

Université de Montréal

Les bénéfices du chant dans la réadaptation de l'aphasie

par

Anna Zumbansen

École d'orthophonie et d'audiologie

Faculté de médecine

Août 2014

Thèse présentée à la Faculté des études supérieures en vue de l'obtention du grade de
Philosophiæ Doctor (Ph.D.) en Sciences biomédicales option Orthophonie

© Anna Zumbansen, 2014

Résumé

Les personnes ayant une aphasie, un trouble acquis du langage causé par une lésion cérébrale, parviennent temporairement à mieux prononcer des mots quand elles les chantent dans des chansons familières ou en chant choral. Dans cette thèse nous examinons comment le chant peut entraîner des bénéfices durables sur le langage et la communication de ces personnes. Deux contextes sont envisagés : (1) une thérapie chantée de l'aphasie, la *Melodic intonation therapy* en anglais (MIT), et (2) une activité de loisir, une chorale de personnes aphasiques. La première étude de cette thèse (Chapitre 2) est une recension critique de la variété de recherches dont la MIT a fait l'objet. Nous soutenons que plusieurs protocoles de traitement présentés sous le label MIT ne correspondent pas à la MIT originale et que les effets immédiats du chant, qui sont examinés dans des études transversales, ne devraient pas être confondus avec les effets durables, observés dans des études longitudinales. Cette grille de lecture permet de réconcilier des conclusions d'études contradictoires à propos des mécanismes de la MIT et met en évidence des questions de recherches en suspens, notamment sur la contribution relative du rythme et de la hauteur musicale dans les effets de cette thérapie, que nous traitons dans le troisième chapitre. Nous y rapportons une étude avec trois participants ayant une aphasie de Broca chronique. Trois traitements ont été comparés dans un devis en carré latin : une thérapie comportant de la parole chantée (i.e., avec rythme et hauteurs musicales) proche de la MIT originale, une thérapie équivalente avec de la parole uniquement rythmée, et une thérapie comportant de la parole normale. Puisque seule la thérapie chantée a amélioré le langage dans le discours naturel des participants, nous soutenons que le chant dans son entièreté est un élément actif de la MIT. Enfin, dans le quatrième chapitre, nous présentons la première étude de groupe contrôlée, randomisée et à simple insu tentant de déterminer si le chant pratiqué comme simple loisir peut aussi avoir un effet bénéfique dans la réadaptation de l'aphasie. Nous avons comparé les progrès en communication fonctionnelle de 17 personnes ayant différents types

d'aphasies chroniques réparties dans un groupe *chorale*, où elles devaient participer à six mois d'activité hebdomadaire de chorale, un groupe *théâtre*, où elles devaient suivre un atelier de théâtre, et une *liste d'attente* pour ces deux activités seulement. Nos résultats ont montré une corrélation positive entre l'amélioration de la communication fonctionnelle et le nombre de présences aux activités sociales, quelles qu'elles soient, mais nous n'avons pas trouvé d'effet spécifique à l'activité de chorale. Ainsi, la pratique du chant en chorale pourrait avoir un potentiel thérapeutique général, mais pas spécifique à l'utilisation du chant. D'autres études sont toutefois nécessaires pour le confirmer. Ainsi, cette thèse soutient globalement que dans la réadaptation de l'aphasie, le chant apporte des bénéfices spécifiques sur le langage lorsqu'il est intégré dans une thérapie comme la MIT et des bénéfices comparables à d'autres activités sociales lorsqu'il est pratiqué comme activité de loisir dans une chorale.

Mots-clés : aphasie, réadaptation, thérapie, orthophonie, musicothérapie, chant, musique, langage, communication

Abstract

People with aphasia, an acquired disorder of language caused by brain injury, can temporarily better pronounce words when they sing them as part of familiar songs or in choral singing with a model they can imitate. In this thesis, we examine how singing can lead to lasting benefits on the linguistic and communicative abilities of these people. Two contexts are considered: (1) an aphasia therapy based on singing, the Melodic Intonation Therapy (MIT), and (2) a recreational choir activity for people with aphasia. Our first study (Chapter 2) presents a critical review of studies having centered on MIT. We argue that several treatment protocols subsumed under the rubric of MIT do not in fact correspond well to the original MIT specification and that immediate effects of singing studied in cross-sectional studies should not be confused with the lasting effects observed in longitudinal studies. This interpretative framework makes it possible to reconcile the findings of contradictory studies concerning the mechanisms of MIT and highlights yet unresolved research questions, including the relative contribution of rhythm and pitch to the effects of this therapy. This latter question forms the central topic of our third chapter in which we report a study with three chronic Broca's aphasia patients. Three treatments were compared in a Latin square design: a therapy using sung speech (i.e., with both rhythm and pitch) closely resembling that of the original MIT, an equivalent therapy using only rhythmic speech, and a therapy with normal speech. Since only the full singing therapy improved the natural speech of participants, we argue that the rhythm and pitch combination in singing is most effective for MIT. Finally, in the fourth chapter we present the first randomized, controlled, and single-blinded group study aiming to determine if recreational singing can also be beneficial in the rehabilitation of aphasia. We evaluated the progress in functional communication for 17 people with different types of chronic aphasia during six months of weekly activity in either a choir group, a drama group, or a waiting list group that participated in neither of these activities. Our results showed a positive correlation between improvement in functional

communication and attendance to any and all social events in which participants were involved, but we did not find any specific effect of choir activity. Thus, the practice of choral singing may have a general therapeutic potential, but not one specific to singing. Further studies are needed to confirm this. Thus, this thesis maintains that in the rehabilitation of aphasia, singing brings specific benefits to language when integrated into a therapy such as MIT and benefits comparable to other social activities when it is practiced as a leisure activity in a choir.

Keywords : aphasia, rehabilitation, therapy, speech-language pathology, music-therapy, singing, music, language, communication

Table des Matières

Résumé.....	i
Abstract	iii
Table des Matières.....	v
Liste des Figures	viii
Liste des Tableaux.....	viii
Liste des Abréviations	ix
Remerciements.....	xi
Chapitre 1 - Introduction générale	1
1.1 Mise en contexte du problème.....	1
1.2 Cadres définitoires	4
1.2.1 Thérapie et effet thérapeutique.....	4
1.2.2 Définition de l'aphasie.....	5
1.2.3 Identification clinique des principaux syndromes aphasiques de la classification de Boston	9
1.2.4 L'aphasie de Broca	11
1.2.5 Objectifs et évaluations des thérapies orthophoniques de l'aphasie	12
1.3 Le chant pour la réadaptation des personnes aphasiques.....	16
1.3.1 Préservation des habiletés de chant dans l'aphasie.....	16
1.3.2 Production des paroles dans le chant des personnes aphasiques	18
1.3.3 Thérapies de l'aphasie faisant usage du chant.....	19
1.3.3.1 Speech-Music Therapy for Aphasia (SMTA).....	19
1.3.3.2 Singen, Intonation, Prosodie, Atmung, Rhythmus, Improvisation (SIPARI).....	20
1.3.3.3 Le protocole de musicothérapie de Kim & Tomaino pour l'aphasie non fluente	21
1.3.3.4 Melodic Intonation Therapy (MIT).....	21
1.3.4 Effets thérapeutiques du chant dans une chorale sur la réadaptation des personnes aphasiques	22
1.3.5 Conclusion	23
1.4 Objectifs et plan de cette thèse.....	23
Chapitre 2 - Melodic Intonation Therapy: Back to basics for future research.....	25
2.1 Abstract.....	26
2.2 Introduction.....	27
2.3 MIT and its variations	28
2.3.1 Goal of the original MIT	28
2.3.2 Rationale of the original MIT program	29
2.3.3 Variations of MIT and implications in efficacy studies	31
2.3.3.1 The intoned-speech facilitation technique versus the MIT program	31
2.3.3.2 Analysis of MIT's modifications in two recent systematic reviews.....	33
2.3.4 Concluding remarks	35
2.4 Mechanisms	36
2.4.1 Role of the right cerebral hemisphere.....	36

2.4.2	Mechanisms of the intoned-speech facilitation technique (cross-sectional studies)	39
2.4.2.1	Singing along rather than singing alone	39
2.4.2.2	Contribution of rhythm and pitch variation in the intoned-speech facilitation technique	41
2.4.3	Contribution of musical components in language recovery after MIT (longitudinal studies)	43
2.5	MIT for apraxia of speech	45
2.6	Conclusion	47
2.7	References	48
2.8	Appendix I: tables	55
Chapitre 3 - The combination of rhythm and pitch can account for the beneficial effect of Melodic Intonation Therapy on connected speech improvements in Broca's aphasia		
3.1	Abstract	60
3.2	Introduction	61
3.3	Materials and methods	65
3.3.1	Participants	65
3.3.2	Verbal material	68
3.3.3	Treatments	70
3.3.4	General procedure	73
3.3.5	Assessment of treatment outcomes	73
3.4	Results	75
3.4.1	Primary outcome – Generalization effects to language in connected speech	75
3.4.2	Secondary outcomes	77
3.4.2.1	Direct and indirect treatment effects	77
3.4.2.2	Measure of motor-speech agility	81
3.4.2.3	Mood	81
3.5	Discussion	81
3.6	Acknowledgements	87
3.7	References	88
Chapitre 4 - Effect of choir activity in the rehabilitation of aphasia: a blind, randomized, controlled study		
4.1	Abstract	94
4.2	Introduction	95
4.3	Methods	98
4.3.1	Study design	98
4.3.2	Participants	98
4.3.3	Interventions	105
4.3.4	Outcomes and testing material	106
4.3.4.1	Primary outcome - Functional communication	106
4.3.4.2	Secondary outcomes - Speech and language skills	106
4.3.4.3	Secondary outcomes - Mood	108
4.3.4.4	Secondary outcomes – Quality of life	108
4.3.5	Statistical analyses	109
4.4	Results (Table 4.5)	110
4.4.1	Attendance to social activities	110
4.4.1.1	Choir attendance	110
4.4.1.2	Drama attendance	110
4.4.1.3	Social activities (including choir, drama and other social activities)	110
4.4.2	Primary outcomes – Functional communication	111

4.4.2.1	General functional communication	111
4.4.2.2	Verbal functional communication.....	111
4.4.2.3	Non-verbal functional communication	112
4.4.3	Secondary outcomes – Speech-language skills and Mood.....	113
4.4.3.1	Speech and language skills.....	113
4.4.3.2	Mood.....	115
4.4.3.3	Quality of life	119
4.4.4	Summary.....	119
4.5	Discussion.....	120
4.6	Conclusion.....	125
4.7	Acknowledgements	126
4.8	References	127
Chapitre 5 - Discussion générale		132
5.1	Introduction.....	132
5.2	Résumé des objectifs et apports des trois études de cette thèse	132
5.3	Comment le chant peut-il être bénéfique dans la réadaptation de l'aphasie ?	135
5.3.1	Différentes thérapies chantées ont différents effets et mécanismes.....	135
5.3.2	Effets des thérapies chantées de l'aphasie	136
5.3.3	Mécanismes de l'utilisation du chant dans les thérapies de l'aphasie.....	139
5.3.4	Le chant en chorale comme activité de loisir.....	142
5.3.5	Une chorale MIT?.....	147
5.4	Qui veut chanter?	147
5.5	Conclusion.....	148
Bibliographie		149

Liste des Figures

Figure 2.1:.....	32
Figure 3.1:.....	70
Figure 3.2:.....	76
Figure 3.3:.....	80
Figure 4.1:.....	99
Figure 4.2:.....	119

Liste des Tableaux

Table 2.1:.....	55
Table 2.2:	57
Table 3.1:	66
Table 3.2:	67
Table 3.3:	72
Table 3.4:.....	79
Table 4.1:	100
Table 4.2:	101
Table 4.3:	104
Table 4.4:	105
Table 4.5:.....	117

Liste des Abréviations

AAN : American Academy of Neurology
ABA2 : Apraxia battery for adults – second edition
AOS : Apraxia Of Speech
CIU : Correct Information Units
CONSORT : Consolidated Standards of Reporting Trials
DTI : Diffusion Tensor Imaging
fMRI : Functional Magnetic Resonance Imaging
LH : Left Hemisphere
MBEMA : Montreal Battery of Evaluation of Musical Abilities
MEG : Magnetoencephalography
MIT : Melodic Intonation Therapy
MT : Melodic Therapy
MT-86 : Protocole Montréal-Toulouse d'examen linguistique de l'aphasie - 86
PACE : Promoting Aphasic Communicative Effectiveness
PEGV : Protocole d'Évaluation des Gnosies Visuelles
PET : Positron Emission Tomography
RH : Right Hemisphere
RT : Rhythmic Therapy
SIP65 : Sickness Impact Profile – 65 items
SIPARI : Singen, Intonation, Prosodie, Atmung, Rhythmus, Improvisation
SMTA : Speech-Music Therapy for Aphasia
SPECT : Single-Photon Emission Computed Tomography
ST : Spoken Therapy
TMR : Thérapie Mélodique et Rythmée
TOL-DX : Tower of London – Dextrel University
VAMS : Visual Analog Mood Scales
WAIS-III : Wechsler Adult Intelligence Scale – third Edition
WHO : World Health Organization
WMS-III : Wechsler Memory Scale – third edition

À Élisabeth Fresnel et Sophie Lair-Berreby

Remerciements

J'aimerais tout d'abord mentionner le rôle déterminant de professeurs de l'École d'orthophonie et d'audiologie de l'Université de Montréal dans ma décision d'entreprendre des études doctorales. Orthophoniste française fraîchement arrivée au Québec, la maîtrise que je devais valider pour obtenir une simple équivalence de diplôme m'a finalement permis de rencontrer des chercheurs d'excellence qui m'ont à la fois donné l'ouverture sur la recherche en orthophonie et l'envie d'y prendre une part active. La présence de certains d'entre eux dans le jury de cette thèse m'honore et je remercie tous les membres du jury pour leur intérêt à lire le résultat de cette recherche sur les bénéfices du chant dans la réadaptation de l'aphasie.

Ma profonde reconnaissance va aux Professeures Sylvie Hébert et Isabelle Peretz, qui m'ont supervisée pendant cette thèse. Leur disponibilité sans faille, leur honnêteté dans nos discussions, leurs encouragements et les conditions de travail matérielles et humaines exceptionnelles qu'elles m'ont offertes au laboratoire BRAMS (Brain, Music and Sound) et au Centre de Recherche de l'Institut Universitaire de Gériatrie de Montréal (CRIUGM) sont sans aucun doute à la base de la qualité du présent travail.

Je remercie les institutions qui m'ont soutenue financièrement pendant ces études doctorales, à commencer par l'Université de Montréal, le Conseil de Recherches en Sciences Naturelles et en Génie du Canada (CRSNG) et le Réseau de Bio-Imagerie du Québec (RBIQ), ainsi que celles qui ont financé la réalisation des recherches expérimentales de cette thèse : le centre de recherche CRBLM (Centre for Research on Brain, Language and Music) et le Comité Aviseur pour la Recherche Clinique (CAREC) du CRIUGM.

Les études expérimentales de cette thèse ont été réalisées grâce à la collaboration tripartite de chercheurs, de cliniciens et de personnes aphasiques. Du côté de l'équipe de recherche, j'aimerais remercier Isabelle Marcoux, Alice Perdereau, Sarah Andrée et Cynthia Keurentjes, les étudiantes et stagiaires qui ont contribué à l'élaboration de matériel, la collecte des données ou à leur analyse. Du côté des cliniciens, les orthophonistes Carole Anglade, Josée Bilodeau, Brigitte Damien, Suzanne Généreux, Michelyne Hubert et Marie-Andrée Laberge ont réalisé les évaluations de langage des participants et m'ont aidé à l'interprétation des données. Merci également aux audiologistes Philippe Fournier et Charles-Édouard Basile qui ont évalué l'audition de tous les participants. Enfin, je tiens à souligner les précieuses collaborations de l'Association Québécoise des Personnes Aphasiques, de l'Association Aphasie-Rive-Sud et du Théâtre aphasique qui ont non seulement contribué de façon majeure au recrutement de participants mais ont aussi fourni pendant plus de deux ans des espaces adaptés pour les évaluations et les séances de thérapie dans le cadre des recherches de cette thèse. Je remercie chaleureusement tous les participants de m'avoir accordé leur confiance. J'espère que leur expérience leur a confirmé l'importance et l'utilité de s'impliquer dans la recherche sur l'aphasie.

Enfin, sur un plan plus personnel, je remercie mon conjoint et mes proches de m'avoir soutenue de multiples façons dans cette aventure doctorale, et en particulier Aline et Patrick qui m'ont grandement aidée à tenir le cap pendant la phase de rédaction du présent document.

Chapitre 1 - Introduction générale

1.1 Mise en contexte du problème

Même s'il peut être sophistiqué à l'extrême dans certaines formes d'art musical, le chant est une activité simple et naturelle pour l'être humain. Nous possédons normalement tous l'instrument vocal et la pratique du chant peut être plaisante au point que de nombreuses personnes s'organisent pour le pratiquer de façon régulière. Dans le monde occidental, les chorales de chanteurs amateurs sont communes. À titre d'exemple, une enquête a répertorié 1,4 million de choristes actifs parmi les adultes vivant dans la province canadienne ontarienne. En ajoutant le demi-million d'enfants choristes, il apparaît que près de 15% des ontariens sont membres d'une chorale (Choirs Ontario, 2011). De nombreux choristes rapportent que cette activité a des effets bénéfiques sur bon nombre de problèmes de santé (Clift et al., 2007). Ainsi, le chant, plus qu'une activité de loisir ou un art, pourrait aussi avoir des vertus thérapeutiques.

Notre point de vue d'orthophoniste nous a mené à nous intéresser ici aux vertus du chant dans la réadaptation de l'aphasie, un trouble acquis de la fonction langagière lié à une lésion cérébrale qui se caractérise par des difficultés plus ou moins sévères d'expression et/ou de compréhension (Benson & Ardila, 1996). Les personnes aphasiques se trouvent privées plus ou moins totalement du langage, un moyen de communication largement privilégié dans nos sociétés. Selon les termes de la Classification internationale du fonctionnement, du handicap et de la santé, ces personnes perdent ainsi un moyen de participation sociale (Dalemans, De Witte, Beurskens, Van Den Heuvel, & Wade, 2010; Davidson, Howe, Worrall, Hickson, & Togher, 2008; Le Dorze & Brassard, 1995; WHO, 2001; Worrall et al., 2011). Enfin, bien que le lien direct entre aphasie et faible qualité de vie soit encore discuté (Ross & Wertz, 2002), plusieurs études ont également démontré que la qualité de vie

des personnes aphasiques est généralement moins bonne que celle de sujets sains ou ayant subi un accident vasculaire cérébral mais sans séquelles sur la fonction langagière (Hilari, 2011; Ross & Wertz, 2003).

L'aphasie est relativement méconnue du grand public (Simmons-Mackie, Code, Armstrong, Stiegler, & Elman, 2002), notamment par rapport à d'autres pathologies pourtant plus rares (Flynn, Cumberland, & Marshall, 2009). Les données récentes sur l'incidence de l'aphasie oscillent entre 0,02 et 0,06%, avec une prévalence comprise entre 0,1 et 0,4% dans le monde occidental (Code & Petheram, 2011). Par exemple, dans un hôpital de Copenhague en 1992-1993, 38% (330/881 cas) des patients admis pour un accident vasculaire cérébral présentaient des signes d'aphasie et plus de la moitié d'entre eux (56%) étaient encore aphasiques à la sortie de l'hôpital (Pedersen, Stig Jørgensen, Nakayama, Raaschou, & Olsen, 1995). Une étude plus récente et à plus grande échelle dans la province canadienne ontarienne en 2004-2005 a répertorié 3207 nouveaux cas d'hospitalisations pour un accident vasculaire cérébral, dont 35% (1131 cas) présentaient une aphasie à la sortie de l'hôpital (Dickey et al., 2010). Bien que plusieurs substances pharmacologiques aient été testées dans la recherche de moyens de traitement de l'aphasie, la meilleure stratégie thérapeutique reste de loin la rééducation orthophonique (Brady, Kelly, Godwin, & Enderby, 2012; Zumbansen & Thiel, 2014). Toutefois, même après ce type de thérapie, la majorité des patients demeure aphasique (Pedersen et al., 1995). De ce fait, une grande partie de la recherche en aphasiologie s'attache à améliorer l'efficacité des interventions et ce domaine d'étude a connu une accélération ces dernières années (Brady et al., 2012; Kelly, Brady, & Enderby, 2010).

Parmi les nombreuses approches orthophoniques pour le traitement de l'aphasie, l'une d'entre-elles, la Thérapie d'intonation mélodique, ou *Melodic intonation therapy* en anglais (MIT, Albert, Sparks, & Helm, 1973; Sparks, Helm, & Albert, 1974) est née de l'observation clinique de patients qui parvenaient à prononcer des mots dans des chansons alors qu'ils ne pouvaient pas les exprimer dans leur parole normale. Se basant sur la facilitation temporaire de l'expression par la parole chantée, les auteurs de la MIT ont élaboré un programme d'intervention pour mener à une

amélioration du langage naturel des patients. Cette thérapie originale a fait l'objet de plusieurs recherches et a été considérée comme prometteuse pour la réadaptation des patients présentant les symptômes d'une aphasie de Broca, une aphasie que nous détaillons plus loin dans cette introduction (AAN, 1994). Ainsi, il existe des indices pointant vers l'idée que le chant peut être bénéfique dans la réadaptation de l'aphasie. Toutefois, le chant n'est qu'un seul des éléments du programme de la MIT et les études d'efficacité ne renseignent pas nécessairement sur le rôle du chant dans ses effets thérapeutiques. Par ailleurs, le chant utilisé dans un autre contexte que la MIT pourrait-il aussi aider les personnes aphasiques dans leur processus de réadaptation ? Le chant est ressenti comme bénéfique pour la santé par beaucoup de choristes amateurs, en particulier sur le bien-être psychologique (Clift et al., 2007). Une tendance en ce sens a également été rapportée dans une étude exploratoire sur la pratique du chant en chorale chez des personnes aphasiques (Tamplin, Baker, Jones, Way, & Lee, 2013). De plus, des participants aphasiques et des proches aidants ont remarqué des changements dans la communication de ces choristes et une autre étude exploratoire a permis de mesurer une amélioration des habiletés de parole après plusieurs séances de chant en groupe chez des patients atteints d'une variété de troubles acquis de l'expression verbale d'origine neurologique (Cohen, 1992).

