

Ein Methodenvergleich in der Sprachtherapie bei juveniler und adulter Moyamoya-Erkrankung

Franziska Machleb

Universität Erfurt

1 Einleitung

Die Moyamoya-Erkrankung tritt spontan auf und führt zu Veränderungen in den zerebralen Gefäßstrukturen bei den Betroffenen. Am weitesten verbreitet ist die Moyamoya-Erkrankung („moyamoya“ jap. Nebel oder Rauch) im asiatischen Raum, vornehmlich in Japan und Korea (Kraemer, Heienbrok & Berlit, 2008)¹. Einige Studien beschäftigten sich mit der Ätiologie der Krankheit in anderen Ländern (Chiu, Shedden, Bratina & Grotta, 1998; Hallemeier et al., 2006; Kraemer et al., 2008; Mesiwala, Sviri, Fatemi, Britz & Newell, 2008; Suzuki & Kodama, 1983). Laut Horn, Vajkoczy und Schmiedek (2001) tritt die Moyamoya-Erkrankung in Europa sehr selten auf und ist daher auch wenig erforscht.

Im Laufe der Krankheit kann es zu neurologischen Defiziten im Rahmen von zerebralen Durchblutungsstörungen oder intrazerebralen Blutungen kommen (Burke et al., 2009; Chiu et al., 1998; Festa et al., 2010; Horn et al., 2001; Khan et al., 2003; Matushima, 1999; Mesiwala et al., 2008; Starke et al., 2009; Suzuki & Kodama, 1983; Takahashi & Miyamoto, 2010; Weinberg, Rahme, Aoun, Batjer & Bendok, 2011). Als deren Folge können kognitive und motorische Defizite bei den Betroffenen auftreten (Festa et al., 2010; Khan et al., 2003).

Die vorliegende Studie beschäftigt sich mit der Rehabilitation sprachlicher Defizite nach organischen Hirnschäden zweier Patienten mit Moyamoya-Erkrankung. Bislang gibt es keine vergleichbare Studie, die die Anwendung verschiedener Methoden in der Rehabilitation

¹ Für Japan gibt es Prävalenzraten, die in Burke et al. (2009) nachgelesen werden können.

aphasischer Sprachstörungen bei einer Moyamoya-Erkrankung beschreibt.

2 Theoretischer Hintergrund

Bei der Moyamoya-Erkrankung kommt es zu einem plötzlichen langsamen Verschluss der zerebralen Arterien im Bereich der Hirnbasis (z. B. Horn et al., 2001; Mesiwala et al., 2008; Starke et al., 2009; Suzuki & Kodama, 1983). Es gibt laut Horn und Kollegen zwei einander bedingende Krankheitsbereiche. Zunächst lagert sich Bindegewebe in den Arterien ab (sogenannte Fibrosierung; auch bei Takahashi & Miyamoto, 2010). Diese Verengungen beginnen in den distalen Karotisarterien und weiten sich langsam auf den vorderen Willis-Kreis aus (Burke et al., 2009; Horn et al., 2001; Mesiwala et al., 2008). Im weiteren Verlauf bildet sich aus den Arterien des vorderen Circulus Willisii ein Netz aus Kollateralgefäßen, welches die gestörte Durchblutung kompensieren soll und ein typisches Erscheinungsbild der Moyamoya-Erkrankung darstellt (Burke et al., 2009; Horn et al., 2001). Die neu gebildeten Gefäße sind ebenfalls pathologisch. Rupturen in den Kollateralen führen zu den typischen intrazerebralen Blutungen, die in der adulten Form der Moyamoya-Erkrankung gehäuft auftreten (Weinberg et al., 2011). Horn und Kollegen (2001) beschreiben zusätzlich die Bildung von extra-intrakraniell verlaufenden Kollateralgefäßen in einem fortgeschrittenen Krankheitsstadium.

Die Moyamoya-Erkrankung zeichnet sich grundsätzlich durch zwei verschiedene zeitliche Ausprägungen aus (z. B. Fukui, 1997; Jefferson, Glosser, Detre, Sinson & Liebeskind, 2006; Suzuki & Kodama, 1983), die sich unterschiedlich klinisch manifestieren und in verschiedenen Studien kontrovers diskutiert werden². Die juvenile

² Das japanische Gesundheitsministerium teilt die Erkrankung in vier Kategorien ein – ischämisch, hämorrhagisch, epileptisch und „andere“ (Burke et al., 2009; Weinberg et al., 2011). Es gibt aber auch die Annahme, dass sich verschiedene klinische Manifestationen der Erkrankung bei unterschiedlicher Herkunft der Betroffenen zeigen (Chiu et al., 1998; Hallemeier et al., 2006; Mesiwala et al., 2008; Starke et al., 2009).

Form hat ihren Krankheitshöhepunkt in der ersten Lebensdekade und ist geprägt von wiederkehrenden ischämischen Episoden (Burke et al., 2009; Horn et al., 2001). Als Ursache dafür ist vermutlich die inadäquate Durchblutung anzusehen (Weinberg et al., 2011). Laut Horn und Kollegen (2001) gehen den Attacken bei der juvenilen Form häufig Hyperventilation (ebenso Burke et al., 2009), Fieber und körperliche Aktivität voraus. Die adulte Form tritt zwischen dem 30. und 50. Lebensjahr auf und ist geprägt von spontanen intrazerebralen Blutungen (Burke et al., 2009; Horn et al., 2001). Als ursächlich dafür werden Rupturen der Kollateralen (Burke et al., 2009; Waga & Tochio, 1985; Weinberg et al., 2011) oder Aneurysmen im Willis-Kreis (Burke et al., 2009) angesehen. Häufig treten bei der adulten Form der Moyamoya-Erkrankung chronische Kopfschmerzen, transiente ischämische Attacken sowie neuropsychologische Veränderungen (z. B. schlechtere Belastbarkeit, Veränderungen in der Persönlichkeit und im Sozialverhalten) vor einem eventuellen hirnorganischen Geschehen auf (Horn et al., 2001).

Die Ursachen für die Moyamoya-Erkrankung sind bislang nicht eindeutig geklärt (Burke et al., 2009; Festa et al., 2010; Jefferson et al., 2006). Nicht zuletzt aufgrund der Tatsache, dass eine weibliche Dominanz für das Auftreten der Erkrankung beschrieben wird (z. B. Chiu et al., 1998; Suzuki & Kodama, 1983), werden auch genetische Ursachen diskutiert (Burke et al., 2009; Horn et al., 2001; Takahashi & Miyamoto, 2010).

Durch die Normalisierung der Durchblutung und Verringerung der Bildung von Kollateralgefäßen kann die Erkrankung klinisch geheilt werden (Horn et al., 2001; Weinberg et al., 2011). Es gibt die Möglichkeiten der medikamentösen und neurochirurgischen Therapie (Yamashiro, Takahashi & Takahashi, 1984), wobei letztere erfolgsversprechender ist (Fukui, 1997; Horn et al., 2001; Ross et al., 1994; Weinberg et al., 2011). Eine Revaskularisierungsoperation, bei der extra-intrakranielle Bypässe gelegt werden, stellt eine Möglichkeit der neurochirurgischen Intervention dar (z. B. Burke et al., 2009; Horn et al., 2001; Ross et al., 1994; Weinberg et al., 2011). Diese

wurde auch bei den an dieser Studie teilnehmenden Probanden angewendet. Während des Krankheitsverlaufs aufgetretene motorische oder kognitive Schäden lassen sich nur durch klassische Rehabilitationsmaßnahmen (z. B. Physiotherapie, Sprachtherapie) verbessern.

