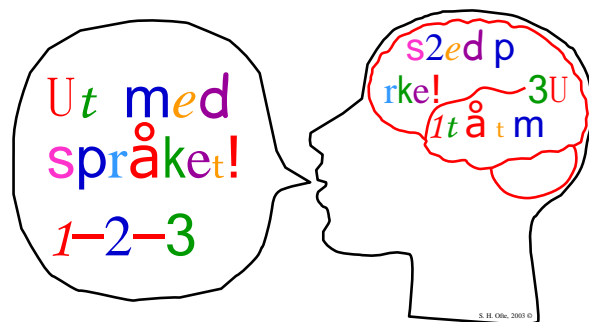


TURID HELLAND

"UT MED SPRÅKET!" (UMS)

**EN LONGITUDINELL UNDERSØKELSE AV BARN
FRA 5 TIL 12 ÅR SOM STÅR I FARE FOR Å
UTVIKLE DYSLEKSI**



<http://www.uib.no/project/speakup>

Bergens-prosjektet "Ut med språket!" er en longitudinell studie som har fulgt en gruppe barn fra Vestlandet fra de var 5 til 12 år gamle. To av hovedmålene for prosjektet var å finne tidlige risikofaktorer for utvikling av dysleksi og å finne metoder for tidlig intervensjon. Et grunnleggende prinsipp for utvelgelse av barna til en risikogruppe var at dysleksi ikke kan forklares ut fra én vanske alene, men fra en sammensetning av flere ulike faktorer, som arvelighet, vansker med språkprosessering og verbalt eller visuelt arbeidsminne. Et enkelt spørreskjema utfyllt av foresatte og førskolelærere da barna var 5 år, viste seg å gi en god predikasjon på hvem som hadde utviklet dysleksi da barna var 11 år. Barna ble fulgt opp årlig med språklige og nevrokognitive tester, og jeg vil snakke om utviklingstrekkene som underbygger de resultatene vi kom fram til.

Longitudinelle studier er relativt sjeldne. De er krevende både når det gjelder menneskelige og økonomiske ressurser. Flere studier fra USA har stertet med barn i skolealder som har fått konstantert dysleksi (se f.eks. Pennington & Lefly (2001) og Shaywitz et al. (1999)). Andre studier har tatt utgangspunkt i barn med dysleksi i nærmeste familie (Lyytinen et al., 2004) eller i tvillingstudier (Samuelsson et al., 2005). En dansk undersøkelse har fulgt opp barn 30 år etter de ble diagnostisert med språkvansker i 3-9-årsalderen, og fant at mange i utvalget fortsatt slet med språklige vansker (Elbro, Dalby, & Maarbjerg, 2011). «Ut med språket!» skiller seg fra disse studiene ved at utvalget var definert både ved hjelp av biologiske markører (arvelighet) og kognitive markører (bl.a..språkutvikling) og at en har samlet inn longitudinelle hjernedata ved hjelp av fMRI. Til sammen vil longitudinelle studier gi god kunnskap om utviklingen av dysleksi og danne evidens for tidlige identifisering og tiltak.

I forelesningen vil jeg gå igjennom bakgrunnen for prosjektet og gjennomføringen. Deretter vil jeg gå igjennom to hovedfunn fra prosjektet. Det første dreier seg om resultatene fra den intensive treningen på data som foregikk i to måneder hver vår da barna var 5, 6 og 7 år. Det andre funnet går på prediksjonsverdien av spørreskjemaet som ble besvart v foresatte og førskolelærere da barna var fem år. Deretter vil jeg si litt om preliminaire longitudinelle data fra hjerneskanning (fMRI) og kognitiv utvikling hos gruppen som viste seg å utvikle dysleksi sammenlignet med gruppen som ikke utviklet dysleksi.

Studie 1

Tidlig trening

(Helland, Tjus, Hovden, Ofte, & Heimann, 2011)

Denne studien fokuserte på effektene av to ulike treningsprinsipp i perioden fra barna var 5 til de var 8 år. De to treningsprinsippene var «bottom- up» (BU), som kan oversettes med «fra lyd til mening», og «top-down» (TD), som kan oversettes med «fra mening til lyd». BU fokuserte først på auditiv og visuell oppmerksomhet og prosessering, og videre på fonologisk bevissthet og lesing og skriving. TD fokuserte på en språklig tilnærming, der en startet med å bruke hele setninger og etter hvert bryte dem ned til ord, fonem og grafem/fonem-korrespondansen. Forskningsbaserte dataprogram ble brukt, og treningen foregikk individuelt sammen med lærer som hadde fått opplæring i å bruke treningsprogrammene.