Le problème général de cette thèse est de savoir si le chant peut être considéré comme un atout significatif pour la réadaptation de l'aphasie. Nous examinons donc différents contextes où des personnes aphasiques peuvent pratiquer le chant. En choisissant d'étudier le chant dans la MIT nous pouvons tirer parti des études antérieures dont elle a fait l'objet pour examiner le rôle du chant dans des effets précis de cette thérapie sur la récupération du langage. Le second contexte que nous avons choisi est celui d'une activité régulière de chant dans une chorale. Celui-ci est également intéressant à étudier parce qu'il fait partie des activités de loisirs existant dans plusieurs associations de personnes aphasiques. Ainsi, si le chant se révèle aussi bénéfique dans ce contexte, il pourrait être, en soi, une pratique importante à considérer dans la réadaptation de l'aphasie. Des recommandations pourraient alors être formulées afin d'encourager les personnes aphasiques à pratiquer le chant en chorale, une

activité peu coûteuse pour les systèmes de santé en complément de la thérapie orthophonique individuelle.

Dans cette introduction, nous posons tout d'abord quelques grands cadres définitoires et méthodologiques avant d'aborder les connaissances actuelles sur l'utilisation du chant dans la réadaptation des personnes aphasiques et de présenter les objectifs spécifiques de cette thèse.

1.2 Cadres définitoires

1.2.1 Thérapie et effet thérapeutique

Il n'est pas aisé de trouver une définition précise du terme *thérapie* dans les dictionnaires de la langue française. Le Nouveau Petit Robert renvoie simplement à *la thérapeutique* qui y est définie de façon générale comme « la partie de la médecine qui étudie et met en application les moyens propres à guérir et à soulager les maladies », et de façon plus étroite, comme l'« ensemble de procédés concernant un traitement déterminé » (Robert, 2008). Nous définissons une thérapie comme une méthode proposée par un soignant dans le but d'améliorer une condition de santé d'un patient. Nous aimerions souligner ici que l'intention thérapeutique est constitutive d'une thérapie. Autrement dit, un thérapeute propose des moyens qu'*il choisit* parmi d'autres *parce qu'il s'attend* à leur effet thérapeutique.

La définition de l'adjectif *thérapeutique* est indiquée comme suit dans Le Nouveau Petit Robert (Robert, 2008) : « qui concerne l'ensemble des actions et pratiques destinées à guérir, à traiter les maladies », mais aussi simplement « apte à guérir ». Dans cette thèse, nous adoptons plutôt cette dernière définition de l'adjectif, dans la mesure où nous considérons qu'un effet thérapeutique peut aussi être fortuit, lorsqu'il est dû à des actions dont l'objectif primaire n'est pas d'améliorer une condition de santé. Nous utilisons cette distinction dans ce travail sur les bénéfices du chant dans la réadaptation de l'aphasie : les effets thérapeutiques du chant y sont étudiés d'une part dans le

contexte d'une thérapie et d'autre part dans le contexte d'une activité de loisir (chanter dans une chorale).

1.2.2 Définition de l'aphasie

Nous avons déjà posé une définition générale de l'aphasie en nous référant à Benson & Ardila (1996) : un trouble acquis de la fonction langagière lié à une lésion cérébrale qui se caractérise par des difficultés plus ou moins sévères d'expression et/ou de compréhension. Bien que plusieurs auteurs soulignent la nécessité d'établir des critères d'inclusion et d'exclusion plus précis auxquels se référer pour parler d'aphasie, il n'y a actuellement pas de définition plus détaillée qui fasse consensus (Code & Petheram, 2011; Joannette & Ansaldo, 2000; McNeil & Pratt, 2001). C'est une des raisons expliquant la variation des statistiques d'incidence et de prévalence (Code & Petheram, 2011). Avant d'aborder des éléments de débat terminologiques et d'énoncer les caractéristiques des personnes aphasiques visées dans cette thèse, il faut tout d'abord rappeler une distinction relativement consensuelle de nos jours entre les troubles du langage, dont l'aphasie fait partie, et ceux de la parole.

Pour la majorité des orthophonistes, un *trouble du langage* est une déficience de l'utilisation (compréhension et/ou expression) de systèmes de symboles. Cette déficience peut toucher la phonologie (le système de phonèmes d'une langue et les règles qui régissent leurs combinaisons), la morphologie (qui concerne la structure et la construction des formes des mots), la syntaxe (le système régissant l'ordre et la combinaison des mots pour former des phrases, et les relations entre les éléments dans une phrase), la sémantique (qui concerne le sens des mots et des phrases), et/ou la composante pragmatique du langage (qui concerne l'intentionnalité d'un locuteur et l'adéquation des énoncés avec le contexte) (American Speech-Language-Hearing Association, 2014b).

En revanche, un *trouble de la parole* est une altération du moyen par lequel le langage s'exprime lorsqu'il est parlé (American Speech-Language-Hearing Association, 2014b). Ainsi, en présence d'un trouble de la parole pur, le langage peut s'exprimer normalement par écrit. L'aphasie

est parfois accompagnée de troubles de la parole se situant à différents niveaux du processus d'articulation des phonèmes. La *dysarthrie* est un trouble de la réalisation motrice de la parole, secondaire à des lésions du système nerveux central ou périphérique (Darley, Aronson, & Brown, 1975). L'*apraxie de la parole* toucherait un plus haut niveau de la parole, à l'étape de la programmation/planification motrice, c'est à dire la traduction d'une représentation phonologique intacte d'un message en une représentation phonétique motrice avant son exécution par les articulateurs (Kelso & Tuller, 1981; Kent & Adams, 1989; McNeil, Robin, & Schmidt, 1997; Van der Merwe, 1997; Whiteside & Varley, 1998). Comme nous le mentionnons plus loin, l'apraxie de la parole n'est pas considérée comme un trouble du langage, mais elle fait partie de l'ensemble de symptômes typiques de l'aphasie de Broca.

Un premier point de débat terminologique dans la définition de l'aphasie concerne ses symptômes et la localisation cérébrale des lésions qui en sont responsables. L'acceptation traditionnelle restreint l'aphasie aux troubles d'une ou plusieurs des composantes linguistiques phonologique, lexicale, morphosyntaxique et sémantique, causés par une lésion dans l'hémisphère cérébral dominant pour le langage, soit le plus souvent à gauche (McNeil & Pratt, 2001). Toutefois, en phase avec l'évolution des connaissances en linguistique et du concept même de langage, un point de vue plus moderne inclut également les troubles de la composante pragmatique du langage (Joanette & Ansaldo, 2000). Ces symptômes (par exemple les troubles du traitement des actes de langage indirects, soit les énoncés dont le véritable sens est au-delà de leur sens littéral) sont généralement observés en cas de lésion dans l'hémisphère cérébral droit, élargissant l'association traditionnelle entre aphasie et lésion hémisphérique gauche.

Un second point de débat concerne l'étiologie des lésions responsables de l'aphasie. Alors que les écrits scientifiques présentent invariablement les accidents vasculaires cérébraux comme une étiologie répandue de l'aphasie, d'autres causes moins fréquentes, telles que les tumeurs cérébrales (et les séquelles de leur résection), sont parfois omises. Enfin certaines font ouvertement l'objet de controverses. Par exemple, plusieurs auteurs excluent de la définition de l'aphasie les troubles acquis

du langage s'ils sont observés suite à un traumatisme cranio-cérébral ou dans le cadre d'une démence parce qu'ils font l'hypothèse que les symptômes langagiers ne sont pas primaires, mais plutôt causés par les autres troubles cognitifs très fréquemment retrouvés dans ces conditions (par exemple, Darley, 1982; Holland & Turkstra, 2001; McNeil & Pratt, 2001; Rosenbek, LaPointe, & Wertz, 1989). Toutefois, d'autres auteurs également influents en aphasiologie contemporaine présentent les traumatismes cranio-cérébraux comme l'étiologie de l'aphasie la plus fréquente après les accidents vasculaires cérébraux (Basso, 2003; Helm-Estabrooks & Albert, 2004). Rappelons également qu'une branche importante des connaissances en aphasiologie provient de l'étude des troubles du langage des victimes de traumatismes cranio-cérébraux, notamment par Luria (1970) dont les écrits sont encore largement utilisés en clinique dans les pays de l'Est (Basso, 2003). Enfin, Helm-Estabrooks et Albert (2004) incluent également les démences, les tumeurs cérébrales et l'épilepsie dans les causes possibles de l'aphasie.

D'un point de vue pratique, nous pensons qu'il est inadéquat de baser une définition de l'aphasie sur des hypothèses de mécanismes sous-jacents si le but de cette définition est de fournir des critères d'inclusion et d'exclusion pour poser le diagnostic d'aphasie. Il nous paraît plus raisonnable de faire appel à des phénomènes observables avec les moyens actuellement disponibles, autrement dit, aux symptômes apparaissant suite à une lésion cérébrale, quelle qu'en soit sa cause. Il n'est évidemment pas question de s'abstenir en toute circonstance de formuler des hypothèses de mécanismes menant aux syndromes aphasiques, ni de nier les symptômes cognitifs non verbaux qui accompagnent souvent l'aphasie (Helm-Estabrooks, 2002). Cette démarche est devenue essentielle à la fois pour comprendre la nature des différents troubles acquis du langage d'origine neurologique et pour élaborer des plans d'interventions thérapeutiques individualisés. La réflexion sur l'origine fonctionnelle des troubles acquis du langage est notamment cruciale dans l'approche cognitive du traitement de l'aphasie. Tel que le souligne Lambert (1997), cette approche thérapeutique se différencie des précédentes parce qu'au lieu de se baser directement sur les symptômes aphasiques, le clinicien élabore des programmes thérapeutiques en fonction de son interprétation de la nature des troubles de chaque patient. Il formule des hypothèses en référence à un modèle de neuropsychologie

cognitive du traitement de l'information, après une démarche diagnostique approfondie qui va au-delà de la seule identification de surface des symptômes. Par exemple, il peut rechercher si la difficulté à dénommer des objets provient d'une dégradation d'informations mentales (ou représentations) ou bien principalement d'un défaut d'accès à ces représentations. Ainsi, le diagnostic de l'aphasie selon l'approche cognitive se différencie du diagnostic sémiologique dans la plupart des autres approches thérapeutiques. Les thérapies cognitives occupent une large part de la recherche actuelle sur les interventions orthophoniques en aphasiologie. Dans cette thèse cependant, nous ne nous attarderons pas sur le diagnostic de type cognitif dans la mesure où le programme thérapeutique que nous étudions, la MIT, n'a pas été construit selon cette approche. L'utilisation de la MIT requiert un diagnostic de l'aphasie de type sémiologique.

La variété de profils cliniques des troubles acquis du langage d'origine neurologique est incontestée et a donné lieu à plusieurs classifications de syndromes (voir Benson & Ardila, 1996 pour une synthèse). La classification sémiologique la plus utilisée de nos jours reste celle des néo-associationnistes, aussi appelée système de classification de Boston, élaborée par Norman Geschwind, Frank Benson, Harold Goodglass et Edith Kaplan sur la base des symptômes langagiers pouvant apparaître suite à un accident vasculaire cérébral dans l'hémisphère gauche (Helm-Estabrooks & Albert, 2004). Bien qu'aucune classification actuelle ne satisfasse l'ensemble des experts du domaine, l'étiquetage de syndromes aphasiques est utile à la fois pour l'efficacité de la communication entre cliniciens et permet de nommer des profils cliniques susceptibles de répondre davantage à certaines thérapies. Dans ce travail, nous ne traiterons pas des aphasies typiquement causées par des démences, des traumatismes cranio-cérébraux ou des lésions de l'hémisphère droit. Nous utiliserons donc la classification de Boston, qui est celle à laquelle se réfèrent les auteurs de la MIT, et nous baserons sur le Protocole Montréal-Toulouse d'examen linguistique de l'aphasie MT-86 (MT-86, Nespoulous et al., 1992), un outil diagnostique largement utilisé en clinique avec les patients francophones pour identifier les grands types d'aphasie selon cette classification à partir des symptômes linguistiques.

1.2.3 Identification clinique des principaux syndromes aphasiques de la classification de Boston

Helm-Estabrooks et Albert (1991, 2004) proposent une démarche par étapes pour le diagnostic des différents syndromes aphasiques de la classification de Boston. Avant toute chose, l'orthophoniste évalue le manque du mot, ou anomie, un symptôme commun à toutes ces aphasies. Celui-ci s'observe lors d'épreuves de dénomination d'image, de fluence verbale, qui consiste à nommer le plus grand nombre de mots appartenant à une catégorie (par exemple, celle des animaux) pendant une durée déterminée, ou dans le discours naturel des patients. Le manque du mot peut se traduire par divers comportements, tels que des silences, des comportements d'hésitation, la production de mots comportant des déviations phonémiques (paraphasies phonémiques) pouvant aller jusqu'au néologisme quand le mot cible n'est plus identifiable, l'emploi erroné d'un mot pour un autre (paraphasies verbales), et des circonlocutions (ex : « un jeu qui tourne » pour « manège »). Les trois étapes suivantes permettent de différencier les syndromes aphasiques.

La première étape de classification comporte une évaluation du degré de fluence de l'expression verbale dans le discours. Les syndromes aphasiques classiques sont ainsi séparés en aphasies fluentes, non fluentes ou modérément non fluentes. Le concept de fluence du discours est entendu par ces auteurs comme le nombre moyen de mots dans les phrases produites sur une expiration ou sans pause significative. Cependant, dans la batterie de test diagnostique telle que le Boston Diagnostic Aphasia Examination (Goodglass, Kaplan, & Barresi, 2001), le degré de fluence est déterminé en fonction de plusieurs paramètres observables dans le discours, tels que l'agilité articulaire, la forme grammaticale et la prosodie. Dans la batterie diagnostique francophone MT-86 (Nespoulous et al., 1992), le discours est notamment décrit en termes de *réduction quantitative*, c'est à dire en nombre de mots produits par unité de temps. Bien que la démarche de Helm-Estabrooks et Albert se base prioritairement sur les symptômes langagiers, les aphasies modérément non fluentes correspondent selon eux à des lésions cérébrales sous-corticales, dans le putamen, la capsule interne et le thalamus, et constituent donc les *aphasies sous-corticales*.

Dans une seconde étape, Helm-Estabrooks et Albert (2004) proposent de sous-diviser les grandes catégories de l'étape précédente en fonction des habiletés de compréhension orale des patients. La compréhension orale est rarement intacte dans les aphasies mais elle est ici évaluée en comparaison avec les habiletés de production orale comme relativement préservée, comparable ou plus atteinte. Les épreuves utilisées pour cette évaluation sont souvent des tâches de désignation d'images cibles à l'écoute de mots et de phrases, et des réalisations de manipulations d'objets sur consignes plus ou moins complexes. Les deux premières étapes de la démarche de Helm-Estabrooks et Albert sont censées déjà identifier l'*aphasie globale*, dans laquelle l'expression est non fluente et la compréhension très atteinte et l'*aphasie mixte non fluente*, dans laquelle la production est non fluente et la compréhension atteinte à un niveau modéré à sévère. Une étape supplémentaire est nécessaire pour la classification des autres aphasies.

Cette troisième étape consiste à juger de l'atteinte des habiletés de répétition de mots et de phrases en regard des capacités de production et peut permettre d'identifier, parmi les aphasies fluentes dans lesquelles la compréhension est déficitaire, l'*aphasie transcorticale sensorielle* si la répétition est préservée et l'*aphasie de Wernicke* si la répétition est atteinte. Les aphasies fluentes avec préservation de la compréhension sont classifiées comme *aphasie anomique* quand la répétition est préservée et comme *aphasie de conduction* si la répétition est atteinte. Enfin, parmi les aphasies non fluentes dont la compréhension est relativement préservée, l'arbre diagnostique de Helm-Estabrooks et Albert distingue l'*aphasie transcorticale motrice* quand la répétition est préservée et l'*aphasie de Broca* si la répétition est déficitaire.

La démarche de diagnostic sémiologique de Helm-Estabrooks et Albert (Helm-Estabrooks & Albert, 2004) ne tient pas compte de tous les symptômes classiquement rencontrés dans les aphasies de la classification de Boston. Par exemple, l'apraxie de la parole n'y est pas mentionnée. Même s'il s'agit d'un trouble moteur de la parole et non du langage (American Speech-Language-Hearing Association, 2014a), l'apraxie de la parole fait partie des symptômes caractéristiques de l'aphasie de

Broca (Basso, 2003). Ainsi, dans la pratique, les cliniciens se basent également sur la comparaison des patients avec des descriptions plus détaillées de chaque type d'aphasie pour parvenir à un diagnostic aphasique. De plus, le niveau de sévérité général de l'aphasie est également spécifié à l'aide de l'ensemble des informations cliniques collectées. La MIT (MIT, Albert et al., 1973; Sparks et al., 1974), que nous examinons dans les deux premiers chapitres de cette thèse, a été identifiée comme appropriée pour les personnes ayant une aphasie de Broca (AAN, 1994). Nous exposons ci-après la description plus détaillée sur laquelle nous nous basons dans cette thèse, avec notamment une section décrivant les symptômes d'apraxie de la parole qui y sont rencontrés.

1.2.4 L'aphasie de Broca

L'aphasie de Broca est qualifiée de non-fluente en raison de la réduction de l'expression orale qui débute souvent par un mutisme. Les patients ont une anomie (manque du mot), un symptôme présent dans toutes les formes d'aphasie de la classification de Boston (Helm-Estabrooks & Albert, 2004). Dans l'aphasie de Broca, le manque du mot peut donner lieu à des paraphasies verbales (emploi erroné d'un mot pour un autre).

De plus, même lorsque les patients signifient qu'ils ont un mot cible en tête, les tentatives de parole sont marquées par une impression d'effort, de recherche dans le positionnement des articulateurs pour produire la cible verbale visée et la production comporte la plupart du temps des erreurs sur les phonèmes employés. Cette observation est en contraste avec d'autres moments de parole produite correctement et sans effort, lors d'expressions automatiques, en contexte conversationnel ou dans certaines séries automatisées comme le comptage ou la récitation des jours de la semaine, une dissociation automatico-volontaire caractéristique de l'apraxie de la parole (Basso, 2003; Darley, 1969; Helm-Estabrooks & Albert, 2004). Les symptômes de l'apraxie de la parole dans l'aphasie de Broca peuvent aussi être rencontrés dans les rares cas de patients présentant une forme pure (c'est-à-dire sans aphasie associée) de ce trouble (Wertz, Lapointe, & Rosenbeck, 1984). De nombreuses recherches (voir les revues de Ballard, Granier, & Robin, 2000; Code, 1998; McNeil,

Doyle, & Wambaugh, 2000) ont abouti à une liste relativement consensuelle des caractéristiques perceptuelles de la parole apraxique, qui est utilisée pour le diagnostic de ce trouble. On y trouve les caractéristiques suivantes : tâtonnements laborieux pour trouver les positions articulaires résultant en une difficulté à produire correctement les sons de la parole ; plus d'erreur sur les consonnes que sur les voyelles puisque les consonnes sont plus difficiles à produire que les voyelles (Jacks, Mathes, & Marquardt, 2010) ; variabilité des erreurs qui peut se traduire par un résultat différent à chaque tentative de production d'un mot ; production approximative des phonèmes et/ou des mots résultant en un mot ressemblant sans être exactement la cible ; difficulté à produire des enchaînements de consonnes pouvant se traduire par des insertions anormales de voyelles ; conscience du trouble.

Enfin, les personnes ayant une aphasie de Broca ont un trouble du traitement de la morphosyntaxe, ou agrammatisme, qui se révèle sur le versant expressif par des phrases courtes et simples, des erreurs de conjugaison, voire une moindre utilisation des verbes ainsi qu'une omission ou un emploi erroné des mots outils tels que les déterminants, les pronoms personnels et les prépositions, donnant une allure télégraphique au discours. La compréhension, relativement préservée par rapport à l'expression dans l'aphasie de Broca, est toutefois problématique pour les phrases syntaxiquement complexes et notamment dans le cas des structures passives (Basso, 2003).

1.2.5 Objectifs et évaluations des thérapies orthophoniques de l'aphasie

Comme toutes les thérapies, l'intervention orthophonique cherche à améliorer le bien-être des patients. Au-delà de cette considération générique, l'orthophoniste est un spécialiste des troubles de la communication. Tel que souligné par les auteurs de la plus récente recension systématique des écrits sur l'efficacité des interventions orthophoniques en aphasie, les thérapies orthophoniques devraient chercher à améliorer la communication fonctionnelle des patients aphasiques pour réduire les impacts délétères de l'aphasie sur la participation sociale des patients (Brady et al., 2012). Le concept de *communication fonctionnelle* est ici entendu comme la capacité que nous avons d'interagir au quotidien avec autrui par des moyens à la fois verbaux et non verbaux (Holland, 1982). Peu

d'outils validés existent pour mesurer les habiletés de communication fonctionnelle. Certains ont la forme de questionnaires adressés aux patients et/ou à leurs proches (Echelle de communication verbale de Bordeaux, Darrigrand & Mazaux, 2000; Communicative effectiveness index, Lomas et al., 1989; Functional communication profile, Sarno, 1969). D'autres prennent la forme d'échelles remplies par les orthophonistes sur la base de leurs observations cliniques (Communicative activities in daily living - second edition, Holland, Frattali, & Fromm, 1999; Test lillois de communication, Rousseaux, Delacourt, Wyrzykowski, & Lefeuvre, 2003).