In der vorliegenden Studie werden die Ergebnisse der Behandlung einer Patientin mit juveniler sowie eines Patienten mit adulter Moyamoya-Erkrankung beschrieben. Der Fokus der Untersuchung lag auf der Behandlung der Wortabrufstörungen unter Zuhilfenahme verschiedener Therapiemethoden. Die Störungen im Wortabruf traten bei beiden Probanden nach dem vollständigen Spracherwerb auf, weshalb die Störungen als aphasisch eingestuft wurden.

Ziel der Untersuchung ist es, die Wirksamkeit der verwendeten Behandlungsmethoden bei dieser speziellen Erkrankung zu beschreiben. Dabei wird besonderes Augenmerk auf die Darstellung eventueller Nachhaltigkeits- und Generalisierungseffekte gelegt. Die Ergebnisse werden in bestehende Sprachproduktionsmodelle eingebettet. Für die Interpretation der Effekte wurden das Logogenmodell (Patterson & Shewell, 1987) sowie das Sprachproduktionsmodell nach Levelt (1989) herangezogen.

3 Probanden

Es nahmen zwei Probanden mit Moyamoya-Erkrankung an der Therapiestudie teil, die infolge ihrer Erkrankung hirnorganische Schäden erlitten hatten. Bei einer Probandin wurde die juvenile Form, bei dem anderen Probanden die adulte Form der Erkrankung diagnostiziert.

Bei beiden Teilnehmern waren aphasische Wortabrufstörungen das Hauptsymptom ihrer sprachlichen Defizite. Es lagen keine Dysarthrien oder Sprechapraxien vor. Bei beiden Moyamoya-Patienten waren mindestens 19 Monate nach dem letzten Ereignis vergangen. Somit befanden sie sich in der chronischen Phase ihrer Erkrankung. Keiner der Probanden litt an einer Bildverarbeitungsstörung.

3.1 DH

Die Probandin DH war zum Zeitpunkt der Erstuntersuchung 24 Jahre alt. Sie hatte zunächst die Realschule und dann eine Ausbildung zur Fachlageristin abgeschlossen. Die Rechtshänderin erlitt im Alter von 22 Jahren, also 19 Monate vor Beginn der Studie, erstmals einen linkshemisphärischen ischämischen Insult gefolgt von mehreren weiteren linksseitigen ischämischen Geschehen. Zunächst zeigte sich in einer CCT-Untersuchung ein temporo-dorsaler linksseitiger Hirninfarkt, der in der Angularisregion bis nach parietal lokalisiert wurde. Wenige Tage später konnte im CCT eine frische rechtstemporale Läsion festgestellt werden. Eine durchgeführte Angiographie zeigte eine starke Verengung der Arteria carotis interna rechts sowie einen Verschluss der Arteria carotis interna im kavernösen Segment. Es waren nur wenige Kollateralgefäße in diesem Bereich ausgebildet. Nochmals wenige Wochen später konnten weitere frische Infarktareale beidseitig hochparietal, im linken Putamen und im rechten Corpus nuclei caudati festgestellt werden. Sie erlitt durch die verschiedenen Infarkte epileptische Anfälle, eine rechtsseitige armbetonte Parese sowie eine Aphasie. Bereits während ihrer Kindheit traten bei DH starke atypische Kopfschmerzen auf, die möglicherweise aufgrund der Unbekanntheit der Moyamoya-Erkrankung selbst von ärztlicher Seite nicht näher diagnostiziert werden konnten. Fachärzte stuften ihre Erkrankung als juvenile Moyamoya-Erkrankung ein. DH wurde bilateral mit extra-intrakraniellen Bypässen versorgt.

3.2 TI

Der zum ersten Untersuchungszeitpunkt 64-jährige Bauunternehmer absolvierte zehn Schuljahre. Der Rechtshänder erlitt 104 Monate vor der Erstuntersuchung, im Alter von 55 Jahren, eine Subarachnoidalblutung nach der Ruptur eines Aneurysmas im Bereich des Ramus communicans anterior. Im weiteren Verlauf kam es zu mehreren Infarkten nach zerebralen Vasospasmen sowie einer intrazerebralen Blutung im Bereich der linken Arteria cerebri media bis hin zu den Stammganglien. Es wurde die Diagnose einer adulten Form der Moyamoya-Erkrankung angenommen. Bei TI war lediglich das linke Carotisstromgebiet von der Erkrankung betroffen. Durch die verschiedenen Infarkte erlitt TI eine starke armbetonte spastische Hemiparese rechts sowie eine Aphasie. Etwa ein Jahr nach der Subarachnoidalblutung wurde linksseitig ein extra-intrakranieller Bypass von der Arteria temporalis superficialis auf die Arteria cerebri media gelegt.

3.3 Einzelfalldiagnostik

Bei beiden Probanden wurde eine detaillierte modellorientierte neurolinguistische und kognitive Einzelfalldiagnostik durchgeführt, um den genauen individuellen funktionalen Störungsort beschreiben zu können. Die neurolinguistische Einzelfalldiagnostik wurde auf Grundlage des Logogenmodells (Patterson & Shewell, 1987) interpretiert. Als Testverfahren wurden unter anderem LEMO (De Bleser, Cholewa, Stadie & Tabatabaie, 2004), die Bogenhausener Semantik-Untersuchung (BOSU; Glindemann, Klintwort, Ziegler & Goldenberg, 2002) der Untertest Object Decision aus der Birmingham Object Recognition Battery (BORB; Riddoch & Humphreys, 1993) sowie die Testbatterie zur Aufmerksamkeitsprüfung (Zimmermann & Fimm, 2014) verwendet.

Auf Grundlage der Diagnostikergebnisse (für eine Übersicht der Ergebnisse zu allen Diagnostikzeitpunkten³ siehe Tab.1) wurde für beide Probanden eine Logogendiagnose gestellt. Bei DH und TI konnten keine Beeinträchtigungen in der auditiven Analyse und dem phonologischen Inputbuffer und maximal leichte Defizite in der semantischen Verarbeitung festgestellt werden. Die Beeinträchtigungen in der BOSU bei DH wurden vor dem Hintergrund ihrer Aufmerksamkeitsdefizite interpretiert. Laut den Autoren Glindemann und Kollegen (2002) müssen bei der Einschätzung der Ergebnisse in den Untertests *Sortieren nach semantischen Nebenmerkmalen* und *Sortieren nach Farben* die Aufmerksamkeitsleistungen beachtet werden. Störungen in diesen Bereichen sind nicht ausschließlich als semantische Verarbeitungsstörungen zu interpretieren. Bei DH konnten Aufmerksamkeitsdefizite festgestellt werden (siehe Tab. 1, Diagnostikzeitpunkt I), die als Auslöser für die leicht beeinträchtigten Leistungen in den Untertests der BOSU angesehen wurden. Daher war bei DH von einem maximal leichten semantischen Verarbeitungsdefizit auszugehen, das nicht ursächlich für die deutliche Wortabrufproblematik sein konnte. Bei TI war von gänzlich unbeeinträchtigten semantischen Verarbeitungsleistungen auszugehen. Es zeigten sich weiterhin Beeinträchtigungen im phonologischen Inputlexikon sowie im Zugriff auf das phonologische Outputlexikon beziehungsweise das phonologische Outputlexikon selbst. Die Benennleistungen bezüglich des Studienmaterials waren fluktuierend. Bei beiden Patienten war demnach eine postsemantische lexikalische Störung im Zugriff auf die phonologische Wortform als Störungsursache für die Wortabrufproblematik anzunehmen. TI war in der Ausprägung seiner Wortabrufstörung deutlich schwerer betroffen als DH. Bezüglich der Funktionsfähigkeit der auditiv-phonologischen Korrespondenzroute (APK) sowie dem phonologischen Outputbuffer konnten keine Aussagen getroffen werden.

