerst kompetente fachliche und wissenschaftliche Unterstützung während aller Arbeitsschritte haben maßgeblich zum Gelingen dieser Arbeit beigetragen.

Weiterhin danke ich Frau Professor Dr. Wafaa Shehata-Dieler für die Übernahme und Erstellung des Zweitgutachtens.

Herrn Peter Wermke möchte ich ganz herzlich für die Bereitstellung seiner Analysesoftware und die zuverlässige Datenverwaltung am ZVES danken, die diese Arbeit mit ihrem enormen Datenumfang möglich gemacht haben. Außerdem danke ich ihm für diverse Ausflüge in die Welt der Excel-Tabellen und Word-Formatierungen in seinen Computerkursen am Rechenzentrum und im Doktorandenseminar, sowie für sein stets offenes Ohr und unzählige Hilfestellungen rund um die Arbeit am PC im ZVES.

Ich danke allen, die durch Ihre Unterstützung auf verschiedene Art zu dieser Arbeit beigetragen haben.

Von ganzem Herzen möchte ich mich bei meinen Eltern, meinen Geschwistern Kai, Kristin und Ines und bei meiner Großmutter bedanken, ohne deren Unterstützung diese Dissertation auch nicht möglich gewesen wäre.