Les différentes approches orthophoniques peuvent être organisées en deux grandes catégories qui dépendent de leurs objectifs spécifiques. Les approches *centrées sur la déficience (impairment-based approaches)* visent l'amélioration de la communication fonctionnelle en agissant sur des aspects plus ou moins précis du trouble du langage sous-jacent. Ces approches, de loin les plus étudiées, n'ont pas toujours été éprouvées pour leur effet sur l'amélioration de la communication fonctionnelle, ni même sur les habiletés de langage dans le discours naturel (ou *connected speech*, en anglais). Les études de cas uniques ou multiples rapportent typiquement les progrès réalisés sur une série d'items travaillés pendant les séances. Ainsi, pour évaluer l'efficacité des interventions sur le langage, Beeson et Robey (2006) ont proposé de différencier les effets thérapeutiques mesurés sur les stimuli travaillés, la généralisation des progrès à des stimuli non-travaillés, et pour finir, la généralisation au discours naturel, considérant une certaine hiérarchie dans la difficulté pour atteindre ces différents objectifs. Dans beaucoup d'études de groupe, les chercheurs se sont servis de batteries de tests standardisés utilisées pour le diagnostic de l'aphasie (Brady et al., 2012). Ces batteries comportent classiquement des épreuves de dénomination, de compréhension et de répétition de mots et de phrases. Le discours naturel y est également évalué mais de façon sommaire ou qualitative, ce qui rend l'utilisation de tests statistiques difficile pour évaluer les progrès. Les méthodes d'analyse quantitative du langage dans le discours naturel sont généralement coûteuses en temps parce qu'elles nécessitent la transcription d'échantillons de discours et l'analyse détaillée de la production. Cependant, certaines méthodes de cotation sont suffisamment rapides pour permettre leur utilisation dans des études de groupe. Pour évaluer l'*informativité* du contenu du discours, soit l'efficacité avec

laquelle le locuteur transmet des informations correctes dans son discours, Nicholas et Brookshire (1993) suggèrent par exemple de compter tous les mots du discours ayant soutenu la transmission d'informations non erronées par rapport à un stimulus donné, puis de diviser ce nombre par le nombre de mots total. Un pourcentage d'informativité est ainsi obtenu et peut servir de mesure quantitative du langage dans le discours naturel.

La seconde grande catégorie d'interventions orthophoniques regroupe les approches *centrées sur la fonction* (*functional-based approaches*). Elles optent pour des stratégies compensatoires par rapport au déficit langagier en agissant sur d'autres composantes de la communication que le langage, comme l'optimisation des moyens non verbaux et l'adaptation des partenaires de communication, afin d'améliorer sa fonctionnalité au quotidien (Holland & Hinckley, 2004).

En pratique clinique, la plupart des orthophonistes combinent plusieurs approches en fonction du profil clinique, personnel et relationnel de chaque patient (Rose, Ferguson, Power, Togher, & Worrall, 2013). Les auteurs de la plus récente recension systématique des écrits sur l'efficacité des interventions orthophoniques en aphasie après un accident vasculaire cérébral ont pu affirmer que la thérapie orthophonique de l'aphasie est efficace par rapport à l'absence d'un tel traitement pour l'amélioration de la communication fonctionnelle, la production et la compréhension du langage (Brady et al., 2012). Cependant, il ne ressortait pas de différence significative entre des approches orthophoniques différentes, probablement parce que chacune comporte ses objectifs spécifiques et qu'elles sont conçues et adaptées pour divers profils de patients aphasiques. Certaines d'entre elles partent notamment de capacités individuelles préservées, d'ordre langagier ou non, et s'appuient sur ces forces pour compenser ou récupérer des habiletés affaiblies. La MIT est une approche s'appuyant sur les capacités de chant qui peuvent être préservées dans l'aphasie y compris dans les aphasies non fluentes.

Les méthodologies des études d'efficacité des thérapies orthophoniques de l'aphasie se sont grandement améliorées ces dernières années. Pendant les années 60 à 80, de nombreux chercheurs se

sont efforcés de réaliser des études de groupes puisque ce type de méthodologie était considéré comme plus valide que les études avec un ou quelques participants (Thompson, 2006). En effet, plus le nombre de participants est grand, plus les résultats obtenus peuvent être généralisés à la population des patients que les participants représentent. On augmente alors la *validité externe* de l'étude. Cependant, il est nécessaire de comparer un groupe bénéficiant de la thérapie à l'étude à un *groupe contrôle*, qui ne reçoit pas ce traitement, afin de pouvoir attribuer toute amélioration du groupe expérimental à la présence de la thérapie. De plus, les variables autres que le traitement et qui pourraient causer une variation des mesures d'amélioration de la communication ou du langage doivent être contrôlées. Par exemple, si la récupération du langage est liée à la sévérité initiale de l'aphasie cette mesure devrait être équilibrée d'un groupe de participants à l'autre. Un des problèmes posés par les études de groupe en aphasiologie est lié à l'hétérogénéité des personnes aphasiques, non seulement du point de vue clinique (à cause des divers syndromes) mais aussi du point de vue démographique puisque l'aphasie peut toucher des personnes d'âges variés, de toute origine socio-culturelle, niveau d'éducation, etc. Ne connaissant pas toutes les variables qui pourraient influencer les résultats, il est recommandé de répartir les participants de façon aléatoire une fois les facteurs plus connus équilibrés (Wang & Bakhai, 2006). Il s'agit alors d'une *répartition pseudo-aléatoire*. Nous utilisons ce type de devis expérimental pour étudier les effets du chant dans l'activité de chorale (Chapitre 4). Toutefois, comme les résultats de groupe sont basés sur des moyennes, ceux-ci qui peuvent cacher des variations individuelles intéressantes, des variations qui peuvent par ailleurs atténuer l'effet moyen du traitement étudié. Enfin, les études de groupe ne sont pas souvent dédiées à l'étude approfondie des participants et des thérapies parce que les analyses individuelles des effets d'un traitement nécessitent davantage de mesures et d'analyses pour chaque participant, ce qui n'est pas toujours envisageable en pratique à l'échelle d'un groupe en raison de la charge de travail que cela représente pour l'équipe de recherche. Par exemple, la variabilité des performances d'un jour à l'autre chez une même personne aphasique (*variabilité intra-individuelle*) est commune. Pour connaître l'étendue de cette variabilité il faut répéter plusieurs fois les mesures d'intérêt avant de commencer le traitement de façon à tracer *une ligne de base* et repérer le niveau à partir duquel on peut affirmer qu'un changement n'est pas dû à cette variabilité quotidienne. De nombreux devis expérimentaux

rigoureux ont été pensés ces dernières années pour permettre de mener des études d'efficacité de bonne qualité méthodologique dans des études de cas unique ou multiples (voir Thompson, 2006, pour une excellente discussion didactique). Dans le cadre de notre étude expérimentale sur la MIT, nous utilisons une étude de cas multiples, adaptée pour examiner plus en profondeur le chant comme élément thérapeutique dans ce programme.

1.3 Le chant pour la réadaptation des personnes aphasiques

1.3.1 Préservation des habiletés de chant dans l'aphasie

En 1865, dans le cadre d'une discussion à l'Académie Impériale de Médecine sur la faculté du langage articulé, le docteur Jean-Baptiste Bouillaud fait lecture d'une lettre consultative reçue de l'un de ses confrères qui rapporte les habiletés musicales de son gendre devenu aphasique non fluent (Bouillaud, 1865, p. 754):

« Ma fille ayant dit à son mari, qui, dans l'état de santé, faisait sa principale occupation de la musique, d'essayer de composer et de noter quelque air, il prit un papier rayé, et se mit à composer et à écrire, sans la moindre hésitation, quelques lignes, que ma fille exécuta sur le piano, toute stupéfaite de l'exactitude de la composition, exempte de toute faute ou erreur musicale. Il se prit ensuite à moduler de sa voix l'air écrit, et accompagna, avec correction et harmonie, les sons rendus par le piano, ne laissant échapper, sans les relever, les moindres fautes ou négligences dans la modulation des sons. »

Le chant est sans doute le type de production musicale le plus commun et naturel pour l'être humain. De nombreuses observations attestent aujourd'hui que le chant (sans considération des paroles qui y sont parfois associées) peut être relativement préservé par rapport au langage dans l'aphasie, tant chez des musiciens que chez des personnes sans éducation musicale particulière (Hébert, Racette, Gagnon, & Peretz, 2003; Peretz, Gagnon, Hébert, & Macoir, 2004; Racette, Bard, & Peretz, 2006; Schlaug, Marchina, & Norton, 2008; Stahl, Henseler, Turner, Geyer, & Kotz, 2013; Stahl, Kotz, Henseler, Turner, & Geyer, 2011; Wilson, Pearsons, & Reutens, 2006). Une raison

classiquement évoquée pour expliquer les habiletés de chant des personnes aphasiques est que les réseaux d'activation cérébrale pour le langage articulé et la musique ne se recouvrent pas entièrement. Cette idée est cohérente avec l'observation de cas où des lésions cérébrales peuvent mener à un trouble des habiletés musicales (amusie) sans trouble du langage concomitant (Ayotte, Peretz, Rousseau, Bard, & Bojanowski, 2000; Peretz et al., 1994). De plus, les études de neuro-imagerie fonctionnelle chez des sujets sains sans aphasie montrent que la production de chant est associée à une activité cérébrale davantage latéralisée à droite tandis que la tendance opposée est observée pour la production de parole (Brown, Martinez, & Parsons, 2006; Jeffries, Fritz, & Braun, 2003; Riecker, Ackermann, Wildgruber, Dogil, & Grodd, 2000). Ainsi, les lésions cérébrales gauches à l'origine des troubles du langage de la plupart des personnes aphasiques pourraient épargner au moins en partie les régions cérébrales du réseau d'activation lié à la musique et au chant.

Il faut cependant insister sur le fait que le chant (comme la perception et la production de musique plus généralement) est associé à des activations cérébrales ne se limitant pas à l'hémisphère cérébral droit (Peretz & Zatorre, 2005). L'étude de la musique du point de vue neurocognitif distingue typiquement le traitement des relations de hauteurs musicales¹ et le traitement des relations temporelles (*rythme*). Alcock et collaborateurs (2000) ont étudié les habiletés de perception et de production de ces deux aspects auprès de deux groupes de patients cérébrolésés gauches ou droits et ont montré que les lésions droites étaient associées à une perturbation du traitement de la hauteur musicale, sans altération du traitement du rythme, tandis que les lésions gauches présentaient le patron inverse. Dans une étude récente de neuro-imagerie fonctionnelle avec des sujets sains non aphasiques, Jungblut et collaborateurs (2012) ont montré que la complexité rythmique dans la production de chant (sans paroles) est corrélée à l'activation de régions hémisphériques gauches (gyrus cingulaire) et bilatérales (pars orbitalis et insula). En somme, la production de chant est

¹ Contrairement à l'habitude dans une partie des écrits scientifiques, nous choisissons de ne pas réserver le terme de *mélodie* aux relations de hauteurs musicales dans la mesure où nous considérons qu'une mélodie comporte nécessairement aussi un déroulement temporel. Nous utilisons donc les termes de mélodie et ses dérivés comme intégrant à la fois une composante de hauteur musicale et de rythme.

associée à des activations cérébrales prédominantes à droite par rapport à la parole, mais s'étendant également dans des régions de l'hémisphère gauche.

Sur un plan plus cognitif, d'autres liens entre musique et langage peuvent être mentionnés. Tout d'abord, ce sont des habiletés complexes et spécifiquement humaines. Des études ont également mis en évidence des liens neurocognitifs entre le traitement de la syntaxe dans le langage et celui de la syntaxe dans la musique (Patel, 2008). De plus, le langage exprimé par la parole partage avec la musique le fait d'être fondamentalement lié au système auditif et de reposer sur les mêmes quatre paramètres acoustiques : la hauteur (ou fréquence fondamentale) ; la durée et, par extension, le rythme ; le timbre (ou caractéristiques spectrales du son) ; et l'intensité. Ainsi, la prosodie de la parole est parfois appelée la musique du langage.

1.3.2 Production des paroles dans le chant des personnes aphasiques

Intuitivement, le chant avec paroles constitue un lien intéressant pour le traitement de l'aphasie puisqu'il se situe entre la production de musique (habileté relativement conservée) et de langage (habileté déficitaire). Plusieurs études ont examiné si des personnes avec aphasie non fluente avaient une production verbale meilleure en chantant plutôt qu'en parlant. Ceci semble être vrai pour la production de chansons familières. Yamadori et collaborateurs (1977) ont demandé à 24 participants ayant une aphasie de Broca de chanter des chansons populaires qu'ils connaissaient bien. Vingt-et-un participants ont correctement produit les mélodies. De ce nombre, 12 ont pu y associer les paroles sans aucune erreur et trois ont produit seulement une erreur syllabique. Plus récemment, Straube et collaborateurs (2008) ont réalisé une étude de cas contrôlée avec un participant atteint d'une aphasie non fluente sévère. Ce participant parvenait à prononcer davantage de mots corrects dans des paroles de chants familiers en les chantant plutôt qu'en les parlant. Toutefois, la condition chantée n'améliorait pas sa performance verbale avec des paroles non familières, que les mélodies associées soient connues ou non. Ainsi, les chercheurs ont conclu que l'effet bénéfique du chant sur la production verbale pouvait s'expliquer par l'association de la mélodie et des paroles en mémoire à

long terme. D'autres études contrôlées confirment que l'intelligibilité des personnes avec aphasie non fluente ne s'améliore pas de façon significative avec le chant dans des chansons nouvellement apprises (Hébert et al., 2003; Peretz et al., 2004; Racette et al., 2006). L'une de ces expériences (Racette et al., 2006) a cependant montré que les participants bénéficiaient de la condition chantée pour produire des paroles de nouvelles chansons quand ils chantaient en même temps qu'une autre personne. Il est intéressant de préciser que le modèle était préenregistré et présenté via des écouteurs, de sorte que les participants ne bénéficiaient d'aucun indice visuel (tel que la lecture labiale). Ainsi, la condition de chant choral était purement auditivo-vocale.

En somme, d'après les données empiriques, le chant peut apporter un bénéfice immédiat à la production de parole de personnes ayant une aphasie non fluente lorsqu'elles chantent des chansons qui leur sont familières et si elles chantent de nouvelles chansons en condition de chant choral. Ce bénéfice sur la parole est évidemment éphémère puisqu'il est intimement associé à ces conditions chantées. Dans la section suivante, nous abordons les bénéfices du chant à plus long terme, sur l'amélioration du langage et de la communication des personnes aphasiques. Nous présentons tout d'abord des thérapies de l'aphasie faisant usage des conditions chantées facilitatrices, puis les données actuelles sur les effets thérapeutiques de l'activité de chorale.

1.3.3 Thérapies de l'aphasie faisant usage du chant

1.3.3.1 *Speech-Music Therapy for Aphasia (SMTA)*

La SMTA (de Bruijn, Zielman, & Hurkmans, 2005) est une thérapie conjointe d'orthophonie et de musicothérapie comportant du chant choral. Elle est adressée à des patients ayant une aphasie non fluente et/ou une apraxie de la parole. Le principe de cette méthode consiste à utiliser différents paramètres musicaux (mélodie, rythme, nuances et tempo) pour soutenir des exercices de production de phonèmes, de mots et de phrases et maintenir l'implication des patients tout au long des séances de traitement (Hurkmans, de Bruijn, Boonstra, et al., 2012; Hurkmans, de Bruijn, Jonkers, et al., 2012). Par exemple, les adaptations du tempo et de la complexité rythmique

sont utilisées pour ajuster la difficulté d'exercices de production de parole et stimuler la motivation du patient, et les exercices répétitifs proposés par l'orthophoniste sont réalisés sur des supports mélodiques variés pour réduire l'apparence technique et fastidieuse des séances de traitement. Les auteurs ont rapporté une étude préliminaire d'efficacité avec des résultats encourageants auprès de cinq patients atteints d'aphasie non fluente et d'apraxie de la parole après 24 séances de 30 minutes deux fois par semaine (Hurkmans, de Bruijn, Jonkers, et al., 2012).

1.3.3.2 *Singen, Intonation, Prosodie, Atmung, Rhythmus, Improvisation (SIPARI)*

La méthode SIPARI (Jungblut, 2009; Jungblut & Aldridge, 2004), un acronyme allemand pour *Chant, Intonation, Prosodie, Respiration, Rythme et Improvisation*, a été élaborée pour le traitement des aphasies non fluentes. Elle est pratiquée en séances individuelles ou en groupe et comporte une large variété d'exercices, incluant par exemple des tâches similaires à celles de la SMTA, la production de chant familiers, mais aussi des exercices d'entraînement vocal que l'on pourrait retrouver en thérapie vocale (respiration, fonction vocale, pose de la voix) ou dans un cours de chant (entraînement rythmique, imagerie mentale des sons chantés, improvisation vocale, composition musicale). L'expression vocale est réalisée en même temps que des mouvements de mains et le tout est accompagné par des instruments de percussion et du piano. Les objectifs de cette thérapie sont d'améliorer les fonctions linguistiques, motrices et cognitives dans le but de soutenir les processus moteurs de la parole (Jungblut, 2009). Les auteurs ont publié une étude de groupe avec 13 patients atteints d'aphasie de Broca ou globale chroniques. La combinaison de 10 séances individuelles et 20 séances de groupe a amélioré les performances à des tests de langage et de parole chez les patients du groupe expérimental comparé aux patients témoins (Jungblut & Aldridge, 2004). De futures études comparant la méthode SIPARI à un traitement contrôle seront nécessaires pour statuer de façon plus certaine sur son efficacité.

1.3.3.3 *Le protocole de musicothérapie de Kim & Tomaino pour l'aphasie non fluente*

Kim et Tomaino (2008) ont également élaboré un protocole de musicothérapie visant l'amélioration de l'expression verbale des patients avec aphasie non fluente. Le programme comporte sept types d'exercices : chant choral de chansons familières, pose de souffle sur des voyelles et des syllabes, production de phrases de la vie quotidienne suivant des mélodies de chansons familières, jeux de nuances et de tempi lors des chants familiers, support du rythme de phrases par des instruments de percussion, imitation de mouvements articulatoires, reconnaissance et production de plusieurs contours prosodiques pour une même phrase. Une série de cas ayant suivi ce protocole par séances de 30 minutes, deux à trois fois par semaine pendant un mois a montré des améliorations de l'articulation, la fluence, la prosodie et le soutien respiratoire de la parole des sept participants avec aphasie non fluente parfois accompagnée d'apraxie de la parole ou de dysarthrie (Kim & Tomaino, 2008). Cependant, aucun test statistique n'a été effectué pour juger de la significativité de ces changements et le devis expérimental n'était pas contrôlé.

1.3.3.4 *Melodic Intonation Therapy (MIT)*

Contrairement aux méthodes précédentes, la MIT (Albert et al., 1973; Sparks et al., 1974) est une thérapie purement orthophonique. Son objectif spécifique est d'améliorer l'expression verbale des patients avec aphasie de Broca. Cette thérapie fait donc partie des approches centrées sur la déficience. La MIT a été conçue pour être appliquée par des thérapeutes sans formation musicale (Sparks, 1981, 2008). Ainsi, seule une forme de chant très rudimentaire est utilisée et le thérapeute ne propose pas au patient de chanter des chansons familières. La MIT est la première thérapie de l'aphasie ayant intégré le chant dans un protocole de traitement détaillé et a suscité un grand intérêt dans la communauté clinique et scientifique dès sa création, inspirant bon nombre de variations et d'adaptations de son programme. La description de la MIT et les études d'efficacité ayant démontré ses effets bénéfiques dans la réadaptation de patients ayant une aphasie de Broca sont développées

dans le deuxième chapitre de cette thèse, afin de clarifier certains résultats contradictoires. La MIT est notamment la plus étudiée des thérapies utilisant des éléments musicaux dans les troubles acquis du langage et de la parole d'origine neurologique (Hurkmans, de Bruijn, Boonstra, et al., 2012). Plusieurs chercheurs se sont intéressés aux corrélats neuronaux de ses mécanismes d'action et le rôle du rythme et de la hauteur musicale dans sa technique mélodique a également été examiné. Selon des études récentes, l'aspect rythmique pourrait être la clé du succès de la MIT (Stahl et al., 2013; Stahl et al., 2011). Pour ces auteurs, l'impact de la hauteur musicale serait même négligeable. Nous remettons toutefois cette idée en cause dans le troisième chapitre de cette thèse.

1.3.4 Effets thérapeutiques du chant dans une chorale sur la réadaptation des personnes aphasiques

Tel que nous l'avons mentionné au début de cette introduction, chanter dans une chorale est une activité de loisir répandue et les choristes rapportent qu'ils peuvent en tirer des effets thérapeutiques variés (Clift et al., 2007). Se basant probablement sur leur expérience clinique, les concepteurs de la MIT considéraient que le seul fait de chanter des chansons familières était inefficace pour améliorer les habiletés de communication des personnes aphasiques (Sparks et al., 1974). Toutefois, Cohen (1992) a rapporté des améliorations de la voix (stabilité de la fréquence fondamentale) et de la parole (vitesse articulatoire et intelligibilité) après neuf séances de pratique de chants familiers en groupe avec huit patients atteints d'une variété de troubles expressifs du langage et de la parole causés par des accidents vasculaires cérébraux et des traumatismes crâniens. Plus récemment, Tamplin et collaborateurs (2013) ont exploré les effets d'une activité de chorale avec 13 personnes aphasiques en grande majorité non fluentes. Après 20 séances, les auteurs ont noté une tendance à la réduction de la détresse psychologique mesurée par un questionnaire de santé mentale. De plus, l'analyse thématique d'entretiens semi-dirigés avec trois participants et cinq proches aidants a fait ressortir une amélioration de la confiance en soi, de la motivation et de l'humeur, des changements dans la communication et l'importance du support des pairs. Ces études, bien qu'encourageantes, ne comportaient pas de groupe contrôle, de sorte qu'il n'est pas possible d'en

conclure que c'est spécifiquement le chant pratiqué dans ces activités de groupe qui est à l'origine des améliorations observées.

1.3.5 Conclusion

Il est bien établi aujourd'hui que la plupart des personnes aphasiques sont capables de chanter et des études transversales contrôlées ont démontré que des personnes ayant une aphasie non fluente ont une meilleure production de parole dans la condition de chant choral ou lorsqu'elles chantent des chants familiers comparé à la condition de parole normale. Quelques protocoles de musicothérapie font usage de ces conditions facilitatrices pour le traitement de l'aphasie mais leur efficacité reste à être démontrée. L'utilisation du chant a été mieux étudiée dans le cadre de la MIT, une thérapie orthophonique comportant du chant choral pour le traitement de l'aphasie de Broca. Ce protocole a fait l'objet de recherches pour déterminer quelle composante mélodique (le rythme ou la hauteur) peut expliquer son effet thérapeutique et la tendance actuelle consiste à penser que le rythme serait un facteur déterminant. Enfin, en dehors de ces démarches thérapeutiques, le simple fait de chanter dans une chorale semble apporter des bienfaits aux personnes aphasiques selon des études exploratoires qui poussent à en tester les effets spécifiques dans des devis expérimentaux contrôlés.