³ Es wurde zu Beginn der Studie eine detaillierte Einzelfalldiagnostik durchgeführt (I), nach der ersten (II) und nach der zweiten Therapiephase (III) wurden einzelne Tests erneut erhoben, um Veränderungen in diesen Leistungen aufzeigen zu können.

Tabelle 1

Übersicht der Ergebnisse der Einzelfalldiagnostik zu den unterschiedlichen Testzeitpunkten (I, II, III)

Testverfahren	Ergebnisse der Probanden					
	DH			TI		
	I	II	III	I	II	III
Prälexikalische Ebene						
LEMO aud. Diskriminieren Neologismen (n=72)	68	n.d.	n.d.	71	n.d.	n.d.
Semantisch-lexikalische Ebene						
BOSU Situationen (n=10)	10	n.d.	n.d.	10	n.d.	n.d.
BOSU Hauptmerkmale (n=10)	10	n.d.	n.d.	10	n.d.	n.d.
BOSU Nebenmerkmale (n=10)	6	4	4	8	n.d.	n.d.
BOSU Farben (n=10)	9	9	10	10	n.d.	n.d.
LEMO aud. lex. Entscheiden (n=80)	67	66	65	64	63	62
LEMO aud. WBZ (n=20)	19	n.d.	n.d.	18	15	19
LEMO aud. Synonymieentscheiden mit semantischem Ablenker (n=40)	30	30	31	34	32	30
LEMO Benennen mündlich (n=20)	8	n.d.	11	11	n.d.	10
Nachsprechen						
LEMO Neologismen (n=40)	34	40	40	35	38	36
LEMO Wörter (n=40)	40	n.d.	n.d.	39	n.d.	n.d.
LEMO Fremdwörter (n=20)	20	n.d.	n.d.	19	n.d.	n.d.
LEMO mit Artikel (n=60)	40	54	52	33	33	51
LEMO Wortarten (n=90)	89	n.d.	n.d.	90	n.d.	n.d.
Pictogen-Komponente						
BORB Objektentscheiden (A:hard, n=32)	29	n.d.	n.d.	29	n.d.	n.d.
Aufmerksamkeit						
TAP Testbatterie zur Aufmerksamkeitprüfung, geteilte Aufmerksamkeit (T-Werte)	27	n.d.	39	>51	>51	n.d.

Legende: BOSU: Bogenhausener Semantik-Untersuchung, BORB: Birmingham Object Recognition Battery, WBZ: Wort-Bild-Zuordnen, aud.: auditiv, n.d.: nicht durchgeführt. Beeinträchtigte Leistungen sowie unterdurchschnittliche T-Werte sind fett markiert.

4 Methodik

4.1 Material

Das Studienmaterial bestand aus 180 Objektfotos monomorphematischer Einzelwörter⁴. Eine Untersuchung mit 25 ungestörten deutschen Muttersprachlern⁵ ergab eine mittlere Benennübereinstimmung des Materials von 95 %⁶. Das Bildmaterial wurde in vier verschiedene Sets unterteilt (siehe Abb. 1), welche bezüglich verschiedener linguistischer Parameter gleich gehalten wurden. Folgende Einflussgrößen wurden kontrolliert: Benennübereinstimmung, Belebtheit, Akzent, Erwerbssalter, Phonemanzahl, Silbenanzahl, initiales Phonem, logarithmische Frequenz, semantische Kategorie sowie die individuelle Benennleistung. Zwei Sets wurden therapiert, die anderen beiden Sets dienten als Kontrollsets.

Die Fotos wurden zentriert in eine Powerpoint-Präsentation eingefügt und in randomisierter Reihenfolge präsentiert.

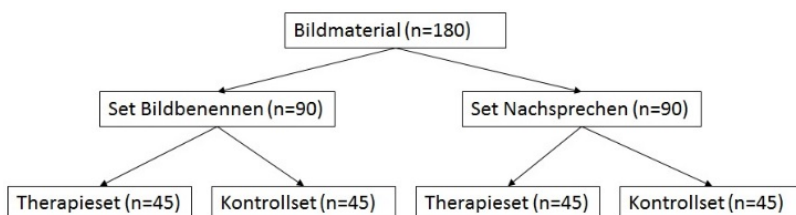


Abbildung 1. Setaufteilung des Therapiematerials

4.2 Studiendesign

Es wurde ein gekreuztes Therapiedesign angewendet, um Reihenfolgeeffekte der Therapiephasen ausschließen zu können. Beide Pro-

⁴ Das Wortmaterial stammt ebenso wie die Angaben zum Erwerbssalter und zur Frequenz aus Lorenz (2004).

⁵ 16 Versuchsteilnehmer waren weiblich, 9 waren männlich. Im Mittel waren die Personen 41,8 Jahre alt. Die Spanne lag zwischen 19 und 80 Jahren.

⁶ Die Spanne lag zwischen 80 und 100 %. Der Großteil des Materials (69 %) wurde zu 96 % von allen Versuchspersonen gleich benannt.

banden absolvierten nacheinander jeweils beide Therapiephasen (siehe Tab. 2). Die Reihenfolge der Therapiephasen variierte zwischen den Teilnehmern. Bei DH wurde zunächst die Therapiebedingung *Nachsprechen mit Bild* durchgeführt, es folgte das *Bildbenennen*. Bei TI wurde mit der Therapieaufgabe *Bildbenennen* begonnen. Das *Nachsprechen mit Bild* wurde als zweite Therapiebedingung durchgeführt. Vor und nach den Therapiephasen fanden jeweils eine ausführliche Einzelfalldiagnostik sowie eine multiple Voruntersuchung des Materials statt (Diagnostik I bis III, die genauen Ergebnisse der Einzelfalldiagnostik (I) inklusive erneuten Erhebungen (II und III) können Tabelle 1 entnommen werden).

Tabelle 2

Gekreuztes Studiendesign mit drei Diagnostikzeitpunkten

Phase	DH	TI
Diagnostik I		
Therapie I: 8 Sitzungen	Nachsprechen mit Bild	Bildbenennen
Diagnostik II		
Therapie II: 8 Sitzungen	Bildbenennen	Nachsprechen mit Bild
Diagnostik III		

4.3 Durchführung

Die Studie beinhaltete zwei verschiedene Therapiephasen – das *Nachsprechen mit Bild* sowie das *Bildbenennen*. Jede Therapiephase umfasste acht Sitzungen, in denen jeweils nur eine Methode angewendet wurde (siehe Tab. 2). Die Therapiesitzungen fanden einmal wöchentlich statt, wobei es zu Unterbrechungen durch Krankheit oder Urlaub kommen konnte.

