

· 综述 ·

儿童音韵障碍的研究进展

杨海芳 王穗苹

音韵障碍(speech sound disorder, SSD)是常见的儿科交流障碍之一。在美国,约 15% 的学龄前儿童和 18% 的学龄儿童患有 SSD^[1]。SSD 儿童往往难于准确、清晰地讲出他们的母语,且难以运用语言规则来合成词汇语音。目前,多数 SSD 患儿的病因是未知的^[2-3],表现为音韵系统发育受限,但不伴有任何明显的言语知觉、发音结构、相关神经或心理行为的缺陷^[4]。有研究证实,SSD 可持续到学龄期甚至更晚,可发展为阅读障碍等学业问题,某些患儿成年后还会出现社会和职业问题^[1],而 SSD 患儿的临床特征多样性也给诊疗及科研工作带来了极大的困扰。近年来,关于 SSD 的病因的未知性、高发病率及其对患者学业成就和社会功能的影响,越来越受到临床和教育界的重视。本综述试图通过对 SSD 亚型分类及其相关内在表型的研究,更深入地阐述 SSD 患儿音韵障碍的内在机制。

SSD 的亚型分类

近年来,研究者逐渐认识到儿童 SSD 的多样性^[5],并广泛认为其可能存在多种亚型^[6-10]。有研究指出,SSD 儿童在病情严重程度、病因、言语错误特点、语言系统的参与情况、治疗效果以及持续性因素等方面均存在差异^[11]。对于临床言语病理学家及其研究者而言,建立统一的 SSD 分类和诊断系统,将有利于促进其临床及研究工作的开展。目前较流行的分类系统包括:Shriberg 等^[12]的音韵障碍分类系统(speech disorders classification system,SDCS)、Dodd 等^[7]的鉴别诊断分类(differential diagnosis system)以及 Stackhouse 和 Wells^[10]提出的心理语言学框架等。

一、SDCS 分类法

SDCS 是 Shriberg 为了解决如何分类未知病因 SSD 儿童而提出的,SDCS 的提出已经超过 30 年,基于几百例未知病因 SSD

数据,由最开始的五种类型发展到现在的 8 种类型^[13]。

SDCS 的基本假设是:在特定类型的言语行为和可明确的基因异常之间存在一种稳定的关系。Shriberg 等^[12]认为,除了环境因素导致的言语错误外,基因变异是每种亚型的主要病因,由此将 SSD 分为 8 种亚型(表 1)。

虽然 SDCS 因其较高的表面效度在美国和澳大利亚受到广泛的支持,但其依然存在一系列问题:①SDCS 每个亚型具有其独特性,目前仍然缺乏实验性证据支持 8 种亚型的分类,尤其是缺乏 3 种言语发育延迟亚型的高敏感性和特异性的诊断指标,Shriberg 等^[12]指出,言语发育延迟各亚型之间可能相互共存,而不是独立存在的;②诊断指标很少提供关于儿童音韵障碍的本质和严重性的描述,对治疗方法并无有意义的临床提示;③无法明确未知病因 SSD 各亚型所对应的病因^[5,13],且尚无证据支持基因异常与 SSD 亚型之间的对应关系;④SDCS 的覆盖率也是一个问题,临床文献报道某些儿童不能用 SDCS 分类法进行亚型分类。

因此,本课题组认为,SDCS 目前也许仅仅只能作为一种研究工具,还缺乏临床实用性。

二、鉴别诊断系统

Dodd 于 2005 年提出了一种描述性语言学分类方法^[7],该系统的核心假设是:可以通过反映内在加工缺陷的表面错误类型来进行分类。近 20 年来,Dodd 的研究小组提供了一系列证据支持了分类模型的效度和临床实用性,侧重阐述以下几个方面:①所有未知病因 SSD 可以通过表面错误模式分为五种亚型;②每种亚型都有独立的导致儿童音韵障碍的内在缺陷;③治疗时针对亚型选择干预技术将提高疗效;⑤非英语口语儿童也可以通过该系统进行分类,并且具有相似的发病分布(表 2)。