Barna ble fordelt på to grupper, og hver treningsgruppe besto av like mange barn fra risikogruppen som fra kontrollgruppen. Intensiv trening fant sted to måneder hver vår. Testing ble utført hver høst, og i denne studien ble mål på preliterære ferdigheter for lesing og skriving brukt som avhengige variabler: fonologisk bevissthet, arbeidsminne, verbal læring og bokstavkunnskap, og skriftspråklige ferdigheter ble testet med ordlesing og orddiktater. Ved prosjektavslutning skåret kontrollgruppen signifikant over norm, mens risikogruppen skåret innen norm for testene som ble brukte. For risikogruppens del viste det seg at trening basert på BU-prinsippet hadde sterkest effekt på fonologisk bevissthet og arbeidsminne, mens treningen basert på TD-prinsippet hadde sterkest effekt på verbal læring, bokstavkunnskap og lese-/skriveprøvene. En konkluderte med at tilpasset, spesifikk databasert trening som starter i førskolealder kan avhjelpe lese- og skrivevansker, og at trening bør inneholde BU-prinsipp for preliterære ferdigheter og TD-prinsipp for lese- og skrivetrening.

Studie 2

Tidlige risikofaktorer og et valid spørreskjema

(Helland, Plante, & Hugdahl, 2011)

Denne studien fokuserte på prediksjon av dysleksi hos barn allerede før de har begynt på skolen og før de har fått formell lese-/skrivetrening. Siden dysleksi er en vanske som grunner seg i en medfødt disposisjon, bør tegn på slike risikofaktorer kunne oppdages tidlig. Vi hadde en hypotese om at ved å stille spørsmål som gikk på kjente, kognitive markører for dysleksi, ville en finne reliable og valide prediktorer for seinere utvikling av dysleksi. Dette ble mulig å finne ut ved retrospektive analyser av de longitudinelle dataene fra da barna var 11-12 år og bakover til da de var 5 år. Halvparten av barna i risikogruppen og to barn fra kontrollgruppen viste seg å ha utviklet dysleksi.

Resultatet var i samsvar med tidligere rapporterte resultat angående risikofaktorer og foresattes forutsetninger for å gi prediktiv informasjon om en vanske (Gabrieli, 2009; Glascoe, 2000). Dette indikerer at RI-5 kan brukes som et klinisk hjelpemiddel for å finne barn i som er i risikozonen for å utvikle dysleksi og som bør gis spesifikk trening. Effekten av slik trening ble vist i artikkelen om BU- og TD-treningen (Studie 1).

I den aktuelle studien var det viktig å fokusere på flere årsaksfaktor når det gjelder dysleksi. Dette prinsippet lå til grunn for utformingen av RI-5, som inneholdt spørsmål fra de biologisk, kognitivt og symptomatisk nivå kombinert med opplysninger angående miljø, jmf. modellen til Morton & Frith (1995). Det var også viktig å vurdere dysleksi under en paraply av ulike skriftspråklige prosesser. En slik vurdering ble foretatt da barna var 11-12 år. Dysleksi ble identifisert ved en samleskåre for resultat på non-ordlesing, ordlesing, tekstlesing og orddiktat som et uttrykk for skriftspråklig kompetanse. Studien viste at de aller fleste som utviklet dysleksi befant seg i risikogruppen da de var 5 år.

Kliniske implikasjoner er at resultatene peker på en enkel metode for å finne førskolebarn som er i risikozonen for å utvikle dysleksi. Det var vårt opprinnelige mål med studien å kunne klassifisere omtrent 20% av barna fra det opprinnelige utvalget til å være i denne risikozonen. I en mer forskningsbasert setting, vil det i framtidige studier være av interesse å bruke den laveste skåren i den definerte dysleksi-gruppen som cut-off. Dette vil redusere antall falske positive og gi en mer nøyaktig identifiseringsrate innen 10% (Gabrieli, 2009).