Beim *Nachsprechen mit Bild* wurden den Probanden ein Bild und die phonologische Wortform präsentiert. Die Probanden sollten die korrekte Wortform dreimal wiederholen. Beim *Bildbenennen* wurden die Teilnehmer dazu angehalten zunächst einen Benennversuch zu unternehmen. Sie bekamen eine Rückmeldung über die Korrektheit

ihrer Reaktion mit der korrekten phonologischen Wortform. Diese sollte im Anschluss noch zweimal wiederholt werden. Die Wiederholung diente dazu, die Anzahl der Benennversuche über die Bedingungen gleich zu halten. Alle Bilder der Therapiesets ($n = 45$) wurden in jeder Sitzung dreimal in randomisierter Reihenfolge präsentiert. So fanden für jedes therapierte Bild in beiden Therapiephasen 72 Benennversuche statt. Alle Reaktionen wurden dokumentiert.

Nach Abschluss der Behandlung jeder Therapiephase fanden verschiedene Nachuntersuchungen der Benennleistung des Therapie- und Kontrollmaterials statt (Diagnostik II und III). Weiterhin wurden nach Abschluss der Therapie in den verschiedenen Bedingungen ausgewählte Testaufgaben aus der Einzelfalldiagnostik erneut erhoben, um eventuelle Veränderungen auf anderen Ebenen sichtbar zu machen (für eine Übersicht siehe Tab. 1).

5 Ergebnisse

Ziel der Untersuchung war es, die Wirksamkeit der beiden Therapiemethoden – *Nachsprechen mit Bild* und *Bildbenennen* – bei zwei Patienten mit Moyamoya-Erkrankung zu beschreiben. Dabei sollten Therapieeffekte, Generalisierungseffekte sowie die Nachhaltigkeit der Therapie im Fokus stehen. Dazu wurden die Benennleistungen an verschiedenen Zeitpunkten nach Abschluss der Behandlung erneut erhoben. Ebenso fand eine Nachuntersuchung anderer Testaufgaben (für eine Übersicht siehe Tab. 1) nach jeder Therapiebedingung statt, um eventuelle Veränderungen in diesen Bereichen aufzeigen zu können.

Das Bildmaterial sollte von jedem Probanden dreimal vor Beginn der jeweiligen Therapiephase benannt werden. Die Benennleistungen der Sets unterschieden sich bei beiden Probanden zu den drei Voruntersuchungszeitpunkten nicht signifikant voneinander (McNemar, zweiseitig, $p > .05$). Ebenso gab es keine signifikanten Unterschiede zwischen den Sets zu den verschiedenen Voruntersuchungszeitpunkten (exakter Test nach Fisher, zweiseitig, $p > .05$).

5.1 Nachsprechen mit Bild

Die Ergebnisse der Therapiebedingung *Nachsprechen mit Bild* wurden zunächst für das gesamte Set (Therapie- und Kontrollset, $n = 90$) analysiert. Dabei zeigten sich bei DH und TI unterschiedliche Ergebnisse. Bei DH verbesserten sich die Benennleistungen nach Ende der Behandlung kontinuierlich (siehe Abb. 2).

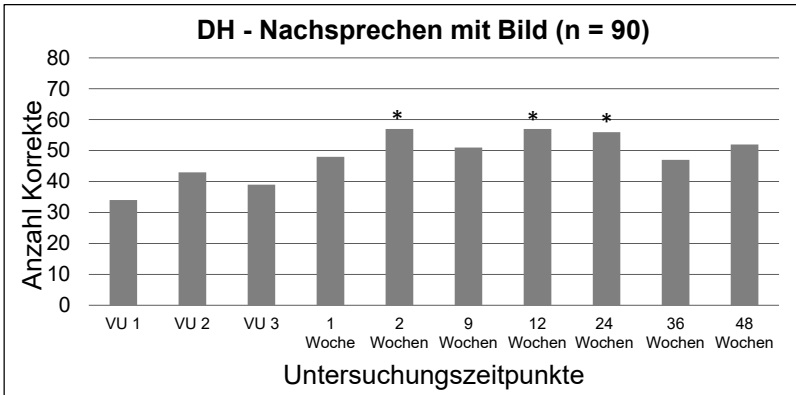


Abbildung 2. Benenergebnisse des gesamten Sets ($n = 90$) der Therapiebedingung Nachsprechen mit Bild bei DH. *Legende:* VU: Voruntersuchung, * : signifikante Veränderung (McNemar, zweiseitig, $p < .05$) im Vergleich zu allen drei Voruntersuchungen.

Zwei, zwölf und vierundzwanzig Wochen nach Abschluss der Therapie konnte das gesamte Set signifikant besser benannt werden als vor der Behandlung (McNemar, zweiseitig, $p < .05$). Zu allen anderen Nachuntersuchungszeitpunkten konnten keine signifikanten Effekte festgestellt werden (McNemar, zweiseitig, $p > .05$). TI hingegen zeigte zu keinem der Nachuntersuchungszeitpunkte signifikante Benennverbesserungen hinsichtlich des gesamten Sets ($n = 90$) verglichen mit den multiplen Voruntersuchungen (McNemar, zweiseitig, $p > .05$, siehe Abb. 3).

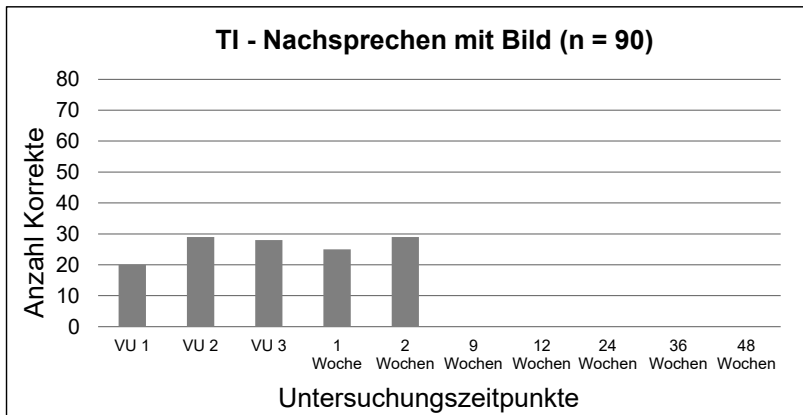


Abbildung 3. Benennergebnisse des gesamten Sets (n = 90) der Therapiebedingung Nachsprechen mit Bild bei TI. *Legende:* VU: Voruntersuchung.

Hinsichtlich der Benennleistungen aufgeschlüsselt nach Therapie- und Kontrollset (n = 45) konnten unterschiedliche Leistungen bei den Probanden festgestellt werden. DH zeigte kontinuierliche Benennverbesserungen in beiden Sets (siehe Abb. 4), wobei zu keinem Nachuntersuchungszeitpunkt ein Signifikanzniveau bezüglich des Benennens der therapierten Items erreicht wurde (McNemar, zweiseitig, $p > .05$). Es zeigten sich signifikante Generalisierungseffekte in den Benennleistungen der Kontrollbilder zwölf Wochen nach Abschluss der Behandlung (McNemar, zweiseitig, $p < .05$). Zu keinem Nachuntersuchungszeitpunkt konnten signifikante Unterschiede zwischen den Benennleistungen des Therapie- und Kontrollsets bei DH gefunden werden (exakter Test nach Fisher, zweiseitig, $p > .05$). TI zeigte ebenfalls weder im Therapie- noch im Kontrollset signifikante Benennverbesserungen (McNemar, zweiseitig, $p > .05$), wobei bei diesem Probanden auch keine kontinuierlichen Verbesserungen festgestellt werden konnten (siehe Abb. 5). Eine Woche nach Abschluss der Behandlung zeigte sich ein Trend zum verbesserten Benennen der therapierten Bilder verglichen mit den Kontrollbildern (exakter Test nach Fisher, zweiseitig, $p = .097$).