表 1 SDCS 的病因学和分型总结

分型	亚型	病因	受影响的加工	发病率
正常/正常化言语	-	-	-	-
言语发育延迟	遗传的	多基因的/环境因素的	认知-语言学的	56% (男 > 女)
	中耳炎	多基因的/环境因素的	听觉-知觉性的	30% (男 = 女)
	社会心理学的	多基因的/环境因素的	社会心理学的	12% (男 > 女)
运动型音韵障碍	失用症	单基因或寡基因	言语运动控制的问题	<1% (男 > 女)
	构音障碍	单基因或寡基因		?
	未归类的	单基因或寡基因		?
言语错误	/r/	环境因素的	言语协调性	男 > 女△
	/s/	环境因素的		女 > 男△

注: - 为正常;? 为尚无定论;/r/和/s/为英语音标;△为尚存在争议

DOI:10. 3760/cma. j. issn. 0254-1424. 2015. 02. 020

作者单位:510630 广州,华南师范大学心理学院博士后流动站(杨海芳、王穗苹);广东省中医院言语吞咽诊疗中心(杨海芳)

通信作者:王穗苹,suipingsenu@gmail. com

表 2 Dodd 的五种分型

类型	亚型	特征	发病率
发音学的	构音障碍	在模仿、诱发和自发言语任务中,独立音素、单词和句子中相同语音的替代和歪曲	12.5%
音素学	语音延迟	表现出与年幼儿童相同的语音错误模式	57.5%
	持续性非典型性语音障碍	持续使用一个或者跟多不常用的、非发育性的错误模式,比如首位和末位辅音省略。儿童也可能表现出某些与年龄相仿或者延迟的发育性错误模式	20.6%
	非持续性语音障碍	在言语产出中的变化性/非持续性,没有口腔运动问题的情况下表现出相同词汇的多种错误模式	9.4%
运动计划、编程和执行问题	儿童言语失用	包括语音编码、编程和运动编程的多种缺陷	<1%

Dodd 的分类系统是实用的临床诊疗工具,有较强的结构效度,而且该分类系统具有较高的预期效度和充分的覆盖。迄今为止,还没有发现 SSD 儿童不能用该系统进行分类。该系统所采用的构音和语音学诊断评估方案(the diagnostic evaluation of articulation and phonology, DEAP)在西方国家广泛使用,具有很高的临床实用性,但还需要更多的实验研究来证实 DEAP 的重复性及检查者间的效度、DEAP 的敏感度和特异性,以及跨语言的实用性。

三、Stackhouse 和 Wells 的心理语言学框架

Stackhouse 和 Wells 的心理语言学框架基于三个核心原则:①正常言语发育依赖于正常功能的言语加工系统;②在言语加工系统中一个或者更多环节的障碍导致了 SSD;③通过干预言语加工系统中的目标障碍可以治疗 SSD。

心理语言学框架是发展的模型,基于心理语言学和认知心理学的多年研究,并不完全是个分类系统,而是运用心理语言学的方法研究未知病因 SSD 儿童。该框架包括言语产出的输入、表征和输出能力:①前词汇阶段;②整词阶段;③系统性简化阶段;④装配阶段;⑤元语音学阶段。图 1 可见心理语言学框架系统的言语产出过程。