Studie 3

En fMRI-studie av hjernekorrelater hos barn i risikozonen for å utvikle dysleksi (Specht et al., 2009)

I denne studien undersøkte vi om det var mulig å finne korrelater i hjernen til risikofaktorer for dysleksi i en så tidlig alder som 6 år. En var klar over at dette var en vanskelig oppgave, siden barna må ligge helt i ro i skanneren, noe som ikke er lett for en 6-åring! Så vidt vites, er tilsvarende ikke gjort før på så små barn. Barna som deltok imponerte med sin tålmodighet, samarbeidsvilje og innsats. For å undersøke mulige forskjeller i hjerneaktivering ble barna presentert for visuelle stimuli med ulike krav til skriftspråklig prosessering. Stimuli var laget etter prinsippene i Uta Friths modell for lese- og skriveutvikling (Frith, 1986), og bestod av kategoriserte bilder, logoer, ord på «alfabetisk» nivå og ord på «ortografisk» nivå.

Ingen hadde begynt på lese- og skriveopplæring da skanningen ble gjort, jmf. (norsk) Læreplan 97 (KUF, 1996), som var gjeldende. Det var ingen forskjell på hvordan de to gruppene klarte å løse oppgavene. Men fMRI-resultatene viste for det første en gradvis økende prefrontal og parietal aktivering som følge av økt vanskegrad på oppgavene, og for det andre økende forskjeller mellom de to gruppene i de samme områdene av hjernen ved økt vanskegrad. Vi konkluderte med at risikofaktorer for dysleksi har hjernekorrelater som peker mot en neurobiologisk betingelse for utvikling av dysleksi, og som dermed støtter opp om teorier om at mål på risiko for dysleksi kan finnes før barnet kan få en formell diagnose. Siden lignende mønster er rapporterte hos voksne dyslektikere når de prosesserer skrevne ord, ser det ut til at sensitivitet til kortikal differensiering i «lesenettverkene» er etablerte før barn får lese- og skriveopplæring.

Jeg vil i denne delen også vise preliminare data fra de neste to skanningene da barna var henholdsvis 8 og 12 år gamle.

Studie 4

Kognitiv utvikling, preliminare funn (Helland, 2011); Helland et al, under bearbeiding)

Fokus i denne studien er kognitive markører fra 5 til 11 år hos de barna som utviklet dysleksi. Studien tar utgangspunkt i at dysleksi er en multifaktoriell vanske (Pennington & Bishop, 2009), og at den beste måten å finne ut av dette mangfoldet er via longitudinelle studier

(Dehaene, 2009; Goswami, 2003). De ulike kriterier for hva dysleksi er, og de motstridende resultat fra forskning på dysleksi en møter på, kan muligens forklare av aldersrelaterte kognitive utviklingsmønstre. I denne studien ble dette gjort ved å analysere i retrospekt kognitive data fra de 13 barna som viste seg å ha utviklet dysleksi da de var 11 år.

Longitudinelle data var skårer på fonologisk prosessering, rask benevning (RAN), verbalt arbeidsminne, visuo-spatial prosessering, verbalt minne, vokabular og språkforståelse. Disse dataene ble analysert med ANOVA med repeterte målinger med designet Gruppe (2: dysleksi, typisk) x Repeterte målinger (alder 5 – 11 år). Hovedtendensen i resultatene var at begge gruppene økte ferdigheter med økt alder, men at dysleksigruppen skåret lavere enn typiskgruppen. Dette viste seg å være et stabilt mønster på tvers av alle testene, men med en tendens til at ulikheten mellom gruppen var mindre ved 11 år enn i alderen 5 – 8. Utviklingsmønsteret som vises her, var typisk også for de andre kognitive testene som ble brukt.

Vi konkluderte med at typiske kognitive markører for dysleksi varierer i styrke med alder, og at tverrsnittundersøkelser ikke fanger opp disse utviklingstrekkene. Videre viste data at de kognitive markørene som er typiske for dysleksi kan utviskes med alder (spesielt hvis evidensbasert trening er gitt, som i denne studien), men til tross for dette vil lese- og skrivefunksjonen være signifikant lavere enn hos typiske barn, slik studie 2 viste.