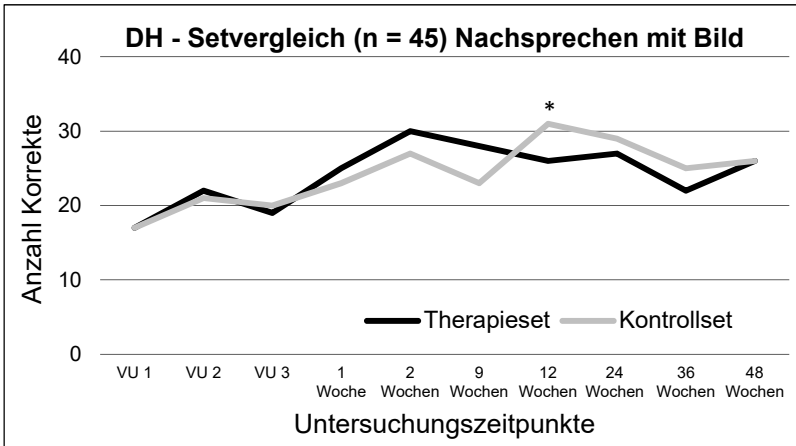


Abbildung 4. Benennungsergebnisse der verschiedenen Sets der Therapiebedingung Nachsprechen mit Bild bei DH. *Legende:* VU: Voruntersuchung, * : signifikante Veränderung (McNemar, zweiseitig, $p < .05$) im Vergleich zu allen drei Voruntersuchungen.

Zusätzlich konnten nach der Behandlung in der Therapiebedingung *Nachsprechen mit Bild* signifikante Leistungsverbesserungen in anderen Bereichen festgestellt werden (siehe Tab. 1, bei DH vergleiche Diagnostik I und II, bei TI vergleiche Diagnostik II und III). DH und TI zeigten beide signifikante Verbesserungen beim *Nachsprechen mit Artikel* (LEMO, McNemar, zweiseitig, $p < .001$). DH zeigte zusätzlich Verbesserungen im *Nachsprechen von Neologismen* (LEMO, McNemar, zweiseitig, $p = .031$).

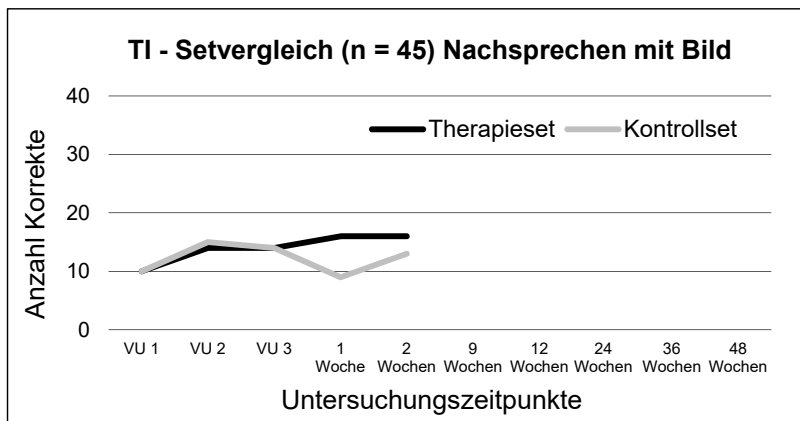


Abbildung 5. Benennergebnisse der verschiedenen Sets der Therapiebedingung Nachsprechen mit Bild bei TI. *Legende:* VU: Voruntersuchung.

5.2 Bildbenennen

Zunächst wurden die Benennleistungen des gesamten Sets (Therapie- und Kontrollset, $n = 90$) der Therapiebedingung *Bildbenennen* analysiert. Es zeigten sich signifikante Benennverbesserungen zu allen Untersuchungszeitpunkten nach Abschluss der Behandlung bei DH (McNemar, zweiseitig, $p < .05$, siehe Abb. 6). Bei TI konnten keine Effekte im Benennen des gesamten Sets ($n = 90$) eine, zwei, neun und zwölf Wochen nach Abschluss der Therapie festgestellt werden (McNemar, zweiseitig, $p > .05$, siehe Abb. 7).

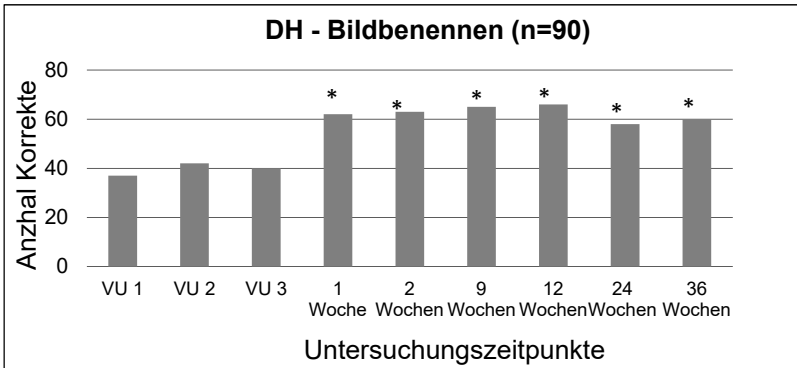


Abbildung 6. Benennergebnisse des gesamten Sets (n = 90) der Therapiebedingung Bildbenennen bei DH. *Legende:* VU: Voruntersuchung, * : signifikante Veränderung (McNemar, zweiseitig, $p < .05$) im Vergleich zu allen drei Voruntersuchungen.

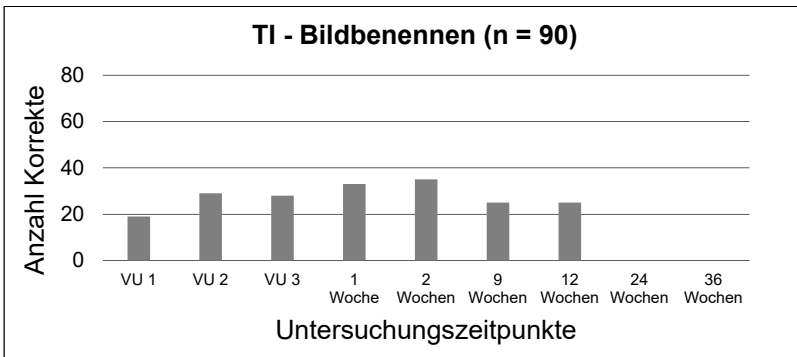


Abbildung 7. Benennergebnisse des gesamten Sets (n = 90) der Therapiebedingung Bildbenennen bei TI. *Legende:* VU: Voruntersuchung.

