

decision-making. Patients need to be informed about the different substitute speech methods. We have shown that tracheoesophageal speech offers the most natural speech rehabilitation method; when possible patients should be offered tracheoesophageal speech as a verbal rehabilitation method. Throughout the full trajectory of counselling and rehabilitation the impact of the surgery on daily life has to be discussed by clinicians. This facilitates the possibility to determine personalized rehabilitation goals on functional and participation level.

9.2 Dutch summary

Totale laryngectomie

Stemuitkomsten en functionele problemen

Hoofdstuk 1 van dit proefschrift introduceert de onderwerpen van dit proefschrift. We geven een inleiding over hoofdhalskanker en de behandeling hiervan, met in het specifiek de behandeloptie totale laryngectomie. Een totale laryngectomie is een operatie waarbij het strottenhoofd wordt verwijderd. Hiermee verliest de patiënt zijn natuurlijke stem en verandert de ademweg met het stoma dat wordt aangelegd in de hals. We leggen uit wat voor effecten de operatie heeft op de anatomie en fysiologie en uitkomsten in stem, spraak en kwaliteit van leven. Om het spreken te revalideren zijn de drie meest gebruikte methodes: tracheo-oesofageale spraak, slokdarmspraak en electrolarynxspraak. We introduceren deze 3 substituu- spraakmethoden met illustraties van de werking. Voor het evalueren van deze stemmen wordt gebruik gemaakt van akoestische analyse, perceptuele analyse en patiënt-gerapporteerde uitkomsten. In meerdere hoofdstukken wordt gebruik gemaakt van deze manieren van evaluatie. Dit proefschrift bestaat uit twee delen. De hoofdstukken in het eerste deel van dit proefschrift geven inzicht in uitkomsten in stemkwaliteit en verstaanbaarheid na een totale laryngectomie. Het tweede deel bevat hoofdstukken over algeheel functioneren, specifieke revalidatiebehoeften van vrouwelijke gelaryngectomeerden en naar de behandeling van hoestklachten na een totale laryngectomie.

In **hoofdstuk 2** presenteren we een systematisch opgezet literatuuronderzoek waarin we de verschillende stemrevalidatiemethoden met elkaar vergelijken. We vergelijken de drie substituu- spraakmethoden met spraak van gezonde sprekers, waarbij akoestische, perceptuele en patiëntgerapporteerde uitkomsten meegenomen worden. Voor deze literatuurstudie zijn verschillende databases doorzocht en is een systematisch opgezet selectieproces doorlopen. Er konden 26 artikelen worden geïnccludeerd die voldeden aan de selectiecriteria. De meeste van deze artikelen hadden een lage methodologische kwaliteit waardoor het aannemelijk is dat in veel studies een zogenaamde bias aanwezig is. Een aantal beschrijft bijvoorbeeld dat alleen hele goede sprekers gevraagd zijn om deel te nemen aan hun studie wat zorgt voor een vertekening van de resultaten. Echter, rekening houdend met deze bias, laten de resultaten van deze vergelijkende lit-

eratuurstudie zien dat tracheo-oesofageale sprekers een betere uitkomst laten zien ten opzichte van slokdarmsprekers op perceptuele en akoestische uitkomsten. Dit is het geval voor de akoestische parameters fundamentele frequentie, maximale fonatieduur en intensiteit. Voor de patiëntgerapporteerde uitkomsten zien we dat geen van de revalidatiemethoden een duidelijk betere uitkomst laat zien. De literatuurstudie laat zien dat tracheo-oesofageale spraak de voorkeur heeft als revalidatiemethode voor akoestische en perceptuele uitkomsten maar dat voor patiëntgerapporteerde uitkomsten geen duidelijke voorkeursmethode naar voren komt.