Oppsummering og videre forskning

Hovedfunnene var:

- 1) Trening etter de to prinsippene BU og TD viste at alle barna (begge gruppene) profitterte på treningen, ved at de skåret over gjennomsnitt på lese-skrivetester i 3. klasse. En så effekt av begge metodene, men BU viste best effekt for grunnleggende ferdigheter (fonologisk bevissthet, oppmerksomhet) mens TD-gruppen fikk raskere leseferdigheter. Konklusjonen var at begge metodene bør kombineres
- 2) Kalkulert ut fra en nedre grense på de laveste 10% skårer på lese- og skrivetester, ble 13 av barna definert til å ha dysleksi, 11 fra risikogruppen og 2 fra kontrollgruppen. Dette tilsvarer ca 12% av det opprinnelige utvalget, og var litt høyere enn forventet
- 3) fMRI viste forskjeller i mellom risikogruppen og kontrollgruppen ved leserelaterte oppgaver da barna var 6 år, dvs. før de hadde fått formell opplæring (analyser fra 8 og 12 år er ikke ferdige ennå)

- 4) Signifikante forskjeller på dysleksigruppen og typiskgruppen med hensyn til kognitiv utvikling. Dysleksigruppen viste samme utviklingsmønster som den typiskgruppen, men med generelt lavere skårer. Det var en tendens til at forskjellen mellom gruppen ble mindre med alder.

I økende grad ser en nå på dysleksi som en sammensatt vanske som både er idiosynkratisk, - det vil si at den er særegen for et individ eller for en gruppe og følgelig ikke lett å plassere i kategorier eller ved hjelp av regler, og at det en vanske som endrer seg og utvikler seg med alderen. Selv om som fonologisk bevissthet, verbalt arbeidsminne og visuo-spatiale ferdigheter ofte går igjen i litteraturen som markører for dysleksi, er her likevel ikke enighet om vektleggingen av faktorene. En mulig forklaring på denne uenigheten er at tverrsnittstudier fokuserer på ulike alderstrinn, eller rommer flere alderstrinn. Studier på språkvansker og dysleksi har av forskjellige grunner ofte små utvalg, gjerne med moderat aldersblanding. Hvis et samlet utvalg består av barn i alderen 8 til 11 år, kan utviklingstrinnene hos barna bli usynliggjorte gjennom databehandlingen. Et eksempel på det idiosynkratiske aspektet ved dysleksi er at leseferdighetene kan normalisere seg ved en gitt alder, mens skriveferdighetene fortsatt kan være dårlige. Alle disse momentene kan være med å forklare at et estimat av forekomsten av dysleksi varierer fra 5 til 17% som funksjon av utvalgsriterier og definisjonene som er anvendt i en studie (Shaywitz & Shaywitz, 2005; Siegel, 2006).

I prosjektet er det fortsatt data som er under bearbeiding. Det gjelder er *fMRI-data* i et longitudinelt perspektiv, der en ser på videre utvikling fra 6-årsdata til skanningene da barna var 8 og 12 år; det gjelder å se på mulige *kjønnsforskjeller* og mulige sammenhenger med arvelighet og motorikk; det gjelder L2-ferdigheter (*engelsk*) da barna var 6 år, 7 år og 11 år (11-årsdata er analysert i en masteroppgave (Bjelland, 2011)), og det gjelder *skriveferdighetene* til 11-åringene kartlagt med et dataprogram spesielt utviklet for å analysere skriveprosessering. Ellers er det et klart ønske om å kunne følge opp «Ut med språket!»-utvalget i en *seinere studie*. Men først og fremst er det et ønske om *replikasjonsstudier*, der RI-5 blir tatt i bruk med fokus på tidlig kartlegging og tidlig trening. Utfordring er hermed sendt videre til Danmark!