Bezüglich der individuellen Benennleistung des Therapie- und Kontrollsets zeigten sich bei DH signifikante itemspezifische Benennverbesserungen der therapierten Bilder (McNemar, zweiseitig, $p < .05$, siehe Abb. 8). Dieser Effekt hielt über 36 Wochen nach Abschluss der

Behandlung an (McNemar, zweiseitig, $p < .05$). Hinsichtlich der Kontrollbilder konnten bei DH zu keinem Nachuntersuchungszeitpunkt Benennunterschiede zu den Voruntersuchungen festgestellt werden (McNemar zweiseitig, $p > .05$). Ein Vergleich des Benennens im Therapie- und Kontrollset zeigte signifikant bessere Leistungen der trainierten Items eine, zwei, zwölf und 36 Wochen nach Abschluss der Behandlung (exakter Test nach Fisher, zweiseitig, $p < .05$). Auch TI zeigte zumindest zwei Wochen nach Abschluss der Therapie signifikante itemspezifische Benennverbesserungen der trainierten Bilder (McNemar, zweiseitig, $p < .05$, siehe Abb. 9). Die Benennunterschiede zwischen Therapie- und Kontrollset waren zwei Wochen nach Abschluss der Behandlung signifikant (exakter Test nach Fisher, zweiseitig, $p < 0.01$). Diese Effekte waren nicht anhaltend – neun Wochen nach Abschluss der Behandlung wurde das Therapieset signifikant schlechter benannt als zum zweiten Nachuntersuchungszeitpunkt (McNemar, zweiseitig, $p = .035$).

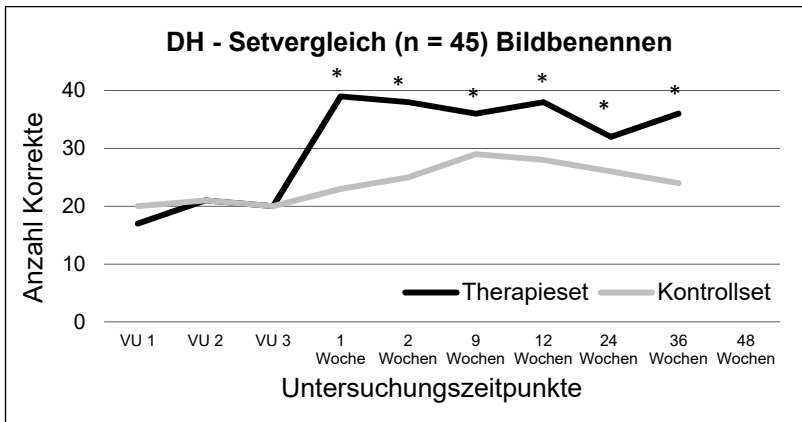


Abbildung 8. Benennergebnisse der verschiedenen Sets der Therapiebedingung Bildbenennen bei DH. *Legende:* VU: Voruntersuchung, * : signifikante Veränderung (McNemar, zweiseitig, $p < .05$) im Vergleich zu allen drei Voruntersuchungen.

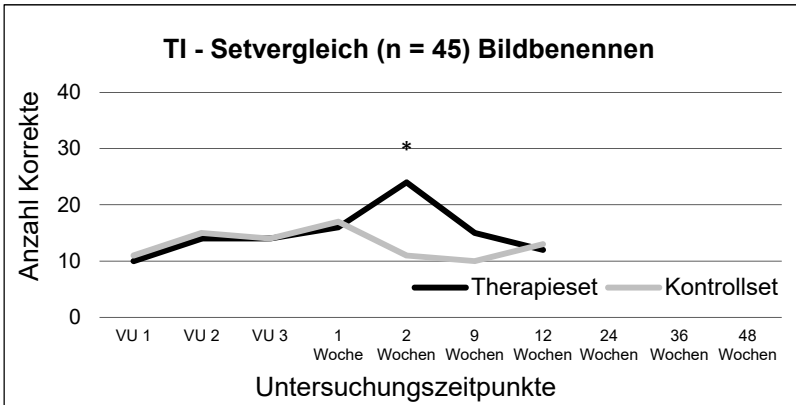


Abbildung 9. Benennergebnisse der verschiedenen Sets der Therapiebedingung Bildbenennen bei TI. *Legende:* VU: Voruntersuchung, * : signifikante Veränderung (McNemar, zweiseitig, $p < .05$) im Vergleich zu allen drei Voruntersuchungen.

Es wurden zusätzlich die Nachsprecheleistungen (*Nachsprechen von Neologismen* und *Nachsprechen mit Artikel* aus LEMO) nach Abschluss der Behandlung erneut erhoben. Bei beiden Probanden fanden sich keine signifikanten Unterschiede der Leistungen verglichen mit denen vor Beginn der Therapie (McNemar, zweiseitig, $p > .05$).

6 Diskussion

Es ist das Ziel der Studie, die Wirksamkeit des *Nachsprechens* und des *Bildbenennens* als Therapiemethode zur Behandlung von Wortabrufstörungen bei juveniler und adulter Moyamoya-Erkrankung zu beschreiben. Bislang gibt es keine vergleichbare Untersuchung mit dem Fokus auf der Behandlung sprachlicher Defizite bei Patienten mit der beschriebenen Krankheit, da sich die Forschungsliteratur größtenteils auf die Rehabilitation der Erkrankung im Rahmen neurochirurgischer Maßnahmen fokussiert (z. B. Chiu et al., 1998; Festa et al., 2010; Horn et al., 2001; Khan et al., 2003; Mesiwala et al., 2008; Starke et al., 2009; Suzuki & Kodama, 1983; Takahashi &

Miyamoto, 2010; Weinberg et al., 2011). Die Studie stellt damit einen neuen Aspekt in der Rehabilitation der Moyamoya-Erkrankung dar. Im Zentrum der Analyse standen der Wortabruf aus Einzelwortebene, die Nachhaltigkeit von Therapieeffekten, mögliche Generalisierungseffekte sowie Verbesserungen auf anderen Ebenen durch die therapeutische Intervention in verschiedenen Therapiebedingungen.

Zwei Probanden mit Moyamoya-Erkrankung nahmen an der Studie teil, die jeweils zwei Therapiephasen im gekreuzten Design absolvierten – das *Nachsprechen mit Bild* und das *Bildbenennen*.

Das *Nachsprechen mit Bild* führte zu unterschiedlichen Ergebnissen hinsichtlich der Benennleistung bei den beiden Moyamoya-Patienten. Bei DH zeigten sich an verschiedenen Nachuntersuchungszeitpunkten signifikante Benennverbesserungen bezüglich des gesamten Sets ($n = 90$). Die Benennleistungen des gesamten Sets zeigten bei TI keine signifikanten Veränderungen. Auch in der Analyse der Therapie- und Kontrollsets zeigten sich bei ihm keine Effekte. Bei DH hingegen konnte ein starker Trend zu verbesserten Benennleistungen der trainierten Items und eine Generalisierung auf ungeübtes Material festgestellt werden.

Zusätzlich kam es in dieser Therapiebedingung bei beiden Probanden zu Leistungsverbesserungen bei anderen Aufgaben: Bei beiden Patienten verbesserte sich das *Nachsprechen mit Artikel* signifikant, während das *Nachsprechen von Neologismen* nur bei DH eine Veränderung im Vergleich zu den Leistungen vor Beginn der Behandlung zeigte. Bei beiden Probanden ist demnach von einer Verbesserung des Zugriffs auf das phonologische Outputlexikon auszugehen, wobei sich dies bei TI auf den Abruf von Genusinformationen beschränkt. Am ehesten können diese Effekte vor dem Hintergrund des Sprachproduktionsmodells von Levelt (Levelt, 1989) erklärt werden, nach dem ein lexikalischer Eintrag in syntaktische Lemmainformationen und morpho-phonologische Forminformationen unterteilt werden kann. Dabei wird die Genusinformation durch den Zugriff auf die sogenannte Lemmaebene abgerufen, während die Wortform erst auf

der nächsten Stufe im morpho-phonologischen Formlexikon abgerufen wird. Bei TI kann auf Grundlage dieses Modells eine Verbesserung des Lemmaabrufs durch die Therapie in der Bedingung *Nachsprechen mit Bild* angenommen werden. Da sich keine Veränderungen im Benennen bei TI zeigten, wird keine Verbesserung auf morpho-phonologischer Formebene vermutet. DH zeigte allerdings Verbesserungen in beiden Bereichen. Diese Ergebnisse unterstützen demnach die Annahme der Fraktionierung der lexikalischen Einträge (vgl. Levelt, 1989).