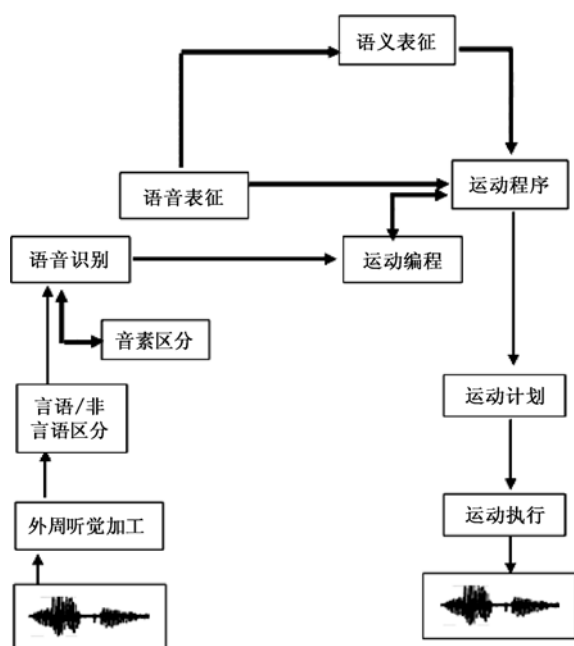


图 1 Stackhouse 和 Wells 心理语言学框架

然而,该框架还存在有某些缺点:①各种音韵障碍的原因均归因于言语输入和输出机制。然而,可能这些障碍来源于更加核心的水平,如语音学习^[7];②言语加工模型中的障碍环节被作为 SSD 的病因来干预。但是,言语加工链中的障碍可能是其他内在缺陷的结果或者合并症。比如, Zelazo 和 Muller (2002)^[14]以及 Dodd (2011)^[11]认为,更高级的执行功能缺陷(如规则提取和灵活性的缺陷)将对言语加工链有内在的影响;③Stackhouse 和 Wells 认为所有 SSD 儿童都在语言发展上具有自己独特优势和劣势。这种独特性观点对该框架的预期效应产生了负面影响。因为如果每个儿童都被看做是独特的,那么将难以预期一个 SSD 儿童的预后及疗效,并不利于临床的推广;④由于经验及理论水平的不同,言语治疗师之间的诊断差异可能会导致该框架的信度下降。

本课题组认为,Stackhouse 和 Wells 的心理语言学框架具有高的表面效度,是一种完整的评估程序,其中包括了医学、语言学、发育学、教育学和心理语言学的观点。该框架非常具有临床实用性,但缺乏对于 SSD 内在机制的探讨,并难以为临床诊断及治疗提供规律性依据。

总体来说,SSD 的亚型分类方法各异,临床医生和研究者只能根据不同的目的选用不同的分类方法,这些分类方法可能让我们更深入地了解 SSD 的本质,但由于各自存在的问题,仍然需要进一步的实证性研究验证各自的信度及效度。

与 SSD 相关的内在表型

临床上,SSD 往往不是单独存在的。各亚型间的共患、不同语言障碍的共患导致了诊断分类的重叠,使得对于病因关系的理解和治疗方法的选择变得复杂。研究已经证实,基因遗传性可能是导致 SSD 的病因。寻找可测量的、能够反映基因对于临床表型影响的参数成为研究者用以探讨这些共患病的内在机制和分类的途径之一。

内在表型是主观可测的,有关认知心理学、语言学、神经心理学的参数与特定行为实验紧密相关,被用于评估基因因素对行为表型的影响^[15]。比如,语音意识性被认为与某些未来发展成阅读障碍的 SSD 儿童紧密相关。研究者认为,内在表型涉及的基因因素少于临床表现,简化了基因学的分析。目前,已被证实的与 SSD 相关的内在表型包括:口腔运动技能、语音意识性、语音记忆、词汇知识和快速命名。

一、口腔运动技能

几个口腔运动技能的特定研究已证实,言语和语言障碍的儿童口腔运动技能比正常发育儿童差^[16-19]。Bishop^[16]于 2002 年用计时的拍打任务和一个注视运动任务展开研究,发现

拍打任务和言语产出的准确性相关,而注视运动任务与非词复述相关;Hill^[19]综述了 28 个用注视运动、穿珠和手指敲击任务等来评估语言障碍儿童的研究,发现语言障碍与运动技能差显著相关。