1.4 Objectifs et plan de cette thèse

L'objectif général de cette thèse est de préciser les connaissances actuelles sur les bénéfices du chant dans la réadaptation de l'aphasie. Une façon d'isoler le chant est de comparer ses effets dans différents contextes. Ainsi, dans un premier temps, nous examinons de façon approfondie son rôle dans l'efficacité de la MIT. Le chant y est-il un élément déterminant ? Dans le deuxième chapitre nous présentons une recension critique de la variété d'études dont la MIT a fait l'objet pour en dégager une analyse structurée selon quelques principes de base utiles pour les futures recherches. Forts de cette analyse, nous rapportons dans le troisième chapitre la première étude évaluant la

contribution relative de deux composantes du chant (le rythme et la hauteur musicale) dans l'effet de la MIT sur l'amélioration généralisée du langage dans le discours naturel. Si le chant s'avère utile dans la MIT, il se peut toutefois que ses effets proviennent d'une interaction avec d'autres éléments de ce programme thérapeutique. Par exemple, les effets du chant ne pourraient se révéler que dans une thérapie individuelle et très structurée comme la MIT. Nous examinons donc dans un second temps le chant dans une activité de loisirs. Le quatrième chapitre présente une étude de groupe contrôlée, randomisée et à simple insu testant les effets de l'activité de chorale dans la réadaptation de l'aphasie. Etant donné le peu d'informations fournies par les écrits scientifiques sur ce sujet, dans cette étude, nous observons les effets du chant sur plusieurs mesures pertinentes à la réadaptation de l'aphasie, soit en premier lieu la communication fonctionnelle, mais également les habiletés de parole et de langage, ainsi que l'humeur et la qualité de vie. Les principaux résultats de cette thèse sont ensuite intégrés dans une discussion générale sur la façon dont le chant peut être considéré comme atout dans la réadaptation des personnes aphasiques et suggère des pistes de futures recherches.

Chapitre 2 - Melodic Intonation Therapy: Back to basics for future research

Anna Zumbansen^{1,3}, Isabelle Peretz^{2,3}, Sylvie Hébert^{1,3}

1. School of Speech Pathology and Audiology, Faculty of Medicine, Université de Montréal

2. Department of Psychology, Université de Montréal

3. BRAMS, International Laboratory for Research on Brain, Music, and Sound, Université de Montréal

Frontiers in Neurology, 5:7. doi: 10.3389/fneur.2014.00007

Correspondence should be addressed to:

Sylvie Hébert, Ph.D.
School of Speech Pathology and Audiology
Faculty of Medicine
Université de Montréal
C.P.6128, succursale Centre-Ville
Montréal, Qc.
H3C 3J7
Phone: +1-514-343-6111, # 2594
Fax : +1- 343-2175

2.1 Abstract

We present a critical review of the literature on Melodic intonation therapy (MIT), one of the most formalized treatments used by speech-language therapist in Broca's aphasia. We suggest basic clarifications to enhance the scientific support of this promising treatment. First, therapeutic protocols using singing as a speech facilitation technique are not necessarily MIT. The goal of MIT is to restore propositional speech. The rationale is that patients can learn a new way to speak through singing by using language-capable regions of the right cerebral hemisphere. Eventually, patients are supposed to use this way of speaking permanently but not to sing overtly. We argue that many treatment programs covered in systematic reviews on MIT's efficacy do not match MIT's therapeutic goal and rationale. Critically, we identified two main variations of MIT: The French *Thérapie mélodique et rythmée* (TMR) that trains patients to use singing overtly as a facilitation technique in case of speech struggle and *palliative versions of MIT* that help patients with the most severe expressive deficits produce a limited set of useful, readymade phrases. Second, we distinguish between the immediate effect of singing on speech production and the long-term effect of the entire program on language recovery. Many results in the MIT literature can be explained by this temporal perspective. Finally, we propose that MIT can be viewed as a treatment of apraxia of speech more than aphasia. This issue should be explored in future experimental studies.

Keywords: Melodic intonation therapy; Aphasia; Speech disorders; Apraxia of speech; Treatment; Rehabilitation; Speech therapy; Music therapy.

2.2 Introduction

Melodic Intonation Therapy (MIT, Albert et al., 1973; Sparks et al., 1974) is a treatment program used by speech-language pathologists for the rehabilitation of patients with speech production disorders. At the first levels of the MIT program, musical components are used to facilitate verbal expression. Typically, the clinician asks the patient to produce everyday sentences in a singing-like manner that exaggerates the natural prosody (pitch variation and rhythmic features) while tapping with the left hand on each syllable. MIT was initially based on the hypothesis that music processing regions of the right cerebral hemisphere had language capabilities, and that they could potentially compensate for damaged left hemisphere language regions. The participation of the left hand was thought to help the intoned-speech facilitation technique stimulate language-capable areas in the right hemisphere (Helm-Estabrooks, 1983). The program is described in detail in a manual and a demonstration video (Helm-Estabrooks & Albert, 2004; Helm-Estabrooks, Nicholas, & Morgan, 1989). The American Academy of Neurology has rated the MIT as promising for brain-damaged patients who meet the criteria for Broca's aphasia (AAN, 1994).

Because MIT is one of the most formalized treatments in speech-language therapy (AAN, 1994), it is particularly well suited for scientific study. However, 40 years after its original publication, systematic reviews still comment on the low quality of the MIT efficacy studies and raise questions regarding the treatment mechanisms (Hurkmans, de Bruijn, Boonstra, et al., 2012; Van der Meulen, Van de Sandt-Koenderman, & Ribbers, 2012). In fact, in addition to intoned speech, MIT includes various other therapeutic techniques (e.g., rhythmic speech, auditory and visual cueing, production of formulaic expressions) that make the study of MIT's mechanisms challenging.

There is no consensus in the literature on the definition of MIT, which has sometimes been reduced to the intoned-speech facilitation technique rather than the entire program, similar to describing a recipe as one of the ingredients. Consequently, so-called MIT programs vary widely. Moreover, it is important to distinguish between the immediate effects of the technique on speech accuracy and the longer-term effects of the entire program on language recovery. In our review, we discuss the implications of the main deviations from the original MIT. A second objective is to consider the plausible mechanisms involved in the MIT and to suggest novel approaches in order to understand better these mechanisms.

2.3 MIT and its variations

First, we will define the basic goal of MIT according to its designers and how they developed MIT's rationale with this in mind (Albert et al., 1973; Helm-Estabrooks, 1983; Sparks et al., 1974).

2.3.1 Goal of the original MIT

MIT was developed to improve propositional language (Albert et al., 1973; Sparks et al., 1974), or the generative and controlled language production that people use in everyday life to express their ideas (Jackson, 1878). Propositional language requires an assemblage of structures according to a set of phonological, morphological, and grammatical rules and in accord with a lexicon. It is opposed to non-propositional language (also referred to as automatic, or formulaic language), which is also used in everyday life, but which consists of a repertory of readymade and over-learned expressions (for example, idioms, proverbs, and even longer material in prayers or in songs; see Van Lancker Sidtis, 2006 for a review). This type of non-generative verbalization is known to be relatively preserved in Broca's aphasia (Van Lancker Sidtis, 2006). MIT uses everyday

sentences, thus, a part of the verbal material falls into the formulaic category. Speech formulas (e.g., “good morning”, “how are you?”) and sentence stems (e.g., “I am”, “I want”) are often used, especially in the first levels of the program (Helm-Estabrooks & Albert, 2004; Helm-Estabrooks et al., 1989). Formulaic expressions are relevant in speech and language therapy because they represent a significant proportion of spoken phrases in daily living (at least 25% in American English, Van Lancker-Sidtis & Rallon, 2004). Moreover, this verbal material may be of high value to keep the patients motivated throughout the therapy because it is easier to produce than propositional phrases. In sum, MIT uses both formulaic and non-formulaic verbal material although the goal remains to improve propositional speech. It remains unclear, however, how training on formulaic verbal material results in improvement in propositional speech.

Because MIT targets generative speech, the American Academy of Neurology recommends that efficacy studies should measure the effect of the program on non-trained material, standard language tests, and spontaneous connected speech (AAN, 1994). Ideally, the language assessment should be sensitive to capture the proportion of conventionalized speech formulas in spontaneous utterances.

2.3.2 Rationale of the original MIT program

The original MIT is based on the observation that people with aphasia are able to sing familiar songs (Yamadori et al., 1977), but that a therapy based on this kind of activity has no impact on the recovery of propositional language (Sparks et al., 1974). Nevertheless, it was thought that regions of the right hemisphere involved in music processing could take over the homologue-damaged regions of the left hemisphere if they were properly stimulated (Sparks et al., 1974). In behavioural terms, the idea is that patients can learn a permanent new way of speaking through singing.

The MIT guides the patient to gradually adopt this new way of speaking (Figure 2.1). In the first levels, the patient learns to speak everyday sentences using a facilitation technique called *intoned-speech*. Intoned-speech is made of pitch and rhythm features based on the exaggeration of normal speech prosody (Sparks, 2008; Sparks & Holland, 1976). The varying pitch of speech is reduced to two constant pitches, which are two musical notes usually separated by a third or a fourth. The high pitch is used for stressed syllables and the low pitch for unstressed syllables. The rhythm of normal speech is also musically stylized: the tempo is lengthened, the rhythmic pattern is reduced to quarter and eighth notes and the loudness is increased on stressed syllables.

Because the patient learns a new way to speak, and not a set of sentences, the verbal material must be copious, varied, and presented so as to avoid the use of rote memory (Sparks, 2008). The treatment intensity is adapted to this type of learning: frequent sessions (at least 3/week) for three to six weeks (AAN, 1994).

The verbal material is worked out step by step, using left hand tapping in addition to intoned-speech to stimulate the right hemisphere (Helm-Estabrooks, 1983). The procedure begins with the easiest condition (i.e., intoning in unison with the clinician) and progresses to more autonomous production (i.e., responses to questions). When the patient has mastered overt intoned-speech, the last program level is introduced, where patients progressively learn to drop the musical components from their speech output. To do so, the clinician uses another facilitation technique called *Sprechgesang*. Sprechgesang has the same rhythmic features than intoned-speech but the constant pitches are replaced by a more varying pitch, more similar to speech than singing. Thus, Sprechgesang is half-way between singing and speech (Sparks, 2008).

2.3.3 Variations of MIT and implications in efficacy studies

2.3.3.1 *The intoned-speech facilitation technique versus the MIT program*

Intoned-speech is the main facilitation technique of MIT. It has been extensively described by Sparks and colleagues (Sparks, 2008; Sparks & Holland, 1976) to help clinician implementing MIT in their clinical practice. Because MIT has sometimes been reduced to the intoned-speech facilitation technique rather than considered as an entire program, the distinction between a facilitation technique and a treatment program is not always made. Speech and language therapists use different techniques to facilitate verbal output, such as phonemic cuing, semantic cuing, simultaneous imitation of speech and articulatory movements (i.e., lip-reading). The effect of a facilitation technique is immediate and highly dependent on the facilitating condition. In speech and language therapy, a treatment program is a plan of actions designed to attain a specific therapeutic goal. In contrast to a facilitation technique, the effect of a treatment program reveals itself with time, as measured outcomes associated with the therapeutic goals. When designing a therapy, clinicians choose which facilitation techniques are relevant for the patient, when to use them, and to which verbal material they are applied.

MIT is a treatment program that combines several facilitation techniques, including intoned-speech, Sprechgesang (i.e., rhythmically emphasized prosody), unison production with the clinician, and lip-reading (Figure 2.1). Although intoned-speech is the main facilitation technique, it could be included in other treatment programs having different goals, rationale, and design. In the following section, we review some variations made to the original MIT program and its facilitation technique.

MIT program



- Verbal material: numerous sentences of daily living
- Intoned pattern : exaggeration of normal prosody on two notes
- Tapping with the left hand
- Visual material: relevant picture for each sentence
- Lip-reading allowed

Level 1 until session score \geq 90% for five consecutive sessions

Steps for each sentence:

- Humming
- Int** Unison
- Int** Unison with fading
- Int** Repetition
- Int** Response to a question

Level 2 until session score \geq 90% for five consecutive sessions

Steps for each sentence:

- Int** Listening
- Int** Unison with fading
- Int** Delayed repetition
- Int** Response to a question

Level 3 until session score \geq 90% for five consecutive sessions

Steps for each sentence:

- Int** Delayed repetition
- Spg** Listening
- Spg** Unison with fading
- NSp** Delayed repetition
- NSp** Response to a question

TMR program



- Verbal material: numerous sentences
- Intoned pattern : exaggeration of normal prosody on two notes but artificial emphasis (high, long note) on omitted words
- Tapping with any part of the body
- Visual material: written sentence with a graphic representation of the melodic pattern (TMR representation)
- No lip-reading allowed

Level 1

Steps for each sentence:

- Introduction to rhythmic sequences
- Humming
- Introduction to TMR representations

Level 2 ending two or three months after beginning of the program

Steps for each sentence:

- Int** Listening
- Int** Unison
- Int** Unison with fading
- Int** Repetition
- Int** Response to a question

Level 3 on several months, less intensive

Using **Int** as a facilitation technique in different situations of communication

Figure 2.1: Comparison between MIT (Helm-Estabrooks et al., 1989) and TMR (Van Eeckhout & Bhatt, 1984). Int: Intoned item; Spg: Sprechgesang item (halfway between normal speech and intoned speech, i.e., rhythmically emphasized prosody); NSp: Item in normal speech.

2.3.3.2 *Analysis of MIT's modifications in two recent systematic reviews*

We examined 14 publications (Appendix I, Table 2.1) identified as MIT efficacy studies in two recent systematic reviews (Hurkmans, de Bruijn, Boonstra, et al., 2012; Van der Meulen et al., 2012). We found that all the treatments shared two characteristics. First, they guided patients to produce some verbal material on a melody. Second, there is always a progression from the most facilitating and assisted condition to a more autonomous production of intoned-speech, which usually includes unison, unison with fading, immediate repetition, delayed repetition, and response to a question. However, of the 14 publications, we found only five in which the programs matched MIT therapeutic goals and rationale (Bonakdarpour, Eftekhazadeh, & Ashayeri, 2003; Naeser & Helm-Estabrooks, 1985; Schlaug et al., 2008; Schlaug, Marchina, & Norton, 2009; Sparks et al., 1974). We detail below four types of modifications that can change the very basics of the original MIT.

Verbal Material and Outcome Measures – Five studies (Baker, 2000; Goldfarb & Bader, 1979; Hough, 2010; Springer, Willmes, & Haag, 1993; Wilson et al., 2006) measured improvements on trained material following a program, where patients were given intensive training in order to produce a limited set of sentences. The results do not allow drawing generalized interpretations concerning generative language. Unlike the original MIT, the goal of these rehabilitation protocols is not to restore generative language. Instead, the goal is to provide severely impaired patients with a few readymade sentences that can be quickly used for basic communication in everyday situations. In this perspective, the protocols may be viewed as *palliative* versions of MIT, and certain generalizations may be made. For example, Hough (2010) observed improvements on non-trained items and standard language tests, although they were not statistically analysed. Thus, palliative versions of MIT may be an interesting option for patients who do not reach the higher levels of the original program. These protocols could also be tested with the considerable subgroup of aphasic patients who do not fit the strict candidacy criteria for original MIT (AAN, 1994; Sparks et al., 1974).

Therapeutic Program Schedule – In MIT, the final treatment sessions are designed to help the patient gradually return to normal speech. The end goal is permanent use of a new way of speaking through melodic intonation, but not intoned speech output. Four publications (Baker, 2000; Marshall & Holtzapple, 1976; Popovici, Mihailescu, & Voinescu, 1992; Wilson et al., 2006) do not mention whether or how a return to normal speech was planned. In a French version of the MIT, *Thérapie mélodique et rythmée* (TMR, Van Eeckhout & Bhatt, 1984), used by Belin and colleagues (1996), there is no guided return to normal speech. The patient learns to overtly resort to the intoned technique as occasional assistance in case of trouble. This approach is consistent with the recommended TMR schedule (Figure 2.1), which ends with an extended, less intensive period where the patient is trained to use the facilitation technique from time to time in different daily situations. In two other studies (Buttet & Aubert, 1980; Springer et al., 1993), only the intoned technique was used for its immediate facilitation effect in treatment programs that otherwise differed completely from the original MIT.

Construction of Intoned Items – In MIT, the melody used to intone sentences consists of an exaggeration of the normal prosody. The musical quality is drawn directly from typical prosody, because it is thought to activate musical regions in the right cerebral hemisphere that could have language capability. However, in the sung items of TMR (Belin et al., 1996; Van Eeckhout & Bhatt, 1984), some typically non-accented words are intentionally emphasized in the melody because they are often omitted in aphasic speech (e.g., function words, such as articles and prepositions). According to Van Eeckhout and Bhatt (1984), because the construction of intoned items is based on linguistic and not musical criteria, this departure from the original MIT is in line with TMR's rationale, which does not assume right hemisphere involvement in language recovery. The principle of TMR is instead behavioural: the prosodic components are thought to play an important role in verbal communication, and focusing on the melodic aspect of speech can decondition patients' preoccupations with their speech production deficit (Van Eeckhout & Bhatt, 1984). In one of the palliative versions of MIT (Baker, 2000), each trained phrase is sung

using a more complex melody than the typical two-pitch melodic intonation of the original MIT, and the clinician uses an instrument to create harmony. The musical element is a mnemonic cue that helps patients recall trained sentences rather than facilitating general verbal production, as in the original MIT.

Tapping – Tapping with the left hand is related to the presumed right hemisphere involvement in the original MIT. However, tapping was not included in the treatment in two studies (Baker, 2000; Hough, 2010), and three other publications (Marshall & Holtzapple, 1976; Popovici et al., 1992; Springer et al., 1993) did not mention which hand was used to tap the rhythmic component of the melody. TMR also allows using parts of the body other than the left hand, as this modification of the protocol does not consider cerebral hemisphere dominance for the treatment effect (Van Eeckhout & Bhatt, 1984).

2.3.4 Concluding remarks

A number of MIT modifications may reflect adaptations to the various personal and clinical profiles in people with aphasia, even when the deficit is categorised as Broca's aphasia (Baker, 2000; Marshall & Holtzapple, 1976). In fact, the authors of the original MIT encouraged clinicians to adapt the protocol to specific patient needs (Sparks & Holland, 1976). However, the above listed modifications have basic therapeutic implications. Two main variations of MIT can be identified according to their therapeutic goals: palliative MIT and TMR. Instead of learning a new internalized way to speak, palliative versions of MIT train patients to produce a limited set of sentences, and TMR train patients to use a facilitation technique overtly when needed. Thus, efficacy reports on modified MIT versions cannot be considered evidence of the efficacy of the MIT. To date, the original MIT has demonstrated the best results in treating Broca's aphasia, but this is supported by only five studies in a total of 31 patients (Bonakdarpour et al., 2003; Naeser & Helm-Estabrooks, 1985; Schlaug et al., 2008, 2009; Sparks et al., 1974). Two randomized controlled clinical trials are currently underway in the United States (Schlaug & Norton, 2011a)

and The Netherlands (Van der Meulen, 2013), and will hopefully provide more solid support for MIT's efficacy.

Some modifications (e.g. construction of intoned items based on linguistic rather than melodic features, no use of left hand tapping) are also associated with a departure from the rationale of the original MIT. At least theoretically, these modifications could have an impact on the mechanisms by which MIT works on language recovery.

2.4 Mechanisms

2.4.1 Role of the right cerebral hemisphere

The initial hypothesis concerning the role of the right cerebral hemisphere to the MIT efficacy remains debated. Table 2.2 (in Appendix I) summarises the brain imaging studies that have tested this hypothesis in a total of 22 participants with aphasia. Whereas some results are supportive (Schlaug et al., 2008, 2009; Zipse, Norton, Marchina, & Schlaug, 2012), others fail to support MIT's rationale (Laine, Tuomainen, & Ahonen, 1994), and some researchers have concluded that MIT instead promotes left peri-lesional activation (Belin et al., 1996; Breier, Randle, Maher, & Papanicolaou, 2010; Sandt-Koenderman et al., 2010). Besides the fact that these studies used different functional imaging techniques, at least four major factors could explain these inconsistent findings.

First, only three of the seven studies used the original MIT (Laine et al., 1994; Schlaug et al., 2008, 2009). As discussed above, some variations in protocol changed the original treatment goal and rationale. Some of these modifications may involve different brain substrates than the original MIT. In fact, no study supporting the left hemisphere hypothesis has used the original MIT protocol.

Second, not all studies used pre- and post-therapy acquisition. Belin and colleagues (1996) only reported post-treatment data in a selected group of participants who showed clear improvement on language tests after TMR. Laine and colleagues (1994) acquired pre-treatment data only. In both studies, pre- and post-treatment differences in brain activation patterns during speech production are not reported. Thus, the results cannot be associated with the treatment effect.

Third, the functional neuroimaging paradigms differed across studies. One study used a covert action naming task (Breier et al., 2010), another used a lexical decision task (Sandt-Koenderman et al., 2010), and the remaining studies used repetition of target words or phrases (Belin et al., 1996; Laine et al., 1994; Schlaug et al., 2008; Zipse et al., 2012). Even within a single aphasic patient, lateralization in brain activation following therapy varies depending on the language task (Cherney & Small, 2006). Therefore, caution must be taken when comparing studies using different brain imaging paradigms.