Das Nachsprechen kann modelltheoretisch unter Zuhilfenahme verschiedener Routen erfolgen. Legt man das Logogenmodell zugrunde (Patterson & Shewell, 1987), kann zum einen semantisch-lexikalisch und zum anderen direkt-lexikalisch nachgesprochen werden. Beide Routen beziehen die Verarbeitung über die auditive Analyse, den auditiven Inputbuffer, das auditive Inputlexikon, das phonologische Outputlexikon und den phonologischen Outputbuffer mit ein. Nur die semantisch-lexikalische Route erfordert zusätzlich eine semantische Verarbeitung. Die dritte Möglichkeit stellt die sublexikalische Verarbeitung unter Verwendung der auditiven Analyse, des auditiven Inputbuffers, der auditiv-phonologischen Korrespondenzroute (APK) sowie des phonologischen Outputbuffers dar. Das *Nachsprechen mit Artikel* erfordert neben dem Nachsprechprozess den Abruf der Genusinformation aus dem phonologischen Outputlexikon. Aufgrund der signifikanten Leistungsverbesserungen beim *Nachsprechen mit Artikel* kann bei beiden Probanden von einer lexikalischen Verarbeitung während der Therapie ausgegangen werden. Bei DH wird diese Hypothese durch die Benennverbesserungen in Therapie- und Kontrollset untermauert.

Anhand der modellorientierten Einzelfalldiagnostik (in Anlehnung an das Logogenmodell) konnten bei beiden Probanden vor Beginn der Therapie keine eindeutigen Aussagen über die Funktionsfähigkeit der APK sowie des phonologischen Outputbuffers getroffen werden. Es ist anhand der Daten nach Abschluss der Therapiebedingung *Nachsprechen mit Bild* davon auszugehen, dass bei DH zusätzlich

Beeinträchtigungen im phonologischen Outputbuffer und bei TI in der APK vorlagen. Bei beiden Probanden wird von einer lexikalischen Verarbeitung während der Therapie ausgegangen. Da es bei DH zusätzlich zu signifikanten Verbesserungen beim *Nachsprechen von Neologismen* kam, welche ausschließlich sublexikalisch verarbeitet werden können, und die auditive Analyse sowie der auditive Inputbuffer als unbeeinträchtigt eingestuft werden konnten, ist von einer initialen Beeinträchtigung des phonologischen Outputbuffers auszugehen. Der phonologische Outputbuffer stellt im Logogenmodell die einzige Schnittstelle zwischen lexikalischem und sublexikalischem Output dar. Bei TI zeigten sich keine Verbesserungen in den Nachsprechleistungen von Neologismen. Daher kann von einer initial unbeeinträchtigten phonologischen Outputbufferleistung ausgegangen werden. Da sich die Nachsprechleistungen mit Artikel verbesserten, wäre auch von einer Verbesserung des Outputbuffer bei zugrundeliegender Störung auszugehen. Daher ist es wahrscheinlicher, dass bei TI die APK Auslöser für die Beeinträchtigungen beim *Nachsprechen von Neologismen* darstellt.

Durch das *Bildbenennen* konnten itemspezifische Effekte bezüglich der therapierten Bilder bei beiden Probanden erzielt werden. Bei DH waren diese Effekte bis 36 Wochen nach Abschluss der Behandlung nachweisbar. Die Benennverbesserungen bei TI waren kurzfristig und konnten ausschließlich zwei Wochen nach Abschluss der Behandlung nachgewiesen werden. Generalisierungseffekte auf ungeübtes Material waren bei beiden Probanden nicht nachweisbar.

Modelltheoretisch erfordert der Versuch ein Bild zu benennen eine lexikalische Verarbeitung und somit auch den Zugriff auf den lexikalischen Eintrag im phonologischen Output. Da keine zusätzlichen Verbesserungen auf anderen Ebenen festgestellt wurden, kann bei DH und TI davon ausgegangen werden, dass sich der Zugriff auf das phonologische Outputlexikon verbessert hat. Diese Leistungssteigerung beschränkt sich bei beiden Probanden auf die therapierten Wörter, wodurch nicht von einer generellen Verbesserung eines Mecha-

nismus auszugehen ist. Vielmehr scheint der Zugriff für die therapierten Wörter erleichtert, möglicherweise auch durch eine stärkere Repräsentation oder niedrigere Aktivierungsschwelle im phonologischen Outputlexikon.

Beide Therapieaufgaben konnten wirkungsvolle Effekte erzielen, wobei sich diese lediglich bei DH im Benennen widerspiegeln. Durch das *Nachsprechen* konnte sogar eine Generalisierung der therapeutischen Effekte auf ungeübtes Material festgestellt werden. Auffällig sind hierbei noch die Verbesserungen des phonologischen Outputbuffers. Diese generelle Verbesserung der Bufferleistung könnte dazu geführt haben, dass der Wortabruf verbessert erscheint. Die Speicherkapazität ist eine globalere Leistung, was die Generalisierungseffekte erklären könnte. Bei TI, bei dem schon initial gute Bufferleistungen vorlagen, zeigten sich keine Effekte im Benennen durch die Therapiebedingung *Nachsprechen*. Bei beiden Probanden konnten aber Verbesserungen im Zugriff auf syntaktische Informationen des lexikalischen Eintrags festgestellt werden. Auch das Bildbenennen führte zu Verbesserungen im Wortabruf. Diese waren jedoch bei beiden Probanden auf die therapierten Bilder beschränkt und nur bei DH anhaltend. Dies spricht dafür, dass entweder der Zugriffsmechanismus für die therapierten Wörter durch die Therapie erleichtert wurde oder für eine stärkere Repräsentation im phonologischen Outputlexikon.

Fraglich ist, warum die Effektivität der Behandlung sich bei den beiden Probanden so stark unterscheidet. Generell zeigten sich stärkere Leistungsverbesserungen bei DH in beiden Therapiebedingungen. Diese Probandin zeigte grundsätzlich auch einen geringeren Schweregrad ihrer sprachlichen Beeinträchtigungen. Es ist möglich, dass der Schweregrad einer Störung einen Einfluss auf die Wirksamkeit der Therapie hatte. Die Behandlung weiterer Moyamoya-Patienten mit unterschiedlichen Schweregraden könnte hierbei Aufschluss geben.