二、语音意识性

语音意识性也是一种与 SSD 相关的内在表型。语音意识性是通过儿童在口语中操控音素任务来进行评估,比如音素删除或者提取。语音意识性缺陷被认为是阅读障碍最强的早期预测指标^[20]。有研究证实,SSD 儿童无论是否共患语言障碍,在语音意识性测评上都比正常发育儿童表现差^[21-23]。

三、语音记忆

语音记忆是指在工作记忆或者短时记忆中暂时储存的语音信息的编码^[24-25],通常要求儿童完成复述非词任务来进行评估。研究者认为,语音记忆缺陷可能影响口语和书面新词的学习能力,差的语音记忆可能导致较弱的语音表征,成为 SSD 或者阅读障碍的根本原因^[26]。SSD 儿童在包含有语音记忆的大量语音性测验中也表现出与正常儿童比较的差异,而且这种情况可能会延续至成人阶段^[27-28]。研究者一致认为,SSD 个体的语音表征是不稳定的和错构的,这导致了发音错误^[29]。

四、快速命名

语言障碍和阅读障碍儿童快速命名能力比正常对照儿童差,反映这类儿童对于言语信息的加工较慢^[30],而较慢的加工可能影响单词的语音表征的构建,因为储存在记忆中的语音信息在表征建立之前可能已经衰减,由此导致儿童音韵障碍。

五、词汇知识

词汇知识是在阅读习得和技巧中起重要作用的内在表型^[32],一个单词的语义内容将影响语音的产出技能。有研究报道,知道更多词汇的儿童,他们的语音表征的特征和组织更加成人化^[31-32]。

Lewis 等^[33]检验了以上 5 种内在表型与 3 种 SSD 临床分类标准之间的关系,结果发现,语音意识性与语言障碍和阅读障碍共患相关(SSD 的严重性与语音意识性仅有弱相关);语音记忆与所有 3 种 SSD 的临床分类标准相关;词汇知识与轻度至中度 SSD 相关,也与语言障碍和阅读障碍的共患相关。因此,Barbara 等认为,语音意识性、语音记忆和词汇知识在 SSD 的亚型分类中具有重要作用,可用于验证当前 SSD 的临床分类方法。

展 望

目前,对于 SSD 的分类还没有普遍一致的方法,而一致的分类方法将有利于学术交流及未来的诊断和治疗^[13],构建一种包容的、普遍认同、并迎合临床工作者和研究者需要的分类系统是未来的一个挑战。Waring 和 Knight 认为^[34],最好的分类系统应具备以下条件:①能够将所有 SSD 分类成离散的亚型;②有精确的、特定性和敏感性高的诊断指标;③有普遍实用性;④能够通过指导治疗改善临床疗效;⑤在临床机构具有充分的实用性;⑥对解释儿童 SSD 有帮助。

国内对于功能性音韵障碍的研究不多,多局限于临床症状的描述和某种干预疗效分析,进一步的研究可从基因学、心理语言学内在加工机制等展开。对汉语 SSD 进行分类将有利于临床诊断和治疗,这对于国内临床工作者及研究者仍是个挑战。