Individual differences constitute another important factor to consider. Lateralization of brain activation related to language tasks likely varies depending on the time elapsed since a stroke (Saur et al., 2006). Moreover, it is unclear if right hemisphere activation is correlated with language improvements (Anglade, Thiel, & Ansaldo, 2014). For example, Zipse and colleagues (2012) recently reported in a successfully treated teenager with Broca's aphasia that brain activations in the right hemisphere during a spoken repetition task increased with the first 40 MIT sessions and decreased 40 sessions later. This was interpreted as the result of automatization of the MIT way of speaking. Brain reorganisation after stroke also highly depends on the site and extent of lesions (Crosson et al., 2007). According to the hierarchical model of brain compensation strategies after stroke (Heiss & Thiel, 2006), right hemisphere areas can support some language recovery only if essential language areas of the left hemisphere are destroyed. Thus, much of the potential specific brain correlates of MIT can be masked by individual factors.

Despite the difficulty of properly comparing the different studies in terms of the brain substrates involved in MIT, three consistent observations may be made, based on four reports that used a similar repetition paradigm of bisyllabic words and/or short phrases with aphasic participants in the chronic stage (Belin et al., 1996; Laine et al., 1994; Schlaug et al., 2008; Zipse et al., 2012). Two publications found consistent right lateralized activation when contrasting normal speech with silence (Belin et al., 1996; Schlaug et al., 2008). As healthy subjects usually show more activation in the left hemisphere under these conditions, Belin and colleagues interpreted this activation pattern as maladaptive, whereas Schlaug and colleagues considered it a beneficial cortical reorganization. However, a left lateralized activation pattern was reported when contrasting intoned with normal speech in participants with Broca's aphasia (Belin et al., 1996; Laine et al., 1994). This contrast is attributable to the effect of MIT's main facilitation technique (i.e., intoned-speech). Surprisingly, this finding does not support the idea that the use of musical components elicits more activation in the right hemisphere, although participants produced more words correctly when singing compared to natural speech, in French (Belin et al., 1996). Conversely, increased activation was found in the right hemisphere when comparing normal speech pre- and post-treatment (Schlaug et al., 2008; Zipse et al., 2012). This contrast is attributable to the overall effect of MIT as a program. In this case, results are in line with the original MIT rationale.

Some evidence point to an association of formulaic expressions with right frontotemporal areas, the right basal ganglia and, possibly, the right cerebellum (Ackermann, Wildgruber, Daum, & Grodd, 1998; Ryding, Bradvik, & Ingvar, 1987; Sidtis, Canterucci, & Katsnelson, 2009; Speedie, Wertman, Ta'ir, & Heilman, 1993; Van Lancker Sidtis & Postman, 2006). Although firm conclusions regarding these brain correlates are not possible to date, it has been proposed that the repeated training of formulaic verbal material could lead to the specific reinforcement of a right hemisphere circuits (Stahl et al., 2013). At least theoretically, neuroimaging results previously attributed to singing could actually arise from the extensive use of conventionalized speech

formulas. The formulaic status of the stimuli should be taken into account in the context of neuroimaging studies. Unfortunately, the stimuli used in brain imaging studies of MIT are usually neither provided nor described with regard to formulaicity. This certainly deserves more attention in future studies.

Thus, the role of the cerebral hemispheres in the MIT mechanism could be better determined by distinguishing the facilitation technique effect and the program effect. How these two effects interact remains to be understood, and could be explored within the broader issue of brain reorganization after stroke. To date, brain imaging data acquired pre- and post MIT are only available for 12 participants (Appendix I, Table 2.2). Increased right hemisphere activation or white matter plasticity were found following original MIT in nine participants with chronic aphasia and large left hemisphere lesions (Schlaug et al., 2008, 2009; Zipse et al., 2012) but Schlaug and colleagues (2009) argue that using the right hemisphere for language processing might be the only option for such patients. Additional functional neuroimaging data using the same methodology are needed to fuel the debate on the cerebral correlates of the MIT effect. However, this debate should not overshadow research on other, more behavioural hypotheses of MIT mechanisms.

2.4.2 Mechanisms of the intoned-speech facilitation technique (cross-sectional studies)

2.4.2.1 Singing along rather than singing alone

One of the most compelling reasons for using singing in a speech facilitation technique in MIT (Albert et al., 1973) is that patients with severe non-fluent aphasia were clinically described to produce words in familiar songs although they had otherwise extremely reduced speech output (Gerstman, 1964; Symonds, 1953). Further reports (Jacome, 1984; Keith & Aronson, 1975; Yamadori et al., 1977) gave rise to the general idea that singing would provide an effective way for people with aphasia to pronounce words. More recently, however, controlled quantitative studies have questioned this idea, having failed to demonstrate the superiority of the singing condition

over normal speech for word production in non-fluent aphasia (Cohen & Ford, 1995 [12 subjects]; Hébert et al., 2003 [1 subject]; Peretz et al., 2004 [1 subject]; Stahl et al., 2011 [17 subjects]). It was hypothesized that the automatic status of lyrics in over-learned songs could account for the earlier clinical descriptions of better verbal production in familiar songs compared to spontaneous speech.

In a thorough study of the facilitation effect of singing in aphasia, Racette and collaborators (2006) measured the number of correctly produced words by eight participants with non-fluent aphasia in a repetition task involving target sentences composed of familiar or non-familiar verbal material. They also compared verbal production when singing or speaking, and in unison with an auditory model or alone. Results showed no significant difference between singing and speaking alone, whether the verbal material was familiar or not. The only condition that appeared to effectively facilitate word production in patients with non-fluent aphasia in this study was *singing along* (also referred to as *choral singing*, *unison singing*, or *song shadowing*). Interestingly, this is the condition that the authors of MIT deemed the most clinically facilitating for teaching the intoned-speech technique to patients.

Racette and colleagues further discuss two results of their study: (1) the finding of *singing along over singing alone* and (2) the finding of *singing along over speaking along*. According to the authors, singing in unison promoted better speech output than singing alone, because it allowed patients to synchronize with a stable model, reducing the task-associated memory load compared to sung repetition alone. They speculated that unison production had a positive impact on the accuracy of motor speech planning and performance through the involvement of the mirror neuron system (Iacoboni et al., 1999; Rizzolatti & Arbib, 1998) or the auditory–motor interface (Callan et al., 2006; Hickok, Buchsbaum, Humphries, & Muftuler, 2003; Warren, Wise, & Warren, 2005). These two theoretical systems suppose a direct relationship between perception and action in language (Hickok et al., 2003; Rizzolatti & Arbib, 1998) and music (Callan et al., 2006). With regard to the second contrast (i.e., singing along over speaking along), Racette and

colleagues (2006) suggested that the ability to imitate in synchrony with an auditory model could be easier when the words are sung rather than spoken, because sung lyrics are more regular in rhythm than spoken words, and greater temporal regularity allows better synchronization (Large & Palmer, 2002). However, syllable duration was not controlled in this experiment since the stimuli were made of natural singing or natural speech. The sung syllables were almost twice as long as the spoken syllables. Consequently, the superiority of choral singing over choral speech may actually depend on differences in syllable duration. The study of Stahl and colleagues (2011) provides support for this view: Controlling for syllable duration, they did not find an effect of choral singing over choral speech in a group of 17 patients with non-fluent aphasia.

In the next section, we address the importance of rhythmic aspects (i.e., rhythmicity, tempo and syllable duration) in MIT's main facilitation technique.

2.4.2.2 Contribution of rhythm and pitch variation in the intoned-speech facilitation technique

Several studies have attempted to determine the relative contribution of the pitch and rhythmic components as used in MIT's main facilitation technique (Boucher, Garcia, Fleurant, & Paradis, 2001 [2 subjects]; Laughlin, Naeser, & Gordon, 1979 [5 subjects]; Stahl et al., 2011 [17 subjects]) and found that production of target sentences during MIT sessions appears facilitated by rhythm rather than pitch adaptations. Stahl and colleagues (2011) were able to show that in average, people with aphasia do not benefit from singing over and above rhythmic speech. Moreover, they found that rhythmicity was mostly effective for patients with lesions including the basal ganglia, which is often the case in Broca's aphasia (Dronkers, Plaisant, Iba-Zizen, & Cabanis, 2007). Interestingly, the rhythmic advantage for speech seems to arise even when hand tapping is absent (Stahl et al., 2011). Furthermore, this element has been reported to be disturbing for the immediate facilitation effect of speech in some cases and not in others (Boucher et al., 2001; Hough, 2010; Marshall & Holtzapple, 1976). Stahl and colleagues (2011) found that patients with larger basal ganglia lesions produced more syllables correctly when they were singing or

speaking to auditory rhythmic cues (via a metronome). Thus, patients with non-fluent aphasia may critically rely on rhythmic cues but it does not necessarily need to be given in the tactile modality.

It has also been proposed that the effect of the intoned-speech facilitation technique could depend on the rhythmic properties of the spoken language (Racette et al., 2006; Stahl et al., 2011). Natural speech in stressed-timed languages (e.g., English, German) has a clearly defined metrical stress pattern whereas syllable-timed languages (e.g., French) do not have this level of precision. Syllable timed-languages are made of syllables approximately of equal duration. If the rhythmic component is a critical factor that accounts for the facilitation effect of the singing facilitation technique, the rhythmic nature of a subject's language could also have a role in this effect. On one hand, aphasics speaking a syllable-timed language could benefit from the adjunction of a rhythmical element in speech because rhythmic salience may help the speech segmentation in syllables and words. In TMR (French), the intoned phrases are produced on a melodic rhythm with natural and artificial stresses. The latter are associated with some syllables/words (i.e., function words) that are usually unstressed in normal speech and often omitted in aphasic speech. These additional stresses are thought to help aphasic patients to better produce these words in the intoned sentences. On the other hand, patients whose mother tongue is a stressed-timed language could benefit from the adjunction of a rhythmical element in speech because it may help them to emphasize the natural rhythmic pattern of their language. They could regain more natural prosody that is often disrupted by apraxic symptoms in the speech of non-fluent aphasics. These differential effects remain to be investigated.

Finally, another important aspect of singing is that it slows down articulatory tempo compared to natural speech (Racette et al., 2006). In fact, singing and rhythmic pacing were found to be similarly effective in slowing down articulatory tempo in patients with motor speech deficits (Pilon, McIntosh, & Thaut, 1998) and several studies suggest that longer syllable durations can have a positive effect on speech production (Hustad, Jones, & Dailey, 2003;

Laughlin et al., 1979; Racette et al., 2006; Stahl et al., 2011). Thus, the facilitation effect of the intoned-speech technique could also arise from a syllable duration effect – irrespective of whether singing or rhythmic pacing is used to reduce the articulatory tempo.

2.4.3 Contribution of musical components in language recovery after MIT (longitudinal studies)

In an efficacy study, Schlaug and colleagues (2008 [2 subjects]) compared the original MIT with a control therapy designed to resemble MIT but without the pitch and rhythmic components. Because MIT led to greater improvement than the control treatment on standard language tests, these components were deemed key efficacy factors for MIT.

Only two longitudinal studies considered differential effects of pitch and rhythm (Stahl et al., 2013; Wilson et al., 2006). Both used a palliative version of MIT (i.e., an intensive training of a limited set of sentences). Wilson and colleagues (2006) used a rigorous single-case design with KL, an experienced musician with chronic severe Broca's aphasia. KL was trained with a first list of ten sentences using classical melodic intonation and tapping, and a second list using the rhythmic component but no pitch variation. A third list (control list) was not trained. One week after intervention, KL showed significant improvement in recall and production of the trained sentences compared to the control list, with no significant difference between the two training conditions. It is only five weeks after the end of therapy that a more durable effect of combined pitch variation and rhythm was found. According to the authors, this learning condition may promote more efficient memory storage or access to the trained phrases. However, their patient was an experienced musician, such that it is unknown whether the findings generalize to a larger clinical population.

In a group study made of musically naive subjects, Stahl and colleagues (2013) compared the production of 15 common sentences trained with a well-known melody in five participants,

with rhythm only in five other subjects, or non-trained in a third group of five subjects who underwent standard speech therapy (control group). They found greater improvement in both groups who trained the list of sentences as compared to the control group. No significant difference appeared at the group level between the training conditions after the treatment or at three-month follow-up. The results provide support for the idea that rhythm may well be the critical component in palliative versions of MIT. Pitch variation did not add any clinical effect over rhythm in this group of patients in contrast to Wilson and colleagues' case study (Wilson et al., 2006). Wilson and colleagues' case was an experienced singer whereas none of the participants of Stahl and colleagues had musical training. Thus, pitch variation might only help maintaining therapeutic gains in trained sentences when participants have a significant musical background. This consideration deserves more attention in future studies. In both studies, no transfer to the untrained phrases was significant but patients made considerable progress in the production of trained phrases in a short time, providing support for the hypothesis that palliative versions of MIT can be a suitable choice for some aphasic patients.

To summarize, the rhythmic component appears to be crucial for the immediate facilitation effect of intoned-speech, and it also plays a role in the program effect in palliative versions of MIT. The pitch component may maintain therapeutic gains on trained material in palliative versions of MIT but this effect could depend on the patient's musical background. This echoes what has been demonstrated in the rehabilitation of motor speech problems: some training conditions may drive performance during training, but not during long-term maintenance of learned skills, and vice versa (Ballard et al., 2000). The relative therapeutic effects of rhythm and pitch variation remain to be tested in language recovery using the original MIT. To date, longitudinal studies using original MIT in comparison to a control therapy have not addressed this issue (Schlaug et al., 2008, 2009; Schlaug & Norton, 2011a; Van der Meulen, 2013). In these studies, the control treatments differ from MIT with regard to both rhythmic and pitch elements. Future studies on the original MIT could set up control treatments in a way that it allows

conclusions regarding the relative therapeutic effects of singing, rhythmic speech as well as other therapeutic elements of MIT.

2.5 MIT for apraxia of speech

A question rarely raised in the literature is why MIT appears to have a beneficial effect on verbal production in Broca's aphasia but virtually none on other aphasic syndromes (AAN, 1994). This issue could be directly addressed by examining which symptoms are unique to this aphasia type. Verbal expression in Broca's aphasia is characterized by anomia (i.e., word-retrieval difficulty), agrammatism (i.e., grammar and syntax deficit), and apraxia of speech (AOS: a motor speech disorder affecting the planning or programming of speech movements) (AAN, 1994; Basso, 2003). Anomia is the core symptom of aphasia, and is therefore present in all aphasic syndromes. However, agrammatism and AOS are clinical markers used to differentiate Broca's from other aphasias. MIT has shown little effect on agrammatism (Helm-Estabrooks & Albert, 2004). Therefore, we propose that MIT might act on AOS.

As defined above, AOS is a deficit in motor planning or programming of speech movements (Ballard et al., 2000; McNeil et al., 1997; Van der Merwe, 1997). Apraxic patients typically have an automatic-voluntary motor dissociation. Patients with AOS exhibit this dissociation in speech output (similar to the dissociation between non-propositional and propositional language production in Broca's aphasia). AOS is considered a disorder of speech, not language: the deficit disrupts the translation of a phonological representation into a phonetic representation to be executed by the articulators (Kelso & Tuller, 1981; Kent & Adams, 1989; McNeil et al., 1997; Van der Merwe, 1997; Whiteside & Varley, 1998). Patients with pure AOS do not have the anomia that characterizes aphasia. They have normal phonological representations and they can express themselves well in writing because they have intact non-speech language means (Duffy, 2012). In contrast, they struggle to produce words: their speech is slow, effortful,

and often hard to understand. If MIT acts mainly on the AOS component in Broca's aphasia syndrome, it could be used as a treatment for motor speech problems, and not for language in the strict sense.

Even though efficacy studies on MIT have shown progress in standard test scores on language abilities, it is nevertheless possible that language competence does not improve so much, but instead that reductions in the AOS component of Broca's aphasia allow this competence to be better expressed. For example, patients with Broca's aphasia might fail a picture-naming test due to word-retrieval impairment (anomia) or because they cannot produce the correct word even though they know it (AOS). AOS can be masked by aphasia (Duffy, 2012). Although clinicians use their clinical judgment to differentiate the two conditions, AOS has not received as much attention as language deficit in aphasia, and reliable assessment tools to disentangle the two deficits are lacking (Ballard et al., 2000). Thus, improved scores on standard language tests following MIT might be due to motor speech improvement.

A number of treatments for AOS (see the treatment guidelines for AOS published by Wambaugh, Duffy, McNeil, Robin, & Rogers, 2006) recommend techniques that resemble those used in melodic-speech therapies. They include singing (Keith & Aronson, 1975), hand tapping paired with word or sentence production (Wambaugh & Martinez, 2000; Wertz et al., 1984), control of speech rate by encouraging prolonged speech production, either alone (Southwood, 1987) or in synchrony with a metronome (Dworkin, Abkarian, & Johns, 1988; Wambaugh & Martinez, 2000), or with rhythmic beep sequences matching the normal rhythm of each sentence (Metrical Pacing Technique, Brendel & Ziegler, 2008). Although singing, hand tapping, synchronization or rhythmic and speech rate control are included in MIT, the program has not been tested as a treatment for AOS. We believe that this issue merits investigation. With the advance of available techniques to investigate motor speech deficits (Ballard et al., 2000), future studies could explore this issue more deeply in melodic-speech therapies for patients with Broca's aphasia.

2.6 Conclusion

The renewed interest in MIT-like interventions should provide new opportunities to clarify aspects that have important clinical implications for patients. Therapeutic protocols using singing as a speech facilitation technique are not necessarily MIT. Among the protocols that have been considered as MIT, we distinguish in fact three main types of treatment based on different therapeutic goals: original MIT, TMR, and palliative MIT. The original MIT aims to restore propositional speech through a functional reorganization of language production. MIT variations such as TMR train patients to use a facilitation technique in case of speech struggle, while palliative versions of MIT help patients with the most severe expressive deficits produce a limited set of useful, readymade phrases.

The treatment mechanisms may depend on the therapeutic approach. Future studies could more clearly distinguish between the facilitation effect of a technique and the therapeutic effect of a treatment. Currently, the mechanisms of the intoned-speech technique appear to involve the rhythmic component of the melody along with left hemisphere peri-lesional regions. However, the brain correlates of MIT's therapeutic effect on language recovery are still unclear, even at the gross level of brain hemispheric lateralization. The combination of rhythm and pitch variation seems to be key elements in the original program but the relative role of rhythm and pitch in MIT's therapeutic effect has not been tested yet. Moreover, other components of the treatment could also have a significant impact on language and/or speech recovery, especially in TMR and palliative variations of MIT. This deserves investigation in order to improve the efficacy of speech and language therapy in different clinical profiles of patients with non-fluent aphasia.

Although MIT is regarded as a language treatment for Broca's aphasia, it could also act on motor speech deficits in this aphasic syndrome. Future experimental studies could explore this issue more thoroughly.

2.7 References

- AAN. (1994). Assessment: melodic intonation therapy. *Neurology*, *44*, 566-568.
- Ackermann, H., Wildgruber, D., Daum, I., & Grodd, W. (1998). Does the cerebellum contribute to cognitive aspects of speech production? A functional magnetic resonance imaging (fMRI) study in humans. *Neuroscience Letters*, *247*(2), 187-190. doi: 10.1016/S0304-3940(98)00328-0
- Albert, M. L., Sparks, R. W., & Helm, N. A. (1973). Melodic intonation therapy for aphasia. *Archives of neurology*, *29*, 130-131. doi: 10.1001/archneur.1973.00490260074018
- Anglade, C., Thiel, A., & Ansaldo, A. I. (2014). The Complementary Role of the Cerebral Hemispheres in Recovery from Aphasia After Stroke: A Critical Review of Literature. *Brain Injury*, *28*(2), 138-145. doi: 10.3109/02699052.2013.859734
- Baker, F. (2000). Modifying the melodic intonation therapy program for adults with severe non-fluent aphasia. *Music Therapy Perspectives*, *18*. doi: 10.1093/mtp/18.2.110
- Ballard, K. J., Granier, J. P., & Robin, D. A. (2000). Understanding the nature of apraxia of speech: Theory, analysis, and treatment. *Aphasiology*, *14*(10), 969-995. doi: 10.1080/02687030050156575
- Basso, A. (2003). *Aphasia and its therapy*. New-York: Oxford University Press.
- Belin, P., Van Eeckhout, P., Zilbovicius, M., Remy, P., François, C., Guillaume, S., . . . Samson, Y. (1996). Recovery from nonfluent aphasia after melodic intonation therapy: A PET study. *Neurology*, *47*, 1504-1511. doi: 10.1212/WNL.47.6.1504
- Bonakdarpour, B., Eftekharzadeh, A., & Ashayeri, H. (2003). Melodic intonation therapy in persian aphasic patients. *Aphasiology*, *17*(1), 75-95. doi: 10.1080/729254891
- Boucher, V., Garcia, L. J., Fleurant, J., & Paradis, J. (2001). Variable efficacy of rhythm and tone in melody-based interventions: Implications for the assumption of a right-hemisphere facilitation in non-fluent aphasia. *Aphasiology*, *15*, 131-149. doi: 10.1080/02687040042000098
- Breier, J. I., Randle, S., Maher, L. M., & Papanicolaou, A. C. (2010). Changes in maps of language activity activation following melodic intonation therapy using magnetoencephalography: Two case studies. *Journal of Clinical and Experimental Neuropsychology*, *32*(3), 309-314. doi: 10.1080/13803390903029293