In **hoofdstuk 3** hebben we een prospectieve studie opgezet met gestandaardiseerde meetmethoden voor akoestische, perceptuele en patiëntgerapporteerde uitkomsten. Het doel van deze studie was om het verloop van de spraakrevalidatie na een totale laryngectomie van voor de operatie tot een jaar na de operatie vast te leggen. In vijf ziekenhuizen in Nederland en Australië werden patiënten die een totale laryngectomie als behandeloptie voorgesteld kregen gevraagd om mee te doen aan deze studie. Voorafgaand aan de laryngectomie en drie, zes en twaalf maanden na de operatie heeft de logopedist een assessment uitgevoerd. Ieder assessment bestond uit perceptuele evaluatie van de stem, stemopnames en vragenlijsten. De Voice Handicap Index 10 (VHI-10) is gebruikt om de patiënt-gerapporteerde stemhandicap vast te leggen. De stemopname is gebruikt om de Acoustic Voice Quality Index (AVQI) score te berekenen. De uiteindelijke analyse bevat 43 deelnemers. Bij 40 van de deelnemende patiënten (93%) is een stemprothese geplaatst om te revalideren met tracheo-oesofageale spraak. Over de gehele groep zien we drie maanden na de operatie een verslechtering van alle stemuitkomsten. Hierna wordt een geleidelijke verbetering gezien. Na één jaar zijn er nog 23 deelnemers in de studie, waarvan 20 succesvol kunnen spreken met tracheo-oesofageale spraak. Degenen waarbij de spraak niet succesvol is gerevalideerd hadden medische complicaties. Van de groep deelnemers overleed 30% in het eerste jaar na de operatie. Algehele kwaliteit van leven wordt voor de groep deelnemers het slechtst beoordeeld voorafgaand aan de operatie. Over tijd is er een verbetering zichtbaar. Binnen de zelf-gerapporteerde uitkomsten zien we een response shift optreden. Response shift verwijst naar verandering in de betekenis van kwaliteit van leven en communicatief functioneren, veroorzaakt door een verandering van de interne standaarden. Het gevolg is een discrepantie in de patiëntgerapporteerde stemhandicap en de akoestisch gemeten stemkwaliteit. Sprekers waarderen de tracheo-oesofageale spraak ondanks de afwijkende klank. Dit is van belang om mee te nemen in de voorlichting. Wat verder uit de resultaten bleek is, indien er sprake is van een slechte oncologische prognose dit leidt tot een grotere kans om niet te kunnen spreken in de laatste levensfase. Ook dit is relevant om in de voorlichting mee te nemen. Onze studie laat zien dat het meetinstrument, de AVQI, een potentieel sterk instrument is om een objectieve classificatie van de stemuitkomst te geven. Voor de toekomst is het zinvol om een validatiestudie op te zetten voor zowel de AVQI als de VHI-10, met als doel een afkapwaarde bepalen voor stemprothesespraak. Hiermee kunnen vergelijkingen over tijd en

tussen groepen patiënten gemaakt worden om de uitkomsten beter in kaart te brengen.

In **hoofdstuk 4** onderzoeken we in detail de akoestische verschillen in de woord initiële medeklinkers /t/ en /d/ in Nederlandse sprekers voorafgaand en na een totale laryngectomie. We gebruiken hiervoor opgenomen spraakopnames van zeventien studiedeelnemers die voor en na totale laryngectomie de tekst *Tachtig dappere fietsers* hebben voorgelezen. Deze tekst bevat achttien tokens (itemwoorden) waarbij de /t/ en /d/ in initiële positie van het woord staan. Voor ieder token hebben we de akoestische metingen uitgevoerd op prevoicing, burst duration en duur van de klinker volgend op deze initiële consonant. De uitkomsten van deze analyses laten zien dat het akoestisch contrast tussen de woord initiële consonanten /t/ en /d/ minder wordt na totale laryngectomie. In tracheo-oesofageale spraak is er een vermindering van de aanwezigheid van prevoicing en een langere burst duration voor de /d/. Hierdoor worden de akoestische eigenschappen van de /d/ meer vergelijkbaar met een /t/. Dit leidt tot meer misverstanden in spraakverstaan en hiermee een slechtere verstaanbaarheid. Voor de klinische dagelijkse praktijk is het van belang om aandacht te besteden aan deze en breder bestaande verstaanbaarheidsproblemen.

In **hoofdstuk 5** presenteren we lange termijn uitkomsten van tracheo-oesofageale sprekers. Voor dit onderzoek hebben we spraakopnames van dertien sprekers gebruikt waarbij minimaal zeven jaar tussen de eerste en tweede opname zat. Het verschil in stemkwaliteit en verstaanbaarheid over tijd is gemeten met akoestische en perceptuele analyse. Tien logopedisten hebben door middel van een luisterexperiment de spraakopnames perceptueel beoordeeld. Daarnaast zijn de samples met tools voor automatische akoestische spraakanalyse, ELIS, ELISALF en de AVQI, geanalyseerd. Voor de gehele groep, wordt over tijd geen statistisch significant verschil gevonden voor de perceptueel en automatisch beoordeelde stemkwaliteit en verstaanbaarheid. Wel bleek dat er een grote variabiliteit zat tussen de sprekers. De perceptuele beoordelingen uitgevoerd door de logopedisten lieten ook een grote variatie zien, desondanks was er een sterke correlatie tussen de perceptueel beoordeelde stemkwaliteit en perceptueel beoordeelde verstaanbaarheid. Daarnaast bleken de AVQI uitkomsten zijn sterk gecorreleerd met de perceptuele beoordelingen. Dit maakt dat automatische tools, zoals de AVQI, veelbelovend zijn. Met deze tools kunnen veranderingen in stem en spraak van individuele sprekers over tijd geanalyseerd worden. We concluderen dat de stemkwaliteit en verstaanbaarheid voor tracheo-oesofageale sprekers stabiel genoemd kan worden over een periode van zeven tot achttien jaar na de operatie.