参 考 文 献

- [1] McLeod S, Harrison LJ. Epidemiology of speech and language impairment in a nationally representative sample of 4-to 5-year-old children [J]. J Speech Lang Hear Res, 2009, 52(5): 1213-1229.
- [2] Peterson RL, McGrath LM, Smith SD, et al. Neuropsychology and genetics of speech, language, and literacy disorders [J]. Pediatr Clin North Am, 2007, 54(3): 543-561.
- [3] Broomfield J, Dodd B. Children with speech and language disability: caseload characteristics [J]. Int J Lang Commun Disord, 2004, 39(3): 303-324.
- [4] Gierut JA. Treatment efficacy: functional phonological disorders in children [J]. J Speech Lang Hear Res, 1998, 41(1): 85-100.
- [5] Taylor E. How to classify [J]? J Am Acad Child Adolesc Psychiatry, 2011, 50(2): 103-105.
- [6] Bowen C. Children's speech sound disorders [M]. Chichester: Wiley-Blackwell, 2009: 67-80.
- [7] Dodd B. Differential diagnosis and treatment of children with speech disorder [M]. London: Whurr, 2004: 44-71.
- [8] Grunwell P. The nature of phonological disability in children [M]. London: Academic Press, 1981: 74-79.
- [9] Shriberg LD, Aram DM, Kwiatkowski J. Four new speech and prosody-voice measures for genetics research and other studies in developmental phonological disorders [J]. J Speech Hear Res, 1993, 36(1): 105-140.
- [10] Stackhouse J, Wells B. Children's speech and literacy difficulties: a psycholinguistic framework [M]. London: Whurr, 1997: 452-460.
- [11] Dodd B. Differentiating speech delay from disorder. Does it matter [J]? Top Lang Disord, 2011, 31(2): 96-111.
- [12] Shriberg LD, Fourakis M, Hall SD, et al. Extensions to the speech disorders classification system (SDCS) [J]. Clin Linguist Phon, 2010, 24(10): 795-824.
- [13] Mccauley R. Speech sound disorders in children: description and classification [M]. Cambridge, MA: MIT Press, 2004: 218-219.
- [14] Zelazo P, Muller U. Executive function in typical and atypical development [M]. Oxford: Blackwell, 2002: 445-469.
- [15] Gottesman II, Gould TD. The endophenotype concept in psychiatry: etymology and strategic intentions [J]. Am J Psychiatry, 2003, 160(4): 636-645.
- [16] Bishop DV. Motor immaturity and specific speech and language impairment: evidence for a common genetic basis [J]. Am J Med Genet, 2002, 114(1): 56-63.
- [17] Bishop DV, Adams C. A prospective study of the relationship between specific language impairment, phonological disorders and reading retardation [J]. J Child Psychol Psychiatry, 1990, 31(7): 1027-1050.
- [18] Bishop DV, Edmundson A. Specific language impairment as a maturational lag: evidence from longitudinal data on language and motor development [J]. Dev Med Child Neurol, 1987, 29(4): 442-459.
- [19] Hill EL. Non-specific nature of specific language impairment: a review of the literature with regard to concomitant motor impairments [J]. Int J Lang Commun Disord, 2001, 36(2): 149-171.
- [20] Raitano NA, Pennington BF, Tunick RA, et al. Pre-literacy skills of subgroups of children with speech sound disorders [J]. J Child Psychol Psychiatry, 2004, 45(4): 821-835.
- [21] Colledge E, Bishop DV, Koeppen-Schomerus G, et al. The structure of

- language abilities at 4 years: a twin study[J]. Dev Psychol, 2002, 38(5): 749-757.
- [22] Kovas Y, Hayiou-Thomas ME, Oliver B, et al. Genetic influences in different aspects of language development: the etiology of language skills in 4.5-year-old twins [J]. Child Dev, 2005, 76(3): 632-651.
- [23] Preston J, Edwards ML. Phonological awareness and types of sound errors in preschoolers with speech sound disorders [J]. J Speech Lang Hear Res, 2010, 53(1): 44-60.
- [24] Gathercole SE, Baddeley AD. Phonological memory deficits in language disordered children-Is there a causal connection [J]. J Mem Lang, 1990, 29(3): 336-360.
- [25] Torgesen JK, Wagner RK. Language abilities, reading acquisition, and developmental dyslexia: Limitations and alternative views [J]. J Learn Disabil, 1992, 25(9): 577-581.
- [26] Adams M, Gathercole SE. Phonological working memory and speech production in preschool children [J]. J Speech Hear Res, 1995, 38(2): 403-414.
- [27] Peterson RL, McGrath LM, Smith SD, et al. Neuropsychology and genetics of speech, language, and literacy disorders [J]. Pediatr Clin North Am, 2007, 54(3): 543-561.
- [28] Kenney MK, Barac-Cikoja D, Finnegan K, et al. Speech perception and short-term memory deficits in persistent developmental speech disorder [J]. Brain Lang, 2006, 96(2): 178-190.
- [29] Pennington BF, Bishop DV. Relations among speech, language, and reading disorders [J]. Annu Rev Psychol, 2009, 60: 283-306.
- [30] Wise JC, Sevcik RA, Morris RD, et al. The relationship among receptive and expressive vocabulary, listening comprehension, pre-reading skills, word identification skills, and reading comprehension by children with reading disabilities [J]. J Speech Lang Hear Res, 2007, 50(4): 1093-1109.
- [31] Elbro C, Borstrom I, Peterson DK. Predicting dyslexia from kindergarten: The importance of distinctness of phonological representations of lexical items [J]. Read Res Quart, 1998, 33(1): 36-60.
- [32] Rvachew S, Grawberg M. Correlates of phonological awareness in preschoolers with speech sound disorders [J]. J Speech Lang Hear Res, 2006, 49(1): 74-87.
- [33] Lewis BA, Avrich AA, Freebairn LA, et al. Subtyping children with speech sound disorders by endophenotypes [J]. Top Lang Disord, 2011, 31(2): 112-127.
- [34] Waring R, Knight R. How should children with speech sound disorders be classified? A review and critical evaluation of current classification systems [J]. Lang commun disord, 2013, 48(1): 25-40.