- Brendel, B., & Ziegler, W. (2008). Effectiveness of metrical pacing in the treatment of apraxia of speech. *Aphasiology*, *22*(1), 77-102.
- Buttet, J., & Aubert, C. (1980). La thérapie par l'intonation mélodique. *Revue médicale de la Suisse romande*, *100*, 195-199.
- Callan, D. E., Tsytsarev, V., Hanakawa, T., Callan, A. M., Katsuhara, M., Fukuyama, H., & Turner, R. (2006). Song and speech: Brain regions involved with perception and covert production. *Neuroimage*, *31*, 1327-1342. doi: 10.1016/j.neuroimage.2006.01.036
- Cherney, L. R., & Small, S. L. (2006). Task-dependent changes in brain activation following therapy for nonfluent aphasia: Discussion of two individual cases. *Journal of the International Neuropsychological Society*, *12*, 1-15. doi: 10.1017/S1355617706061017
- Cohen, N. S., & Ford, J. (1995). The effect of musical cues on the nonpurposive speech of persons with aphasia. *Journal of Music Therapy*, *32*(1), 46-57. doi: 10.1093/jmt/32.1.46
- Crosson, B., McGregor, K., Gopinath, K. S., Conway, T. W., Benjamin, M., Chang, Y. L., . . . Sherod, M. G. (2007). Functional MRI of language in aphasia: a review of the literature and the methodological challenges. *Neuropsychology Review*, *17*(2), 157-177. doi: 10.1007/s11065-007-9024-z
- Dronkers, N. F., Plaisant, O., Iba-Zizen, M. T., & Cabanis, E. A. (2007). Paul Broca's historic cases: high resolution MR imaging of the brains of Leborgne and Lelong. *Brain*, *130*(5), 1432-1441. doi: 10.1093/brain/awm042
- Duffy, J. R. (2012). *Motor Speech Disorders: Substrates, Differential Diagnosis, and Management*. (Third^e éd.). Saint-Louis, MO: Elsevier/Mosby.
- Dworkin, J. P., Abkarian, G. G., & Johns, D. F. (1988). Apraxia of speech: The effectiveness of a treatment regimen. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, *53*(3), 280-294. doi: 10.1044/jshd.5303.280
- Gerstman, H. L. (1964). A case of aphasia. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, *29*, 89-91.
- Goldfarb, R., & Bader, E. (1979). Espousing melodic intonation therapy in aphasia rehabilitation: A case study. *International Journal of Rehabilitation Research*, *2*(3), 333-342. doi: 10.1097/00004356-197909000-00002
- Hébert, S., Racette, A., Gagnon, L., & Peretz, I. (2003). Revisiting the dissociation between singing and speaking in expressive aphasia. *Brain*, *126*, 1838-1850. doi: 10.1093/brain/awg186

- Heiss, W.-D., & Thiel, A. (2006). A proposed regional hierarchy in recovery of post-stroke aphasia. *Brain and language*, 98(1), 118-123. doi: 10.1016/j.bandl.2006.02.002
- Helm-Estabrooks, N. A. (1983). Exploiting the right hemisphere for language rehabilitation: Melodic Intonation Therapy. Dans E. Perecman (dir.), *Cognitive processing in the right hemisphere* (p. 229-240). New-York, NY: Academic Press.
- Helm-Estabrooks, N. A., & Albert, M. L. (2004). *Manual of aphasia and aphasia therapy*. Austin, TX: Pro-ed.
- Helm-Estabrooks, N. A., Nicholas, M., & Morgan, A. (1989). Melodic Intonation Therapy program. Austin, TX: Pro-Ed.
- Hickok, G., Buchsbaum, B., Humphries, C., & Muftuler, Y. (2003). Auditory-motor interaction revealed by fMRI: Speech, music, and working memory in area Spt. *Journal of Cognitive Neuroscience*, 15, 673-682. doi: 10.1162/jocn.2003.15.5.673
- Hough, M. S. (2010). Melodic Intonation Therapy and aphasia: Another variation on a theme. *Aphasiology*, 24(6-8), 775-786. doi: 10.1080/02687030903501941
- Hurkmans, J., de Bruijn, M., Boonstra, A. M., Jonkers, R., Bastiaanse, R., Arendzen, H., & Reinders-Messelink, H. A. (2012). Music in the treatment of neurological language and speech disorders: A systematic review. *Aphasiology*, 26(1), 1-19. doi: 10.1080/02687038.2011.602514
- Hustad, K. C., Jones, T., & Dailey, S. (2003). Implementing speech supplementation strategies: effects on intelligibility and speech rate of individuals with chronic severe dysarthria. *Journal of Speech, Language and Hearing Research*, 46(2), 462. doi: 10.1044/1092-4388(2003/038)
- Iacoboni, M., Woods, R. P., Brass, M., Bekkering, H., Mazziotta, J. C., & Rizzolatti, G. (1999). Cortical mechanisms of human imitation. *Science*, 286, 2526-2528. doi: 10.1126/science.286.5449.2526
- Jackson, J. H. (1878). On affections of speech from disease of the brain. *Brain*, 1, 304-330. doi: 10.1093/brain/1.3.304
- Jacome, D. E. (1984). Aphasia with elation, hypermusia, musicophilia and compulsive whistling. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry*, 47, 308-310. doi: 10.1136/jnnp.47.3.308
- Keith, R. L., & Aronson, A. E. (1975). Singing as therapy for apraxia of speech and aphasia: report of a case. *Brain and Language*, 2(4), 483-488. doi: 10.1016/S0093-934X(75)80085-X

- Kelso, J. A. S., & Tuller, B. (1981). Toward a theory of apractic syndromes. *Brain and Language*, *12*(2), 224-245. doi: 10.1016/0093-934X(81)90016-X
- Kent, R. D., & Adams, S. G. (1989). The concept and measurement of coordination in speech disorders. *Advances in Psychology*, *61*, 415-450. doi: 10.1016/S0166-4115(08)60029-1
- Laine, M., Tuomainen, J., & Ahonen, A. (1994). Changes in hemispheric brain perfusion elicited by Melodic Intonation Therapy: A preliminary experiment with single photon emission computed tomography (SPECT). *Logopedics Phoniatrics Vocology*, *19*(1-2), 19-24. doi: 10.3109/14015439409101070
- Large, E. W., & Palmer, C. (2002). Perceiving temporal regularity in music. *Cognitive Science*, *26*, 1-37. doi: 10.1207/s15516709cog2601_1
- Laughlin, S. A., Naeser, M. A., & Gordon, W. P. (1979). Effects of three syllable durations using the melodic intonation therapy technique. *Journal of Speech and Hearing Research*, *22*, 311-320.
- Marshall, N., & Holtzapple, P. (1976). Melodic Intonation Therapy: Variations on a theme (*Clinical Aphasiology: Proceedings of the conference 1976* (p. 115-141). Minneapolis: BRK Publishers.
- McNeil, M. R., Robin, D. A., & Schmidt, R. A. (1997). Apraxia of speech: definition, differentiation, and treatment. Dans M. R. McNeil (dir.), *Clinical Management of Sensorimotor Speech Disorders* (p. 311-344). New York: Thieme.
- Naeser, M. A., & Helm-Estabrooks, N. A. (1985). CT scan lesion localization and response to Melodic Intonation Therapy with nonfluent aphasia cases. *Cortex*, *21*, 203-223. doi: 10.1016/S0010-9452(85)80027-7
- Peretz, I., Gagnon, L., Hébert, S., & Macoir, J. (2004). Singing in the brain: Insights from cognitive neuropsychology. *Music Perception*, *21*, 373-390. doi: 10.1525/mp.2004.21.3.373
- Pilon, M. A., McIntosh, K. W., & Thaut, M. H. (1998). Auditory vs visual speech timing cues as external rate control to enhance verbal intelligibility in mixed spastic ataxic dysarthric speakers: a pilot study. *Brain injury*, *12*(9), 793-803. doi: 10.1080/026990598122188
- Popovici, M., Mihailescu, L., & Voinescu, I. (1992). Melodic Intonation Therapy in the rehabilitation of Romanian aphasics with buccolingual apraxia. *Review of Romanian Neurology and Psychiatry*, *30*, 99-113.
- Racette, A., Bard, C., & Peretz, I. (2006). Making non-fluent aphasics speak: Sing along ! *Brain*, *129*(10), 2571-2584. doi: 10.1093/brain/awl250

- Rizzolatti, G., & Arbib, M. A. (1998). Language within our grasp. *Trends in Neurosciences*, 21(5), 188-194. doi: 10.1016/S0166-2236(98)01260-0
- Ryding, E., Bradvik, B., & Ingvar, D. H. (1987). Changes of regional cerebral blood flow measured simultaneously in the right and left hemisphere during automatic speech and humming. *Brain*, 110(5), 1345-1358. doi: 10.1093/brain/110.5.1345
- Sandt-Koenderman, M., Smits, M., Meulen, I., Visch-Brink, E. G., Lugt, A., & Ribbers, G. M. (2010). A case study of Melodic Intonation Therapy (MIT) in the subacute stage of aphasia: Early re-activation of left hemisphere structures. *Procedia: Social and Behavioral Sciences*, 6, 241-243. doi: 10.1016/j.sbspro.2010.08.121
- Saur, D., Lange, R., Baumgaertner, A., Schraknepper, V., Willmes, K., Rijntjes, M., & Weiller, C. (2006). Dynamics of language reorganization after stroke. *Brain*, 129(6), 1371-1384. doi: 10.1093/brain/awl090
- Schlaug, G., Marchina, S., & Norton, A. (2008). From singing to speaking: why singing may lead to recovery of expressive language function in patients with Broca's aphasia. *Music Perception*, 25(4), 315-323. doi: 10.1525/mp.2008.25.4.315
- Schlaug, G., Marchina, S., & Norton, A. (2009). Evidence for plasticity in white matter tracts of chronic aphasic patients undergoing intense intonation-based speech therapy. *Annals of the New-York Academy of Sciences*, 1169, 385-394. doi: 10.1111/j.1749-6632.2009.04587.x
- Schlaug, G., & Norton, A. (2011). Melodic-intonation-therapy and speech-repetition-therapy for patients with non-fluent aphasia. Repéré le September 2013 à <http://clinicaltrials.gov/ct2/show/study/NCT00903266>
- Sidtis, D., Canterucci, G., & Katsnelson, D. (2009). Effects of neurological damage on production of formulaic language. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 23(4), 270-284. doi: 10.1080/02699200802673242
- Southwood, H. (1987). The use of prolonged speech in the treatment of apraxia of speech. *Clinical Aphasiology*, 15, 277-287.
- Sparks, R. W. (2008). Melodic intonation therapy. Dans R. Chapey (dir.), *Language intervention strategies in aphasia and related neurogenic communication disorders* (p. 837-851). Baltimore: Lippincott Williams & Wilkins.
- Sparks, R. W., Helm, N. A., & Albert, M. L. (1974). Aphasia rehabilitation resulting from melodic intonation therapy. *Cortex*, 10, 303-316. doi: 10.1016/S0010-9452(74)80024-9
- Sparks, R. W., & Holland, A. L. (1976). Method: Melodic intonation therapy for aphasia. *Journal of speech and Hearing Disorders*, 41, 287-297. doi: 10.1044/jshd.4103.287

- Speedie, L. J., Wertman, E., Ta'ir, J., & Heilman, K. M. (1993). Disruption of automatic speech following a right basal ganglia lesion. *Neurology*, 43(9), 1768-1768. doi: 10.1212/WNL.43.9.1768
- Springer, L., Willmes, K., & Haag, E. (1993). Training in the use of whquestions and prepositions in dialogues: A comparison of two different approaches in aphasia therapy. *Aphasiology*, 7(3), 251-270. doi: 10.1080/02687039308249509
- Stahl, B., Henseler, I., Turner, R., Geyer, S., & Kotz, S. A. (2013). How to engage the right brain hemisphere in aphasics without even singing : evidence for two paths of speech recovery. *Frontiers in Human Neuroscience*, 7, 1-12. doi: 10.3389/fnhum.2013.00035
- Stahl, B., Kotz, S. A., Henseler, I., Turner, R., & Geyer, S. (2011). Rhythm in disguise: why singing may not hold the key to recovery from aphasia. *Brain*, 134(10), 3083-3093. doi: 10.1093/brain/awr240
- Symonds, C. (1953). Aphasia. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry*, 16(1), 1-6. doi: 10.1136/jnnp.16.1.1
- Van der Merwe, A. (1997). A theoretical framework for the characterization of pathological speech sensorimotor control. Dans M. R. McNeil (dir.), *Clinical management of sensorimotor speech disorders* (p. 1-25). New York: Thieme.
- Van der Meulen, I. (2013). Effectiviteit van de Melodic Intonation Therapy (MIT). Repéré le September 2013 à <http://www.trialregister.nl/trialreg/admin/rctview.asp?TC=1961>
- Van der Meulen, I., Van de Sandt-Koenderman, M. E., & Ribbers, G. M. (2012). Melodic Intonation Therapy: Present Controversies and Future Opportunities. *Archives of physical medicine and rehabilitation*, 93(1), S46-S52. doi: 10.1016/j.apmr.2011.05.029
- Van Eeckhout, P., & Bhatt, P. (1984). Rythme, intonation, accentuation: la rééducation des aphasies non-fluents sévères. *Rééducation Orthophonique*, 22, 311-327.
- Van Lancker-Sidtis, D., & Rallon, G. (2004). Tracking the incidence of formulaic expressions in everyday speech: Methods for classification and verification. *Language & Communication*, 24(3), 207-240. doi: 10.1016/j.langcom.2004.02.003
- Van Lancker Sidtis, D. (2006). Where in the Brain Is Nonliteral Language? *Metaphor and Symbol*, 21(4), 213-244. doi: 10.1016/j.neuroimage.2012.06.022
- Van Lancker Sidtis, D., & Postman, W. A. (2006). Formulaic expressions in spontaneous speech of left- and right-hemisphere-damaged subjects. *Aphasiology*, 20(5), 411-426. doi: 10.1080/02687030500538148

- Wambaugh, J. L., Duffy, J. R., McNeil, M. R., Robin, D. A., & Rogers, M. A. (2006). Treatment guidelines for acquired apraxia of speech: Treatment descriptions and recommendations. *Journal of Medical Speech Language Pathology*, *14*(2), 35-67.
- Wambaugh, J. L., & Martinez, A. L. (2000). Effects of modified response elaboration training with apraxic and aphasic speakers. *Aphasiology*, *14*(5/6), 603-617. doi: 10.1044/1058-0360(2013/12-0063)
- Warren, J. E., Wise, R. J. S., & Warren, J. D. (2005). Sounds do-able: Auditory-motor transformations and the posterior temporal plane. *Trends in Cognitive Sciences*, *28*, 636-643. doi: 10.1016/j.tins.2005.09.010
- Wertz, R. T., Lapointe, L. L., & Rosenbeck, J. C. (1984). *Apraxia of speech in adults: The disorder and its management*. Orlando: Grune & Stratton.
- Whiteside, S. P., & Varley, R. A. (1998). A reconceptualisation of apraxia of speech: a synthesis of evidence. *Cortex*, *34*(2), 221-231. doi: 10.1016/S0010-9452(08)70749-4
- Wilson, S. J., Pearsons, K., & Reutens, D. C. (2006). Preserved singing in aphasia: a case study of the efficacy of Melodic Intonation Therapy. *Music Perception*, *24*(1), 23-36. doi: 10.1525/mp.2006.24.1.23
- Yamadori, A., Osumi, Y., Masuhara, S., & Okubo, M. (1977). Preservation of singing in Broca's aphasia. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry*, *40*, 221-224. doi: 10.1136/jnnp.40.3.221
- Zipse, L., Norton, A., Marchina, S., & Schlaug, G. (2012). When right is all that is left: plasticity of right-hemisphere tracts in a young aphasic patient. *Annals of the New York Academy of Sciences*, *1252*(1), 237-245. doi: 10.1111/j.1749-6632.2012.06454.x

2.8 Appendix I: tables

Table 2.1: Some characteristics of the therapeutic protocols regarded as MIT in systematic reviews.

Authors and MIT version (<i>Original, TMR, Palliative or Other</i>)	N	Verbal material	Principal outcome	Schedule	Intoned items	Tapping
Bonakdarpour et al., 2003 <i>Original</i>	7	Numerous sentences	Scores on standard language test; Connected speech analysis	3-4 days/week, over 4 weeks; Original MIT	Exaggeration of normal prosody	Left hand tapping
Naesser & Helm-Estabrooks, 1985 <i>Original</i>	8	Numerous sentences	Scores on standard language test	Over 1-8 weeks; Original MIT	Exaggeration of normal prosody	Left hand tapping
Schlaug et al., 2008 <i>Original</i>	2	Numerous sentences	Scores on standard language test; Connected speech analysis	90 min, 5 days/week over 8 weeks; Original MIT	Exaggeration of normal prosody	Left hand tapping
Schlaug et al., 2009 <i>Original</i>	6	Numerous sentences	Scores on standard language test; Connected speech analysis	75 sessions; Original MIT	Exaggeration of normal prosody	Left hand tapping
Sparks et al., 1974 <i>Original</i>	8	Numerous sentences	Scores on standard language test; Connected speech analysis	Over 3 months; Original MIT	Exaggeration of normal prosody	Left hand tapping
Belin et al., 1996 <i>TMR</i>	7	Numerous sentences	Scores on standard language test	Over 37-42 months; No return to normal speech	Exaggeration of normal prosody but artificial emphasis (high note) on omitted words	Tapping (any part of the body)

Baker, 2000 <i>Palliative</i>	2	Limited set of sentences	Number of sentences recalled	30 min, 3–8 days/week, over 4–27 months; No return to normal speech	Specific musical line and accompaniment for each trained sentence (mnemonic cue)	No tapping
Goldfarb & Bader, 1979 <i>Palliative</i>	1	Limited set of sentences	Intelligibility of trained sentences	60 min, 7 days/week; Return to normal speech	Exaggeration of normal prosody	Left hand tapping
Hough, 2010 <i>Palliative</i>	1	Limited set of sentences	Intelligibility of trained sentences	3 days/week over 8 weeks; No return to normal speech	Exaggeration of normal prosody	No tapping
Springer et al., 1993 <i>Palliative</i>	12	Limited set of sentences with Wh- questions and prepositions	Use of Wh- questions and prepositions in non-trained sentences	60 min, 3–4 days/week, over 2 weeks; MIT's facilitation technique used in a different therapeutic program	Exaggeration of normal prosody	Hand tapping (no more precision)
Wilson et al., 2006 <i>Palliative</i>	1	Limited set of sentences	Intelligibility of trained sentences	2 days/week, over 4 weeks; No return to normal speech	Exaggeration of normal prosody	Left hand tapping
Buttet & Aubert, 1980 <i>Other</i>	7	Numerous sentences	Clinical judgment of propositional language	Up to 20 min, 1–2 sessions/day, 4–5 days/week, over 2–8 months; MIT's facilitation technique used to start sessions of different therapeutic programs.	Exaggeration of normal prosody	Left hand tapping
Marshall & Holtzapple, 1976 <i>Other</i>	2	Numerous sentences made of redundant parts and various core words	Scores on standard language test	60 min, 3 days/week, over 3 months; No return to normal speech	Exaggeration of normal prosody	Hand tapping (no more precision)
Popovici et al., 1992 <i>Other</i>	80 (+ 80 controls)	Numerous sentences	Scores on standard language test	60–120 min, 7 days/week over 2–4 weeks; No return to normal speech	Exaggeration of normal prosody	Hand tapping (no more precision)

Table 2.2: Imaging studies on brain substrates in MIT. LH, Left hemisphere; RH, Right hemisphere.

Authors	Imaging technique	MIT version (<i>Original, TMR, Palliative or Other</i>)	N	Participants' aphasia type	Time of acquisition	Imaging paradigm (contrast if applicable)	Involvement of LH and RH
Schlaug et al., 2008	fMRI	<i>Original</i>	2	Chronic Broca's aphasia	Pre- and post-	Repetition of sentences either with normal prosody or intoned (Normal speech vs. silence)	Pre-: RH and LH Pre- and post-: More RH than pre-
Schlaug et al., 2009	DTI	<i>Original</i>	6	Chronic Broca's aphasia	Pre- and post-	n/a	Pre- and post-: Plasticity in the RH arcuate fasciculus
Laine et al., 1994	SPECT	<i>Original</i>	3	1 chronic Broca's aphasia; 1 chronic mixed non-fluent aphasia; 1 chronic Wernicke's aphasia	Pre-	Repetition of words and sentences either with normal prosody or intoned (Intoned vs. normal speech)	Pre-: More LH than RH in subject with Broca's aphasia; Mixed lateralization in subject with mixed non-fluent aphasia; No difference in patient with Wernicke's aphasia
Belin et al., 1996	PET	<i>TMR</i>	7	2 chronic Broca's aphasia; 5 chronic global aphasia	Post-	Repetition of sentences either with normal prosody or intoned (Normal speech vs. silence; Intoned vs. normal speech)	Post-: More RH than LH (Normal speech vs. silence); More LH than RH (Intoned vs. normal speech)
Sandt-Koederman et al., 2010	fMRI	<i>Palliative</i>	1	Broca's aphasia in the subacute stage post stroke	Pre- and post-	Lexical decision task with non-language input or verbal inputs either with normal prosody or intoned (Normal speech vs. non-language; Intoned vs. normal speech)	Pre- and post-: More LH than pre (normal speech vs. non-language); No difference (intoned vs. normal speech)

Breier et al., 2010	MEG	<i>Palliative</i>	2	Chronic mixed aphasia	Pre- and post-	Covert action naming task	Pre-: More LH than RH Pre- and post-: More LH than pre
Zipse et al., 2012	fMRI and DTI	<i>Other (Original MIT added with two additional techniques)</i>	1	Chronic Broca's aphasia	Pre- and post-	fMRI: Repetition of sentences either with normal prosody or intoned (Normal speech vs. silence); DTI: n/a	Pre-: RH and LH Pre- and post-: More RH than pre (fMRI); Plasticity in the RH arcuate fasciculus (DTI)

Chapitre 3 - The combination of rhythm and pitch can account for the beneficial effect of Melodic Intonation Therapy on connected speech improvements in Broca's aphasia

Anna Zumbansen^{1,3,4}, Isabelle Peretz^{2,3,4}, Sylvie Hébert^{1,3,4}

1. School of Speech Pathology and Audiology, Faculty of Medicine, Université de Montréal

2. Department of Psychology, Faculty of arts and science, Université de Montréal

3. CRBLM, Centre for Research on Brain, Language and Music, McGill University

4. BRAMS, International Laboratory for Research on Brain, Music, and Sound, Université de Montréal, Quebec, Canada

Frontiers in Human Neuroscience, 8, 592. doi: 10.3389/fnhum.2014.00592

Correspondence should be addressed to:

Sylvie Hébert, Ph.D.
School of Speech Pathology and Audiology
Faculty of Medicine
Université de Montréal
C.P.6128, succursale Centre-Ville
Montréal, Qc.
H3C 3J7
Phone: +1-514-343-6111, # 2594
Fax : +1- 343-2175

3.1 Abstract

Melodic intonation therapy (MIT) is a structured protocol for language rehabilitation in people with Broca's aphasia. The main particularity of MIT is the use of intoned speech, a technique in which the clinician stylizes the prosody of short sentences using simple pitch and rhythm patterns. In the original MIT protocol, patients must repeat diverse sentences in order to espouse this way of speaking, with the goal of improving their natural, connected speech. MIT has long been regarded as a promising treatment but its mechanisms are still debated. Recent work showed that rhythm plays a key role in variations of MIT, leading to consider the use of pitch as relatively unnecessary in MIT. Our study primarily aimed to assess the relative contribution of rhythm and pitch in MIT's generalization effect to nontrained stimuli and to connected speech. We compared a melodic therapy (with pitch and rhythm) to a rhythmic therapy (with rhythm only) and to a normally spoken therapy (without melodic elements). Three participants with chronic post-stroke Broca's aphasia underwent the treatments in hourly sessions, 3 days per week for 6 weeks, in a cross-over design. The informativeness of connected speech, speech accuracy of trained and non-trained sentences, motor-speech agility, and mood was assessed before and after the treatments. The results show that the three treatments improved speech accuracy in trained sentences, but that the combination of rhythm and pitch elicited the strongest generalization effect both to non-trained stimuli and connected speech. No significant change was measured in motor-speech agility or mood measures with either treatment. The results emphasize the beneficial effect of both rhythm and pitch in the efficacy of original MIT on connected speech, an outcome of primary clinical importance in aphasia therapy.