Eine weitere Erklärungsmöglichkeit für die Unterschiede in der Effektivität der Therapie liegt im Alter der Probanden begründet. Während sich DH in ihren Zwanzigern befand, war TI zum Zeitpunkt der Erstuntersuchung bereits 64 Jahre alt. Die Plastizität des Gehirns könnte einen Einfluss auf die Therapieeffektivität haben. In der Literatur wurde beschrieben, dass sich bei Moyamoya-Patienten die ischämischen Geschehen sowie die Durchblutung nach einer Revaskularisierungsoperation innerhalb von sechsunddreißig Monaten normalisierten (Horn et al., 2001). Auch andere Forschergruppen beschreiben Verbesserungen der generellen Perfusion des Gehirns nach solchen Operationen (z. B. Jefferson et al., 2006). Bei TI waren schon mehr als neun Jahre nach der neurochirurgischen Therapie vergangen. Die Durchblutung sollte sich bereits vor Beginn der Behandlung normalisiert haben. Es könnte aber sein, dass bei DH eine Verbesserung der Perfusion zu solch starken Effekten geführt hat. Einen weiteren Hinweis darauf liefern die Ergebnisse der Aufmerksamkeitsprüfung bei DH (siehe Tab. 1). Ähnliche Effekte wurden von Khan und Kollegen (Khan et al., 2003) beschrieben. Es stellten sich nach der Studie deutliche Verbesserungen in der Aufmerksamkeitsleistung ein. Grundsätzlich ist weitere Forschung nötig, um einen Zusammenhang zwischen neurologischen Charakteristika und der Rehabilitation der Moyamoya-Erkrankung herzustellen. Da bislang keine Studien zur sprachlichen Rehabilitation der Moyamoya-Erkrankung veröffentlicht wurden, ist mehr Forschung nötig, um Eigenheiten der Erkrankung, auch in Abgrenzung zu anderen aphasischen Grunderkrankungen, zu erklären.

7 Literatur

- Burke, G. M., Burke, A. M., Sherma, A. K., Hurley, M. C., Batjer, H. H. & Bendok, B. R. (2009). Moyamoya disease: A summary. *Neurosurgical Focus*, *26*, E11.
- Chiu, D., Shedden, P., Bratina, P. & Grotta, J.C. (1998). Clinical Features of Moyamoya Disease in the United States. *Stroke*, *29*, 1347–1351.
- De Bleser, R., Cholewa, J., Stadie, N. & Tabatabaie, S. (2004). *LEMO - Lexikon modellorientiert: Einzelfalldiagnostik bei Aphasie, Dyslexie und Dysgraphie*. München: Urban Fischer.
- Festa, J.R., Schwarz, L.R., Pliskin, N., Cullum, C.M., Lacritz, L., Charbel, F.T., ... Lazar, R.M. (2010). Neurocognitive dysfunction in adult moyamoya disease. *Journal of Neurology*, *257*(5), 806–815.
- Fukui, M. (1997). Current state of study on moyamoya disease in Japan. *Surgical Neurology*, *47*(2), 138–43.
- Glindemann, R., Klintwort, D., Ziegler, W. & Goldenberg, G. (2002). *Bogenhausener Semantik-Untersuchung*. München: Urban & Fischer Verlag.
- Hallemeier, C.L., Rich, K.M., Grubb, R.L., Chicoine, M.R., Moran, C.J., Cross, D.T., ... Derdeyn, C.P. (2006). Clinical Features and Outcome in North American Adults With Moyamoya Phenomenon. *Stroke*, *37*(6), 1490–1496.
- Horn, P., Vajkoczy, P. & Schmiedek, P. (2001). Diagnostik und Therapie der Moyamoya-Erkrankung. *Deutsches Ärzteblatt*, *98*(18), 1190–1195.
- Jefferson, A.L., Glosser, G., Detre, J.A., Sinson, G. & Liebeskind, D.S. (2006). Neuropsychological and perfusion MR imaging correlates of revascularization in a case of moyamoya syndrome. *American Journal of Neuroradiology*, *27*(1), 98–100.

- Khan, N., Schuknecht, B., Boltshauser, E., Capone, A., Buck, A., Imhof, H. G. & Yonekawa, Y. (2003). Moyamoya disease and Moyamoya syndrome: experience in Europe; choice of revascularisation procedures. *Acta Neurochirurgica*, *145*(12), 1061–1071.
- Kraemer, M., Heienbrok, W. & Berlit, P. (2008). Moyamoya disease in Europeans. *Stroke*, *39*(12), 3193–3200.
- Levelt, W. J. M. (1989). *Speaking. From Intention to Articulation*. Cambridge, MA: MIT Press.
- Lorenz, A. (2004). *Die Behandlung von Wortabrufstörungen bei Aphasie: Eine methodenvergleichende Studie zum Bildbenennen*. Potsdam, Universität Potsdam.
- Matsumoto, Y. (1999). Moyamoya disease. In L. Albright, I. Pollack & D. Adelson (Hrsg.), *Principles and Practice of pediatric neurosurgery* (1053–1069). New York: Thieme Medical Publishers.
- Mesiwala, A. H., Svirni, G., Fatemi, N., Britz, G. W. & Newell, D. W. (2008). Long-term outcome of superficial temporal artery–middle cerebral artery bypass for patients with moyamoya disease in the US. *Neurosurgical FOCUS*, *24*(2), E15.
- Patterson, K. E. & Shewell, C. (1987). Speak and spell: Dissociations and word-class effects. In M. Coltheart, G. Sartori & R. Job (Hrsg.), *The Cognitive Neuropsychology of Language* (273–294). London: Lawrence Erlbaum.
- Riddoch, J. M. & Humphreys, G. W. (1993). *BORB: Birmingham Object Recognition Battery*. Hove: Lawrence Erlbaum.
- Ross, I. B., Shevell, M. I., Montes, J. L., Rosenblatt, B., Watters, G. V., Farmer, J. P. & O’Gorman, A. M. (1994). Encephaloduroarterio-synangiosis (EDAS) for the treatment of childhood Moyamoya disease. *Pediatric Neurology*, *10*(3), 199–204.

- Starke, R. M., Komotar, R. J., Hickman, Z. L., Paz, Y. E., Pugliese, A. G., Otten, M. L. & Garrett, M. C. (2009). Clinical features, surgical treatment, and long-term outcome of adult Moyamoya Patients. *Journal of Neurosurgery*, *111*(5), 936–942.
- Suzuki, J. & Kodama, N. (1983). Moyamoya Disease: A Review. *Stroke*, *14*(1), 104–109.
- Takahashi, J. C. & Miyamoto, S. (2010). Moyamoya disease: Recent progress and outlook. *Neurologia Medico-Chirurgica*, *50*, 824–832.
- Waga, S. & Tochio, H. (1985). Intracranial aneurysm associated with Moyamoya disease in childhood. *Surgical Neurology*, *23*(3), 237–243.
- Weinberg, D. G., Rahme, R. J., Aoun, S. G., Batjer, H. H. & Bendok, B. R. (2011). Moyamoya disease: Functional and neuro-cognitive outcomes in the pediatric and adult populations. *Neurosurgical FOCUS*, *30*(6), E21.
- Yamashiro, Y., Takahashi, H. & Takahashi, K. (1984). Cerebro-vascular Moyamoya disease. *European Journal of Pediatrics*, *142*, 44–50.
- Yamashita, M., Oka, K. & Tanaka, K. (1983). Histopathology of the brain vascular network in Moyamoya. *Stroke*, *14*, 50–58.
- Zimmermann, P. & Fimm, B. (2014). TAP. Testbatterie zur Aufmerksamkeitsprüfung. Herzogenrath: Vera Fimm - Psychologische Testsysteme.

Kontakt

Franziska Machleb

Franziska.machleb@uni-erfurt.de