Het tweede deel van dit proefschrift bevat hoofdstukken die gericht zijn op functionele uitkomsten, longproblemen en vrouwspecifieke problemen die aanwezig kunnen zijn na totale laryngectomie.

In **hoofdstuk 6** laten we de resultaten zien van een wereldwijd uitgevoerde studie naar functionele en participatieproblemen na een totale laryngectomie. Hiervoor werd een vragenlijst verstuurd naar 8119 gelaryngectomeerden, van wie er 1705 (21%) reageerden. De vragenlijst bevat 26 vragen; er

is demografische informatie uitgevraagd, en gevraagd naar het gebruik van medische hulpmiddelen het ervaren van de algehele gezondheid en vragen ten aanzien van functionele en participatiekwesties. Voor de analyse zijn de respondenten gegroepeerd op basis van geslacht, leeftijd, tijd sinds totale laryngectomie, opleidingsniveau en het land waar men woont. De uitkomstmaat 'mate van gerapporteerde kwaliteit van leven' (r-QoL) en zeven geselecteerde probleemthema's zijn gebruikt voor de analyse. De probleemthema's zijn: esthetische problemen, ervaren beperkingen in dagelijkse activiteiten, vermijden van sociale activiteiten, communicatieproblemen, ervaren kwetsbaarheid door omgevingsfactoren, longproblemen en slaapproblemen. Met de analyse konden we onderliggende relaties tussen de r-QoL en de probleemthema's onderzoeken. Uit dit onderzoek blijkt dat meer functionele en participatieproblemen als ook een lagere r-QoL worden gerapporteerd in de groep jongere respondenten (<60 jaar), vrouwen en respondenten die minder dan twee jaar geleden de totale laryngectomie hebben ondergaan. Het vermogen om deel te kunnen nemen aan zinvolle en sociale activiteiten is een belangrijke factor in de uitkomst van r-QoL. De meeste deelnemers rapporteren longproblemen. Deze pulmonale klachten hebben een sterke correlatie met de meeste andere thema's. Vanwege deze correlatie lijkt het aannemelijk dat pulmonale klachten een onderliggende oorzaak kunnen zijn van veel andere problemen en daarmee de gerapporteerde kwaliteit van leven negatief beïnvloeden.

In **hoofdstuk 7** onderzoeken we het effect van een hoestkrachttraining, de Expiratory Muscle Strength Training (EMST). Dit trainingsprogramma is uitgevoerd door een groep patiënten die een totale laryngectomie hebben ondergaan. De EMST-trainer is een klein apparaat met een spanningsveer waarin de patiënt via de mond moet uitblazen tegen weerstand. De training heeft als doel het verbeteren van de uitademingsdruk en hiermee de hoestfunctie, wat uiteindelijk kan leiden tot minder pulmonale klachten. In onze studie hebben we tien deelnemers met laryngectomie geïncludeerd. Er is een koppelstuk gemaakt om de EMST te gebruiken op het stoma in de hals. Voor deze pilotstudie wilden we de haalbaarheid, veiligheid en therapietrouw van het EMST-trainingsprogramma onderzoeken. Om de uitkomst van de training te meten hebben we een combinatie van objectieve en subjectieve uitkomstmaten gebruikt: manometrie, spirometrie, een cardiopulmonale inspanningstest, spraakopnames en patiëntgerapporteerde uitkomstmaten. Negen deelnemers voltooiden het volledige studieprotocol. Het trainingsprogramma bleek een hoge therapietrouw te hebben. Ondanks dat het handigheid van de deelnemers vereiste om de EMST op het stoma te plaatsen, waren de deelnemers in staat de training uit te voeren. De resultaten laten zien dat maximale druk tijdens expiratie (MEP) en luidheid van de stem na het voltooien van het trainingsprogramma duidelijk verbeterden. Echter, er werden na het trainingsprogramma geen significante veranderingen gezien in andere objectieve en subjectieve uitkomsten. Concluderend kunnen we zeggen dat de EMST haalbaar en veilig is om te gebruiken na een totale laryngectomie. MEP uitkomsten verbeterden gedurende de trainingsperiode, maar er werd geen verbetering gezien

in de klinisch relevante uitkomstmaten, zoals minder vaak hoesten, in onze groep van relatief fitte deelnemers. Het wordt aanbevolen deze training verder te onderzoeken en uit te voeren bij een grotere groep (minder fitte) deelnemers die specifiek pulmonale klachten aangeven. Hiermee kan onderzocht worden of ook hier een toename in MEP wordt gezien en of dit kan leiden tot klinische voordelen zoals minder vaak hoesten.