(修回日期: 2014-11-27)

(本文编辑: 阮仕衡)

· 读者 · 作者 · 编者 ·

本刊对来稿中统计学处理的有关要求

1. 统计研究设计: 应交代统计研究设计的名称和主要做法。如调查设计(分为前瞻性、回顾性或横断面调查研究); 实验设计(应交代具体的设计类型, 如自身配对设计、成组设计、交叉设计、析因设计、正交设计等); 临床试验设计(应交代属于第几期临床试验, 采用了何种盲法措施等)。主要做法应围绕 4 个基本原则(随机、对照、重复、均衡)概要说明, 尤其要交代如何控制重要非试验因素的干扰和影响。

2. 资料的表达与描述: 用 $(\bar{x} \pm s)$ 表达近似服从正态分布的定量资料, 用 $M(Q_R)$ 表达呈偏态分布的定量资料; 用统计表时, 要合理安排纵横标目, 并将数据的含义表达清楚; 用统计图时, 所用统计图的类型应与资料性质相匹配, 并使数轴上刻度值的标法符合数学原则; 用相对数时, 分母不宜小于 20, 要注意区分百分率与百分比。

3. 统计分析方法的选择: 对于定量资料, 应根据所采用的设计类型、资料所具备的条件和分析目的, 选用合适的统计分析方法, 不应盲目套用 t 检验和单因素方差分析; 对于定性资料, 应根据所采用的设计类型、定性变量的性质和频数所具备的条件以及分析目的, 选用合适的统计分析方法, 不应盲目套用 χ^2 检验。对于回归分析, 应结合专业知识和散点图, 选用合适的回归类型, 不应盲目套用简单直线回归分析, 对具有重复实验数据的回归分析资料, 不应简单化处理; 对于多因素、多指标资料, 要在一元分析的基础上, 尽可能运用多元统计分析方法, 以便对因素之间的交互作用和多指标之间的内在联系进行全面、合理的解释和评价。

4. 统计结果的解释和表达: 当 $P < 0.05$ (或 $P < 0.01$) 时, 应说明对比组之间的差异有统计学意义, 而不应说对比组之间具有显著性(或非常显著性)的差别; 应写明所用统计分析方法的具体名称(如: 成组设计资料的 t 检验、两因素析因设计资料的方差分析、多个均数之间两两比较的 q 检验等), 统计量的具体值(如 $t = 3.45$, $\chi^2 = 4.68$, $F = 6.79$ 等), 应尽可能给出具体的 P 值(如 $P = 0.0238$); 当涉及到总体参数(如总体均数、总体率等)时, 在给出显著性检验结果的同时, 再给出 95% 可信区间。