Keywords: aphasia, melodic intonation therapy, treatment, speech, pitch and rhythm.

3.2 Introduction

Aphasia is an acquired loss or impairment of the ability to communicate by language following brain damage (usually in the left hemisphere) and is present in more than one-third of stroke survivors (Dickey et al., 2010; Wade, Hewer, David, & Enderby, 1986). Aphasia takes multiple forms. People with Broca's aphasia, one of the aphasic syndromes, have preserved simple verbal comprehension ability but have difficulty understanding complex syntactic sentences and, on the expressive side of language, they experience word-retrieval difficulty (i.e., anomia), grammar and syntax deficit (i.e., agrammatism), and apraxia of speech, a motor-speech disorder affecting the planning or programming of speech movements (AAN, 1994; Basso, 2003).

In its original form, Melodic Intonation Therapy (MIT, Albert et al., 1973; Sparks et al., 1974) is a formalized impairment-based approach of language rehabilitation in people with Broca's aphasia (Albert et al., 1973) (see Zumbansen, Peretz, & Hébert, 2014b for a synthesis of MIT variations). The particularity of MIT in comparison to other therapies for aphasia is that it trains patients to produce speech using a form of singing to facilitate their speech output. The so-called intoned-speech technique is a musical stylization of the normal speech prosody using a few pitches (usually only two, separated by a third or a fourth) and a simple rhythm (quarter and eighth notes) on a slow tempo (Sparks, 2008). The stressed syllables of words are produced with higher voice intensity on the high pitch and a quarter note, whereas the unstressed syllables are produced with lower voice intensity on the low pitch and the eighth note. Patients first learn to intone speech through a structured, intensive therapeutic protocol where they are asked to produce numerous and varied short sentences, with the help of additional facilitation techniques, such as unison production, lip-reading, hand-tapping of the rhythm, and use of formulaic phrases that are often better produced in Broca's aphasia. Each sentence is repeated several times, first in unison with the clinician and gradually more autonomously but always with the intoned-speech technique. After a series of sessions, the last level of the program guides patients to return to a normal speech output and patients are supposed to intone speech only internally. The goal of MIT is to improve propositional

speech, that is, the generative and controlled language on which people rely most to express their ideas in everyday life (Jackson, 1878; Van Lancker-Sidtis & Rallou, 2004). MIT has been rated as promising for the treatment of Broca's aphasia (AAN, 1994). It has been studied in several efficacy studies that have reported improvements in participants' natural connected speech (Bonakdarpour et al., 2003; Schlaug et al., 2008, 2009; Sparks et al., 1974; van der Meulen, van de Sandt, Heijenbroek-Kal, Visch-Brink, & Ribbers, 2014).

The role of the melodic elements in MIT has intrigued scientists since the very early publications of MIT and a variety of mechanisms have been proposed to explain MIT's efficacy (reviewed in Merrett, Peretz, & Wilson, 2014; Zumbansen et al., 2014b). To date, however, few have been tested. The early idea in the 1970s was that musical components could engage music processing regions of the right cerebral hemisphere and that these regions could potentially take over the role of the damaged left hemisphere language regions (Berlin, 1976; Helm-Estabrooks, 1983). The right-hemisphere contribution has been the most studied aspect of MIT but has not been unanimously supported (e.g., Belin et al., 1996). In fact, language hemisphere lateralization after stroke primarily depends on individual factors, and it is still unclear if any speech and language therapy can force the lateralization of language in one hemisphere or the other during brain reorganization after stroke (Anglade et al., 2014).

The role of melodic components in MIT has otherwise been studied at the behavioral level mainly with attempts to understand how rhythm or pitch could account for the beneficial effect of MIT. In transversal studies, the rhythmic component of intoned-speech production appears to be responsible for on-line facilitation of patients' speech accuracy (Boucher et al., 2001; Laughlin et al., 1979; Stahl et al., 2011). Longitudinal studies have used variations of MIT where only a limited set of sentences (10 to 15) is repeatedly trained (i.e., palliative variations of MIT, see Zumbansen et al., 2014b) and examined if participants improved their speech accuracy in normally spoken sentences trained either with intoned speech (i.e., with rhythm and pitch), with rhythmic speech (i.e., without musical pitch) or non-trained (Stahl et al., 2013; Wilson et al., 2006). Significant improvement was

obtained for trained sentences compared to non-trained items and pitch did not add any beneficial effect over rhythm on speech accuracy immediately post-treatment. Therefore, the utility of pitch in MIT is currently questioned. In both studies, no transfer of improvements to the non-trained phrases was observed. One possible explanation is that these versions of MIT did not include a basic characteristic of the original MIT, namely the numerous sentences that have to be presented to avoid the use of rote memory (Sparks, 2008), a strategy that was pointed as a generalization factor by several authors (Nadeau, Rothi, & Rosenbek, 2008; Thompson, 1989). Changes in natural connected speech, the ultimate goal of MIT, were not assessed in these studies.

For a long time, many studies have measured treatment efficacy on trained material only (e.g., number of correct syllables produced in sentences repeatedly trained). Others have used verbal tasks with non-trained items such as sentence repetition and picture naming to capture improvement in specific speech and language abilities (Brady et al., 2012). However, these tasks may not reveal how patients use language in natural speech. In reviewing efficacy studies in the aphasia literature, Beeson and Robey (2006) have distinguished direct effects on trained stimuli, generalization to non-trained stimuli, and generalization to connected speech. Here too we will refer to these effects as direct effect, indirect effect, and generalization, respectively. A common way to measure connected speech improvements in functional communication is to count the presence of Correct Information Units (CIU) in a speech sample. Nicholas and Brookshire (1993) define CIUs as words that are intelligible in context and accurately convey information relevant to the eliciting stimulus. Informativeness, the efficiency in conveying and transmitting correct information to the listener, can be calculated by dividing the number of CIUs in a speech sample by the number of words in the sample. This measure has been validated to assess language in the connected speech of people with aphasia and healthy individuals (Nicholas & Brookshire, 1993).

Little is known about the mechanisms that promote generalization to connected speech in aphasia therapy. A number of treatment components are thought to play a role in this effect (see Frey, 2013 for a recent literature and expert panel review), but to our knowledge, none has been

explicitly tested as a generalization mechanism to natural discourse in impairment-based aphasia treatments. Studies on therapeutic protocols such as MIT that were designed to elicit improvements in connected speech can give insights in treatment factors promoting this type of generalization. Interestingly, the melodic characteristics of MIT, which set this treatment apart from other speech and language therapies, seem to play a role in MIT's generalization effect. In a study with two participants with Broca's aphasia, Schlaug and colleagues (2008) compared the original MIT with a control treatment differing from MIT only by the absence of the pitch and rhythmic components. MIT led to greater improvement than the non-musical treatment on measures including informativeness of connected speech. The melodic components were deemed key efficacy factors for MIT. A firmer conclusion is anticipated with the results of an ongoing randomized control trial comparing the two treatments on language outcome in connected speech (Schlaug & Norton, 2011a).

Our study aims to assess the relative contribution of the rhythmic and pitch features of MIT's generalization effect to connected speech. Thus, we designed a variation of MIT (hereafter referred to as melodic therapy) that includes basic characteristics thought to promote generalization (large number of various sentences and intensive treatment delivery). We compared this melodic therapy (MT) with two control treatments: rhythmic therapy (RT), that is, MT without musical pitch, and spoken therapy (ST), without pitch or rhythmic aspects. Furthermore, in order to capture the degrees of direct and indirect effects elicited by the melodic components, we measured speech accuracy in a subset of 10 sentences that were repeatedly trained at each treatment session and in 10 non-trained sentences.

Other proposed mechanisms related to the melodic aspect of MIT have never been assessed. One of them is that singing could keep patients motivated to continue with an intensive therapy regimen because it is a pleasurable activity (Racette et al., 2006). Data demonstrating that music and singing can positively influence mood in healthy individuals and in various clinical populations has also led to the suggestion that the singing aspect of MIT could benefit patients' mood (Merrett et al.,

2014). Finally, we have suggested that MIT could mostly benefit apraxia of speech, the motor-speech symptom of Broca's aphasia's syndrome (Zumbansen et al., 2014b). Indeed, the best responders to MIT have this symptom in common. In a first attempt to evaluate these suggested mechanisms, we tested the mood and the motor-speech agility of the participants as additional, secondary outcomes.

3.3 Materials and methods

3.3.1 Participants

Three native French-speaking, right-handed men with aphasia (FL, FS, and JPL) participated in the study. They were recruited through an association of persons with aphasia located in the greater Montreal area. Each had experienced a single ischemic unilateral left hemisphere cerebrovascular accident more than 1 year prior to their involvement in the study and had been through the standard public rehabilitation services, which commonly discharge aphasic patients when their language improvements reach a plateau. They had not received any speech-language therapy since. None of the participants had experienced neurological or psychiatric problems before the stroke. An examination by a certified audiologist attested that they had no hearing deficit. Table 3.1 summarizes patients' characteristics, and Table 3.2 presents the scores of francophone language tests and non-verbal cognitive tests. Each subject had a clinical profile consistent with Broca's aphasia, that is, naming deficits, agrammatism, apraxia of speech, and relatively preserved simple verbal comprehension compared to expressive difficulties. FL and JPL had a moderate degree of aphasia whereas FS had a more severe clinical profile, especially because he experienced more severe apraxia of speech than the other participants in connected speech. FL and FS had a right upper-limb hemiplegia while JPL had almost completely recovered from it. The three participants had been treated for focal epilepsy and JPL has also been treated for depression since his stroke. All three participants were good candidates for MIT according to the American Academy of Neurology (1994): they had Broca's aphasia and were willing to undergo intensive individual speech and

language treatment. They gave their informed consent and the study was approved by the Ethical Committee of the Montreal University Geriatric Institute.

Participant	Sex	Age	Education (in years)	Years of formal musical training	Months post-stroke (at recruitment)	Aphasia diagnosis
FL	M	57	17	0	20	Moderate Broca's aphasia
FS	M	50	13	0	24	Severe Broca's aphasia
JPL	M	48	16	0	21	Moderate Broca's aphasia

Table 3.1: Participant characteristics

	FL	FS	JPL
MT-86 aphasia battery (Nespoulous et al., 1992)			
Expression			
Naming /31	17 [28]	8 [28]	17 [23]
Narrative discourse /18	9 [9]	2 [9]	7 [8]
Global reduction of fluency	moderate	severe	moderate
Agrammatism	severe	severe	severe
Syntactic deviations	moderate	severe	moderate
Anomia	moderate	severe	moderate
Phonetic deviations	moderate	severe	moderate
Phonemic deviations (and/or jargon)	moderate	severe	moderate
Semantic deviations	moderate	mild	mild
Repetition /30	16 [24]	9 [24]	12 [27]
Comprehension /47	24 [40]	33 [40]	34 [39]
Words /9	9	8	9
Sentences /38	15	25	25
Verbal fluency test (Cardebat et al., 1990)			
Phonemic fluency	2 (-2.6)	8 (-2.2)	8 (-2.2)
Semantic fluency	6 (-3.9)	7 (-3.7)	23 (-2.3)
Abbreviated MBEMA (Peretz et al., 2013)			
Pitch /20	15	9 (-4.1)	14
Rhythm /20	17	16	17
Memory /20	15	13 (-3.6)	17
PEGV (Agniel et al., 1992)			
Visual agnosia /66	62	62	66
WAIS (Wechsler, 1997a)			
Matrix reasoning /26	22	11	23
WMS (Wechsler, 1997b)			
Spatial span /32	10	15	17
Tower of London - DX (Culbertson & Zillmer, 2001)			
Total move score	7	32	20

Table 3.2: Participants' language and non-verbal cognitive diagnostic assessments. When available, the maximum score is indicated next to the test name. Measures considered below the relevant norms for patient's demographics are printed in bold and number of standard deviations (SD) to the mean is indicated next to the scores in parentheses. Cut-off scores for patients' age and education are in square brackets. MBEMA, Montreal Battery of Evaluation of Musical Abilities; PEGV, Protocole d'Évaluation des Gnosies Visuelles (Visual agnosia diagnostic battery); WAIS-III, Wechsler Adult Intelligence Scale - third edition; WMS, Wechsler Memory Scale – third edition.

3.3.2 Verbal material

A total of 240 two- to eight-syllable-long phrases were created by two graduate students in speech and language pathology and the first author (an experienced speech and language therapist). Phrases were selected so as to fit participants' daily living, as would do a typical clinician in aphasia therapy. They were split into 180 New-phrases (2- to 8-syllable long) and 60 Test-phrases (4- to 5-syllable long). The 180 New-phrases were used for the purpose of the interventions. The same 180 sentences were used in the same order for the three consecutive treatments, so that one phrase was presented once for each treatment, leaving a minimal interval of six weeks between two presentations. Test-phrases served to assess the direct and indirect effects of the treatments. These items were four- to five-syllable long, that is, of medium difficulty compared to the New-phrases.

All sentences were recorded in three modes: intoned, rhythmically spoken, and normally spoken, for a total of 720 recordings (see an example in Figure 3.1). The stimuli were produced by a natural voice in the way a speech and language therapist would do in a real clinical setting following the instructions of the different production modes and with the help of pitch and tempo cues given prior to the recordings. In the intoned mode, the stimuli had pitch variation on two notes separated by a fourth interval. We chose G# and C# according to an estimate of participants' vocal speech range to allow them to reproduce the pitches without vocal strain. Stimuli were presented by a female voice and were reproduced one octave lower by participants. Each syllable had to be produced on a single pitch. The high pitch was associated with syllables that are stressed in natural prosody of French (e.g., the last syllable of a clause) and with the syllables of function words (e.g., prepositions, pronouns, and articles), according to a French adaptation of MIT (Thérapie Mélodique et Rythmée, Van Eeckhout & Bhatt, 1984), because they are often omitted in Broca's aphasic speech. In addition to musical pitch variation, the intoned sentences were produced with rhythm: syllables had to be temporally organized on a regular beat of 100 bpm with high pitch twice as long as low pitches. In the rhythmically spoken mode, phrases had to be produced only with the rhythmic element

following the same tempo cue as in the intoned mode and otherwise with continuous voice frequency variation typical of speech. In the normally spoken mode, both above mentioned pitch and rhythm elements were absent. The sentences were produced with clear and slow articulation and with prosody consistent with the French morpho-syntactic rules, as would do clinicians in standard aphasia therapy. Mean syllable duration was computed by dividing each stimulus duration in milliseconds by its number of syllables. Significant differences were found across stimuli modes. In average, compared to melodic syllables ($M=1130$, $SD=146$), rhythmic syllables ($M=1040$, $SD=146$) were 90 ms shorter while spoken syllables ($M=556$, $SD=94$) were twice shorter.

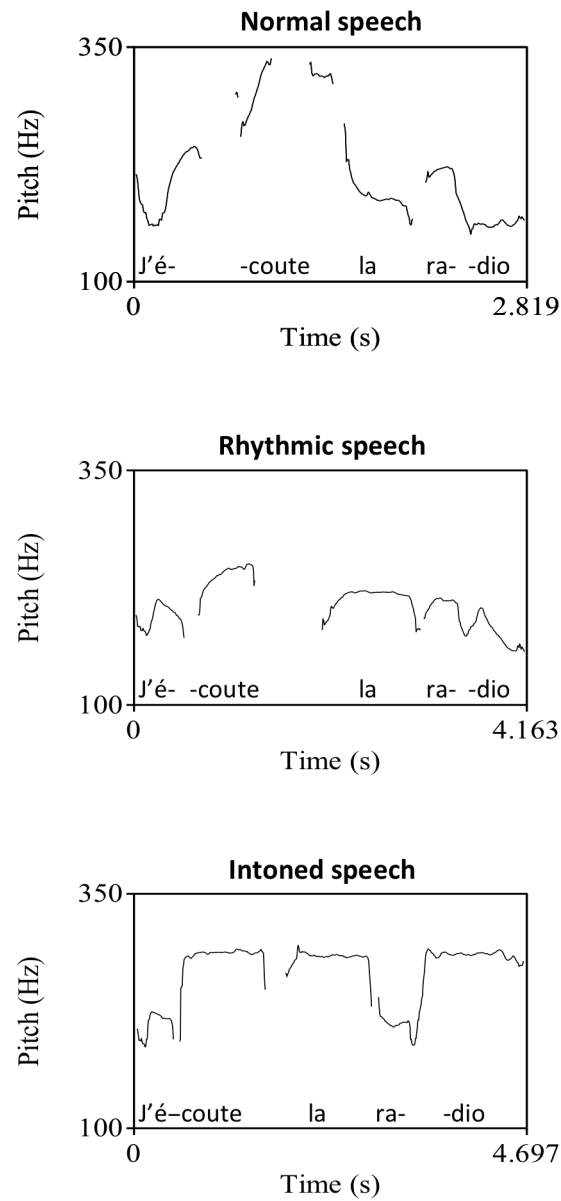


Figure 3.1: Sentence example (“I listen to the radio”) in normal, rhythmic and intoned speech. Graphs represent the fundamental frequency of the voice in recordings as extracted by the software for speech analysis, Praat (Boersma & Weenick, 2013).

3.3.3 Treatments

Each treatment (MT, RT, and ST) was administered by a trained graduate student in speech and language therapy, at a frequency of three one-hour sessions/week for six weeks (i.e., 18

sessions/treatment). They differed only with regard to the presence or absence of hand-tapping and musical elements in the stimuli. In the MT, patients had to repeat intoned sentences and were guided to tap the rhythm along with their left hand (hereafter simply referred to as hand-tapping). The RT consisted of rhythmically spoken stimuli and hand-tapping. In the ST, patients were presented with normally spoken stimuli and no hand-tapping was elicited.

During sessions, participant and therapist sat facing each other at a table in a quiet room. Participants had to listen and produce 20 phrases (see examples in Table 3.3), each following a progressive procedure in four steps: two times in unison, two times in unison with therapist fading-out at half-way, one time in repetition alone, and finally alone in response to a question. Half of the sentences were New-phrases ranging from two to eight syllables (one phrase of two, three, seven, and eight syllables and two of four, five, and six syllables), beginning with the shortest and progressing on to the longest sentences. The other half were Test-phrases repeatedly trained at each session to ultimately assess the direct effect of the treatment. The stimuli were first heard from an iPod connected to speakers and immediately reproduced by the therapist to allow lip-reading. Up to four attempts were allowed in the steps where unison was used. If the participant still failed to produce the phrase successfully, the item was discontinued and the next phrase was presented. When errors occurred at the two last steps, the preceding step was reintroduced before trying again and if this second attempt failed, the item was discontinued.

Presentation order	Item status	Number of syllables	Sentences
1	New	2	Parfait (<i>All right</i>)
2	New	3	Il fait froid (<i>It's cold</i>)
3	New	4	Je te regarde (<i>I'm watching you</i>)
4	New	4	Prends le courrier (<i>Take the mail!</i>)
5	New	5	La porte est ouverte (<i>The door is open</i>)
6	New	5	Voici mon adresse (<i>Here is my address</i>)
7	New	6	Donne-moi de tes nouvelles (<i>Give me some news of you</i>)
8	New	6	J'écoute de la musique (<i>I listen to music</i>)
9	New	7	Dis bonjour à ta famille (<i>Say hi to your family</i>)
10	New	8	Je n'ai pas fini de manger (<i>I have not finished eating</i>)
11	Trained at each session	4	À la prochaine (<i>See you later</i>)
12	Trained at each session	4	Bon appétit (<i>Enjoy your meal</i>)
13	Trained at each session	4	Ça me fait mal (<i>It hurts</i>)
14	Trained at each session	4	Combien ça coûte (<i>How much is it</i>)
15	Trained at each session	4	Prends soin de toi (<i>Take care</i>)
16	Trained at each session	5	J'ai de la visite (<i>I have visitors</i>)
17	Trained at each session	5	J'ai un rendez-vous (<i>I have an appointment</i>)
18	Trained at each session	5	Je ne comprends pas (<i>I don't understand</i>)
19	Trained at each session	5	Je ne viendrai pas (<i>I won't come</i>)
20	Trained at each session	5	Pouvez-vous m'aider (<i>Could you help me</i>)

Table 3.3: Characteristics and examples of sentences worked out during a treatment session.

3.3.4 General procedure

The study took place at the aphasic association where participants were recruited. We followed a Latin cross-over design and used the random number generation function of Microsoft Excel to allocate participants to treatment sequences: FL underwent the treatment sequence MT–RT–ST, FS underwent RT–ST–MT and JPL followed the order ST–MT–RT. Evaluations were conducted before and after each treatment phase, for a total of four evaluation periods, hereafter referred to as T1, T2, T3, and T4. Moreover, performance was measured three times within each evaluation period (T1a, T1b, T1c; T2a, T2b, T2c; T3a, T3b, T3c; T4a, T4b, T4c), with a minimum of two-day intervals between assessments, to ensure that results would not be biased by day-to-day variations in participants' general state. One list of 20 Test-phrases was used for each intervention phase. They were split into 10 stimuli to be repeatedly trained at each treatment session and 10 non-treated stimuli, and were counterbalanced between participants.