In **hoofdstuk 8** presenteren we een onderzoek waarin we vrouwelijke patiënten interviewden over hun perspectief op leven na een totale laryngectomie. Het doel van dit kwalitatief onderzoek was om inzicht te krijgen in de impact van totale laryngectomie op het dagelijkse leven van vrouwen en om specifieke revalidatiebehoeften te identificeren. We hebben semi-gestructureerde diepte interviews gehouden met acht vrouwen die een totale laryngectomie hadden ondergaan. Met behulp van een interviewlijst werd de deelnemers gevraagd naar hun ervaringen in de aanloop naar de operatie toe, de revalidatie-periode en het dagelijks leven nu. Daarnaast hebben we gevraagd naar vrouw-specifieke ervaringen. De getranscribeerde interviewgegevens hebben we geanalyseerd met behulp van thematische analyse, waarbij interpretatieve fenomenologische analyse als leidraad is genomen. Er kwamen drie hoofdthema's naar voren vanuit de interviews: ziekte en behandeling als keerpunt, terugkeer naar zinvolle dagelijkse activiteiten en blijvende kwetsbaarheid. Studiedeelnemers vertelden dat ze het moeilijk hadden tijdens hun revalidatieproces door fysieke problemen, de afhankelijkheid van anderen en ervaren stigma. Het is waarschijnlijk dat vrouwen die een totale laryngectomie ondergaan door stigmatisering problemen ondervinden bij bijvoorbeeld terugkeer naar werk. Daarnaast gaven de vrouwen aan moeilijkheden te ervaren in het uitvoeren van zorgtaken, de relatie met hun partner met o.a. intimiteit en sociale interactie. Deze informatie meenemen in de voorlichting voorafgaand aan de behandeling en het aanbieden van multidisciplinaire revalidatie kan patiënten helpen realistische verwachtingen te vormen en hen beter voor te bereiden op de veranderingen die ze zullen gaan doormaken. Men kan hierbij denken aan het inzetten en scholen van patiëntvoorlichters, die een belangrijke bijdrage aan dit voorlichtingsproces leveren. Het is ook van belang de eventuele partner of naasten te betrekken in het revalidatieproces. Tot slot kan in dit proces specifieke aandacht gegeven worden aan het aanbieden van psychosociale ondersteuning aan vrouwen na een totale laryngectomie en hun partners. Dit kan mogelijk de terugkeer naar hun vroegere rol in het gezinsleven, het sociale leven en werk gerelateerde activiteiten bevorderen.

In **hoofdstuk 9** volgt een discussie van de onderzoeken uit dit proefschrift, formuleren we aanbevelingen voor de klinische praktijk en geven suggesties voor vervolgonderzoek. Om meer uniformiteit te bereiken in het evalueren van stem- en spraakuitkomsten na een totale laryngectomie is consensus nodig over de te gebruiken meetmethoden. Het lijkt waardevol om meetmethoden te gebruiken die één score geven voor perceptuele- en akoestische uitkomst en zelf-gerapporteerde uitkomst. Dit zorgt ervoor dat het makkelijker is om veranderingen over tijd te onderzoeken en studies met elkaar te vergelijken. Automa-

tische spraakevaluatietools zoals de AVQI zijn veelbelovend. De AVQI lijkt een waardevol instrument om stemuitkomsten na totale laryngectomie te classificeren aangezien de uitkomsten sterk correleren met akoestische en perceptuele uitkomsten. In vervolgonderzoek zou het nuttig zijn om gespecificeerde afkappa-waarden te berekenen voor totale laryngectomie patiënten voor de uitkomsten op AVQI en VHI-10. In toekomstige studies is het ook van belang om het systematisch vastleggen en evalueren van stemuitkomsten over tijd voort te zetten. Hiermee kan een grotere dataset opgesteld worden en kan een voorspelmodel ontwikkeld worden om de stemuitkomsten te voorspellen voorafgaand aan de laryngectomie. Uiteindelijk kan dit bijdragen aan eerlijke en realistische voorlichting. In de voorlichting voorafgaand aan de operatie is het de aanbeveling om in te gaan op de verwachte uitkomst zodat de patiënt een weloverwogen keuze kan maken voor de behandeling.

Concluderend kunnen wij stellen dat tracheo-oesofageale stemgeving de voorkeursmethode is voor spraakrevalidatie. Vanuit dit onderzoek raden wij aan dat, indien mogelijk, deze methode aangeboden wordt aan patiënten die een totale laryngectomie ondergaan. Gedurende het hele traject van voorlichting en revalidatie is het van belang om de impact van de operatie op het dagelijks leven te bespreken. Hiermee kunnen patiënt-specifieke en interdisciplinaire revalidatiedoelen geformuleerd worden om bij te dragen aan een zo goed mogelijke uitkomst op het gebied van dagelijks functioneren en participatie.