Referanser

- Bjelland, L. (2011). *Dyslexia and English Second Language Learning. A Study of English Verbal and Literacy Skills in Norwegian Children With Dyslexia*. Master, Universitetet i Bergen, Bergen.
- Dehaene, S. (2009). *Reading in the Brain. Chapter 1*. New York: Viking.
- Elbro, C., Dalby, M., & Maarbjerg, S. (2011). Language-learning impairments: a 30-year follow-up of language-impaired children with and without psychiatric, neurological and cognitive difficulties. *International journal of language & communication disorders / Royal College of Speech & Language Therapists*, 46(4), 437-448. doi: 10.1111/j.1460-6984.2011.00004.x
- Frith, U. (1986). A developmental framework for developmental dyslexia. *Annals of Dyslexia*, 36, 69-81.
- Gabrieli, J. D. E. (2009). Dyslexia: A New Synergy Between Education and Cognitive Neuroscience. *Science*, 325, 280-283.
- Glascoe, F. P. (2000). Evidence-based approach to developmental and behavioural surveillance using parents' concerns. *Child: Care, Health and Development*, 26(2), 137-149. doi: 10.1046/j.1365-2214.2000.00173.x
- Goswami, U. (2003). Why theories about developmental dyslexia require developmental designs. *Trends in Cognitive Sciences*, 7(12), 534-540.
- Helland, T. (2011). *Developmental cognitive benchmarks in dyslexia*. Paper presented at the 15th European Conference on Developmental Psychology. August 23 -27, 2011, Bergen.
- Helland, T., Plante, E., & Hugdahl, K. (2011). Predicting Dyslexia at Age 11 from a Risk Index Questionnaire at Age 5. *Dyslexia*, 17(3), 207-226. doi: 10.1002/dys.432
- Helland, T., Tjus, T., Hovden, M., Ofte, S. H., & Heimann, M. (2011). Effects of a bottom-up and a top-down intervention principle in emergent literacy in children at risk of developmental dyslexia. A longitudinal study. *Journal of Learning Disabilities*, 44(2), 105-122.
- KUF. (1996). *Læreplanverket for den 10-årige grunnskolen* Det kongelige kirke, utdannings- og forskningsdepartementet, Oslo: Retrieved from <http://www.udir.no/Tema/Lareplaner/L97-og-R94/>.
- Lyytinen, H., Aro, M., Eklund, K., Erskine, J., Guttorm, T., Laakso, M., . . . Torppa, M. (2004). The development of children at familial risk for dyslexia: birth to early school age. *Annals of Dyslexia*, 54(2), 184-220.
- Morton, J., & Frith, U. (1995). Causal modeling: A structural approach to developmental psychopathology. In D. J. C. Dante Cicchetti (Ed.), *Developmental psychopathology, Vol. 1: Theory and methods. Wiley series on personality processes*. (pp. 357-390): John Wiley & Sons, New York, NY, US.
- Pennington, B. F., & Bishop, D. V. M. (2009). Relations Among Speech, Language, and Reading Disorders. *Annual Review of Psychology*, 60, 283-306.
- Pennington, B. F., & Lefly, D. L. (2001). Early Reading Development in Children at Family Risk for Dyslexia. *Child Development*, 72, 816-833. doi: 10.1111/1467-8624.00317
- Samuelsson, S., Byrne, B., Quain, P., Wadsworth, S., Corley, R., DeFries, J. C., . . . Olson, R. (2005). Environmental and genetic influences on pre-reading skills in Australia, Scandinavia, and the United States. *Journal of Educational Psychology*, 97(4), 705-722.
- Shaywitz, S. E., Fletcher, J. M., Holahan, J. M., Shneider, A. E., Marchione, K. E., Stuebing, K. K., . . . Shaywitz, B. A. (1999). Persistence of Dyslexia: The Connecticut Longitudinal Study at Adolescence. *Pediatrics*, 104(6), 1351-1359. doi: 10.1542/peds.104.6.1351
- Shaywitz, S. E., & Shaywitz, B. A. (2005). Dyslexia (Specific Reading Disability). *Biological Psychiatry, Vol 57(11)*, 1301-1309.
- Siegel, L. S. (2006). Perspectives on dyslexia. *Pediatrics and Child Health*, 11(9), 581-587.
- Specht, K., Hugdahl, K., Ofte, S. H., Nygard, M., Bjørnerud, A., Plante, E., & Helland, T. (2009). Brain activation on pre-reading tasks reveals at-risk status for dyslexia in 6-year-old children. *Scandinavian Journal of Psychology*, 50(1), 79-91.