3.3.5 Assessment of treatment outcomes

Language outcomes were assessed through the repetition of trained and non-trained stimuli (direct and indirect treatment effects) and in connected speech (generalization effect) elicited in a picture description task. Motor-speech ability and mood were assessed with adapted standardized test (see below). All the assessments were videotaped and verbal performance was transcribed in order to be analyzed by a different person than the therapist.

The primary outcome was the change from pre- to post-treatment in discourse informativeness (in percent CIU in connected speech). Speech samples were elicited in a description task of 15 complex line drawing pictures of several characters acting in daily situations. This number is well above the recommended minimum number of stimuli (5) (Brookshire & Nicholas, 1994) to ensure adequate test–retest stability of informativeness in people with aphasia. Moreover, in order to control for day-to-day variations within each evaluation period, the pictures were split into three

groups of five to collect speech samples on three different days. Informativeness was scored with the help of the software, Cordial Analyseur (Synapse-développement, 2010), for words' counts.

Secondary outcomes were the changes from pre- to post-treatment in number of correct syllables in the trained and non-trained sentences. The productions were obtained in a repetition task of the audio-recorded Test-phrases in the normally spoken mode. No lip-reading was possible. Correct syllables were rated with 1 point and syllables with an error on a single phoneme were given 0.5 point, following the procedure of Racette and colleagues (2006).

In a first attempt to monitor changes in apraxia of speech with MIT and in absence of a validated test in French, we chose the Diadochokinetic rate subtest of the Apraxia battery for adults (ABA2, Dabul, 2000), the best validated diagnostic battery currently available. The task consists of rapid repetitions of syllables to assess motor-speech agility. We used the total score of this ABA2 subtest.

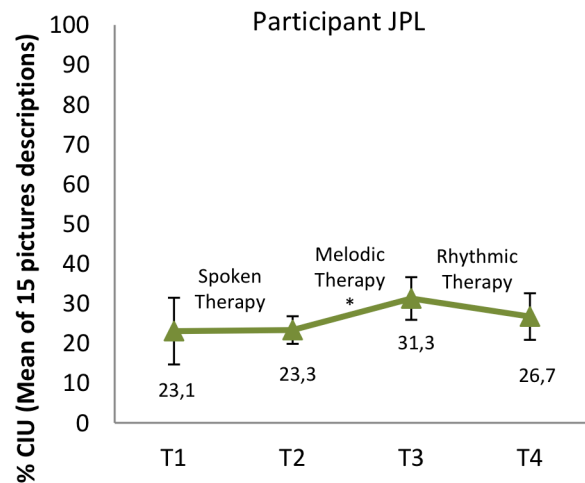
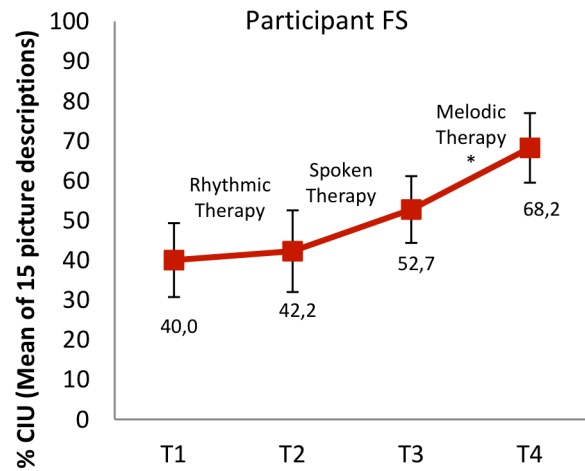
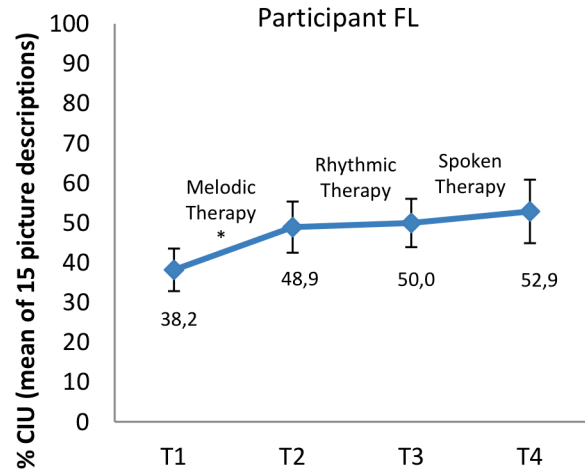
Finally, we assessed participants' mood with the Visual Analog Mood Scales (VAMS, Stern, 1997). On each scale, drawings of two faces are connected with a vertical 10-cm line. One face has a neutral expression while the other represents a mood state (afraid, confused, sad, angry, energetic, tired, happy, or tense). Participants have to mark on the line how they feel. This test is particularly well adapted to patients with aphasia since it requires minimal verbal abilities. T-scores on the eight mood subscales of the VAMS served for this secondary outcome.

3.4 Results

3.4.1 Primary outcome – Generalization effects to language in connected speech

Participants were considered as single cases (Figure 3.2). We compared participants' mean informativeness score computed from the 15 picture descriptions before and after each treatment. In FL, the Wilcoxon signed-rank tests revealed a significant progression only from T1 to T2, that is, with MT ($Z = -2.101$, $p = 0.036$). In FS, there was a significant improvement only from T3 to T4, with MT ($Z = -2.017$, $p = 0.044$). In JPL, significant change was only found from T2 to T3, with MT again ($Z = -2.329$, $p = 0.024$). In sum, in all three participants, MT had a significant generalization effect in terms of informativeness in connected speech while RT and ST had not.

Figure 3.2: Informativeness in connected speech at each assessment time (T1-T4), before and after treatments (i.e., generalization effects). Error bars represent 95% Confidence Intervals. The star indicates pre-post-treatment differences in non-parametric statistical tests when $p < .05$. CIU: Correct information units.



3.4.2 Secondary outcomes

3.4.2.1 Direct and indirect treatment effects

Test-phrases were repeatedly assessed at three different days (a, b, and c) within each evaluation period before and after treatments (Table 3.4 and Figure 3.3). A preliminary analysis with Friedman tests revealed no significant difference between the repeated assessments of each list of Test-phrases within the evaluation periods of each participant. Thus, the measures appeared to be stable before or after treatments and we compared pre- to post-treatment data with Wilcoxon tests based on the mean scores of the three repeated assessments of each treated (tr) and non-treated (ntr) Test-phrase.

In FL, the number of correct syllables in trained Test-phrases improved significantly with all treatments (MT[T1–T2]tr: $Z = -2.040$, $p = 0.041$; RT[T2–T3]tr: $Z = -2.431$, $p = 0.015$; ST[T3–T4]tr: $Z = -2.134$, $p = 0.033$). The production of non-trained Test-phrases also improved significantly with MT (MT[T1–T2]ntr: $Z = -2.383$, $p = 0.017$) but not with RT or ST (RT[T2–T3]ntr: $Z = -1.023$, $p = 0.306$; ST[T3–T4]: $Z = -0.178$, $p = 0.859$). Because there were improvements both in trained and non-trained phrases with MT, we seek to determine if speech accuracy better improved on trained versus non-trained items with this therapy. We computed for each phrase the gain in number of syllables from pre to post MT, and we compared the mean syllable gain on trained stimuli with the mean syllable gain on non-trained stimuli. We found no significant difference between the two progressions (MT[T1–T2]tr–ntr: $Z = -0.153$, $p = 0.878$).

In FS, the number of correct syllables improved significantly with all treatments in trained and non-trained Test-phrases (MT[T3–T4]tr: $Z = -2.666$, $p = 0.008$; RT[T1–T2]tr: $Z = -2.810$, $p = 0.005$; ST[T2–T3]tr: $Z = -2.668$, $p = 0.008$; MT[T3–T4]ntr: $Z = -2.245$, $p = 0.025$; RT[T1–T2]ntr: $Z = -2.809$, $p = 0.005$; ST[T2–T3]: $Z = -2.040$, $p = 0.041$). The progression was significantly greater on trained phrases than non-trained phrases following RT or ST (RT[T1–

T2]tr–ntr: $Z = -2.398$, $p = 0.016$; ST[T2–T3]tr–ntr: $Z = -2.191$, $p = 0.028$) but not with MT (MT[T3–T4]tr–ntr: $Z = -0.833$, $p = 0.405$).

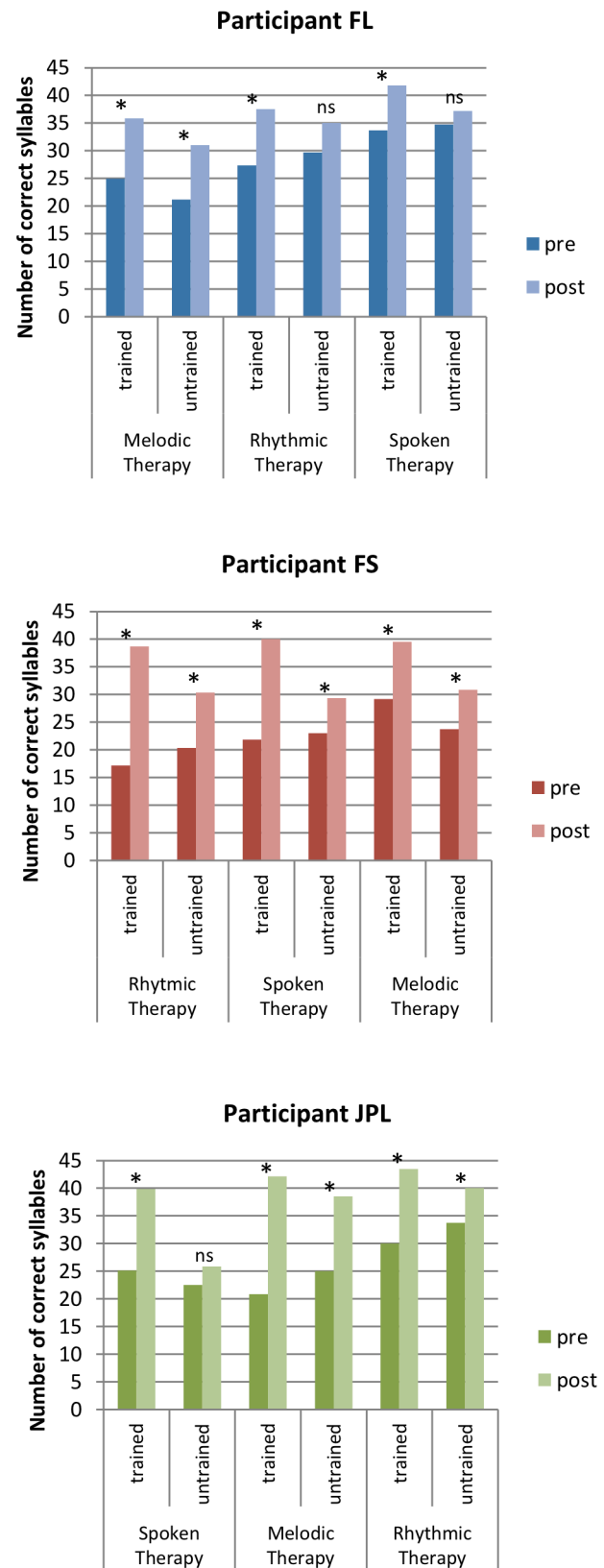
In JPL, there was also a significant improvement on trained Test-phrases with all treatments (MT[T2–T3]tr: $Z = -2.703$, $p = 0.007$; RT[T3–T4]tr: $Z = -2.807$, $p = 0.005$; ST[T1–T2]tr: $Z = -2.553$, $p = 0.011$). Furthermore, the production of non-trained Test-phrases also improved significantly with MT and RT (MT[T2–T3]ntr: $Z = -2.807$, $p = 0.005$; RT[T3–T4]ntr: $Z = -2.383$, $p = 0.017$) but not with ST (ST[T1–T2]ntr: $Z = -0.866$, $p = 0.386$). The progression was significantly greater on trained phrases than non-trained phrases following RT (RT[T3–T4]tr–ntr: $Z = -2.091$, $p = 0.037$) but not with MT (MT[T2–T3]tr–ntr: $Z = -1.614$, $p = 0.107$).

In sum, all treatments had a significant direct effect in each participant. The indirect effect of MT was also significant and no weaker than its direct effect, while RT had a significant indirect effect in two of three participants and was weaker than its direct effect. In only one participant, ST had a significant indirect effect and it was weaker than the direct effect.

Treatment	Participant	Trained				Non-trained				Comparison of increases
		Pre-	Post-	Pre-post comparison	Increase	Pre-	Post-	Pre-post comparison	Increase	
Melodic Therapy	FL	2.50 (1.00)	3.58 (0.91)	*	1.09 (1.44)	2.12 (1.08)	3.10 (0.76)	*	0.98 (0.84)	ns
	FS	2.92 (0.88)	3.95 (0.75)	*	1.03 (0.68)	2.38 (0.81)	3.08 (0.84)	*	0.71 (0.78)	ns
	JPL	2.08 (0.85)	4.22 (0.69)	*	2.13 (1.05)	2.50 (0.73)	3.85 (0.64)	*	1.35 (0.54)	ns
Rhythmic Therapy	FL	2.73 (0.79)	3.75 (0.55)	*	1.02 (0.97)	2.97 (1.01)	3.50 (0.81)	ns	0.53 (1.35)	Trained > Non-trained
	FS	1.72 (0.75)	3.87 (0.85)	*	2.15 (0.72)	2.03 (0.61)	3.03 (0.68)	*	1.00 (0.66)	Trained > Non-trained
	JPL	3.00 (0.92)	4.35 (0.69)	*	1.35 (0.66)	3.38 (0.61)	4.00 (0.36)	*	0.63 (0.70)	Trained > Non-trained
Spoken Therapy	FL	3.37 (0.54)	4.18 (0.56)	*	0.82 (0.82)	3.48 (1.02)	3.72 (0.71)	ns	0.24 (1.02)	Trained > Non-trained
	FS	2.18 (1.03)	4.00 (0.67)	*	1.82 (0.96)	2.30 (0.81)	2.93 (0.77)	*	0.63 (0.78)	Trained > Non-trained
	JPL	2.51 (0.54)	3.98 (1.07)	*	1.47 (1.05)	2.25 (0.88)	2.58 (1.02)	ns	0.33 (1.29)	Trained > Non-trained

*Table 3.4: Mean number of correct syllables per Test-phrases (n=10) before and after each treatment. Standard deviations (SD) are indicated in parentheses. *Significant differences in non-parametric statistical tests when $p < .05$.*

Figure 3.3: Speech accuracy in trained and non-trained Test-phrases before and after each treatment (i.e., direct and indirect effects). Columns represent the total number of correct syllables in 10 phrases produced in a normally spoken repetition task. The star indicates pre-post-treatment differences in non-parametric statistical tests when $p < .05$.



3.4.2.2 *Measure of motor-speech agility*

We used the published norms to determine if changes on the Diadochokinetic score were significant within and between evaluation periods (Dabul, 2000). No significant variation appeared in any participant, for any treatment according to the norms.

3.4.2.3 *Mood*

The participants scored within the norms at the eight-mood subscales of the VAMS (Stern, 1997), and there was no significant variation (i.e., more than 20 T-score points) during the study.

3.5 Discussion

Our primary goal was to assess the relative contribution of rhythm and pitch in MIT's generalization effect by comparing three treatments (MT, RT, and ST) differing only by the presence or absence of these two melodic features. Only the MT, which had both pitch and rhythm, had a significant effect on the informativeness of connected speech in the participants regardless of the treatment order. Furthermore, all three forms of therapies led to improvements on trained sentences (direct effect) but their capacity to generalize these gains to non-trained sentences (indirect effect) varied. The MT showed an effect on non-trained material that was as large as the direct effect. In the other treatments, the indirect effect, when significant, was weaker than the direct effect. Finally, the presence of rhythm (in RT) had an indirect effect in two of the three participants, whereas the treatment with no melodic elements (ST) was associated with indirect effect in only one participant. The findings show that MT was the most effective in terms of generalization effects. It replicates the results of Schlaug and colleagues (2008, 2009) who found better language improvements in the connected speech of one participant with MIT compared to a control therapy that did not use the

musical components. With three additional participants with Broca's aphasia, our study further supports that the combination of rhythm and pitch is valuable to language recovery in MIT. Furthermore, we found that the addition of musical pitch to the rhythmic element was associated with generalization effect to connected speech, whereas the use of rhythm only did not.

The finding of indirect effects in all participants with MT and in two participants with RT is in apparent contradiction with the results of the two previous longitudinal studies investigating the differential role of rhythm and pitch in MIT. Stahl and colleagues (2013) showed improvements in trained phrases but not on non-trained stimuli in two groups of subjects who underwent a melodic or a rhythmic treatment. In a controlled single case study, Wilson and colleagues (2006) also found significant changes in phrases trained with intoned speech or with rhythmic speech, but not in non-trained verbal material. However, none of these participants was presented with diverse New-phrases during treatment sessions that are supposed to promote generalization in original MIT (Sparks, 2008; Zumbansen et al., 2014b). In fact, in the study of Stahl and colleagues, the control group of participants who were allocated to standard therapy improved on non-trained phrases. The standard therapy consisted of a wide range of language tasks and verbal stimuli. As stressed by several authors and expert panels, the variety of verbal tasks, stimuli, and contexts may well be a key factor in the generalization effect of a speech and language therapy approach (Frey, 2013; Nadeau et al., 2008; Thompson, 1989).

One important question is to understand how pitch and rhythm, when combined, lead to some generalized language improvements. Pitch processing engages right-lateralized cerebral activity (Peretz & Zatorre, 2005), while rhythm and temporality in simple singing has been associated with left hemispheric areas that are close to language centers (Jungblut et al., 2012). So far, better language recovery has been reported with the recruitment of left perilesional cortex rather than interhemispheric compensation in post-stroke aphasia (Anglade et al., 2014; Heiss, Kessler, Thiel, Ghaemi, & Karbe, 1999; Heiss & Thiel, 2006; Rosen et al., 2000). Because intoned speech engages left perilesional areas to a greater extent than normal speech in participants with aphasia after stroke

(Belin et al., 1996; Laine et al., 1994), one could hypothesize that rhythm in intoned speech could be responsible for this left-hemispheric activation, leaving the pitch component as relatively unnecessary. However, in light of our behavioral results, we suggest that pitch could act as a facilitator to effectively get access to reactivation of perilesional areas for language production. Pitch information adds a redundant cue to rhythmicity in the intoned-speech technique; the high pitch is produced on the stressed syllables, which are also pronounced on the longer note, while the low pitch is on the unstressed syllables and shorter notes. We propose that pitch changes could help processing the rhythmic patterns and bootstrapping the reactivation of rhythm- and language-related left-hemispheric areas, possibly through transcallosal pathways following the classical Hebbian axiom “neurons that fire together wire together”. More brain imaging studies are clearly needed to better understand the brain correlates associated with the beneficial effect of pitch and rhythm combination on generalized language recovery after stroke. It is most plausible that the brain mechanisms of MIT vary depending on individual factors, such as the lesion size and location. In this regard, longitudinal brain imaging data from two studies with original MIT have shown increased right-hemisphere activation and white matter plasticity in nine patients with large left hemisphere lesions (Schlaug et al., 2008, 2009) and Schlaug and colleagues (2009) have argued that using the right hemisphere for language processing might be the only option for language improvements in such patients. When reactivation of left language areas is not possible, the pitch element of MIT could be even more crucial.

Although the three participants of our study had quite similar clinical and demographic profiles, individual differences cannot easily be ruled out in clinical studies. Among the participants, FS had the lowest level of education, the most severe aphasia, and he scored lower in reasoning, planning, and musical abilities, particularly pitch processing (see the subtest of the WAIS, the Tower of London, and the Abbreviated MBEMA in Table 3.2). FS had theoretically more room for improvement, whereas FL and JPL were probably closer to a plateau. This could explain why FS showed indirect effects with all treatments and benefited most from the MT. Interestingly, FS did improve with MT despite his low musical abilities, suggesting that severely affected patients without

good musical abilities can still benefit from pitch and rhythm combination in MIT. Melodic aspects probably affect such patients differently than patients with preserved musical skills. Turning our attention on therapists, we speculate that the use of both melodic components in MIT (compared to rhythm only) could also better entrain the clinician in a favorable attitude toward the patient to facilitate speech production during sessions, by synchronizing all facilitation techniques (unison production, lip-reading, and hand-tapping) and by enhancing the common focus of both patient and therapist. Future studies could explore the impact of melody on the therapist engagement during therapy sessions, a point of view rarely addressed in speech and language therapy.

We did not find support here for the suggestion that the musical elements of MIT would improve patient's mood and motivation. We did not capture any mood changes that were significant according to the norms of the VAMS (Stern, 1997), whether participants were pharmacologically treated for depression (JPL) or not (FL and FS). The potential mood mechanism of MIT is based on the fact that music has been shown to have a strong effect on emotions and mood (reviewed in Juslin & Västfjäll, 2008; Koelsch, 2010). Post-stroke depression is associated with greater degree of cognitive impairment and with lower cognitive recovery when controlling for the size of the lesion (Robinson, Bolla-Wilson, Kaplan, Lipsey, & Price, 1986) and music listening leads to better cognitive recovery along with a decrease of depressed and confused mood when compared to stories listening in post-stroke rehabilitation (Särkämö et al., 2008). It was suggested that the power of music on mood could explain a part of the beneficial effects of singing therapies on language recovery. Yet, the effect of music on mood has been shown in rich musical contexts, where subjects listen to, play, or sing real music pieces. In contrast, the musical content of MIT is made of few (usually only two) pitches, its rhythmical structure is poor and there is neither musical syntax nor harmony. A controlled experiment with healthy participants showed that the use of monophonic tones and isochronous beat alone had no significant impact on mood when compared to real musical pieces (Koelsch, Offermanns, & Franzke, 2010). Thus, the musical context of MIT might not be sufficient to elicit significant mood changes.

According to the motor-speech hypothesis of MIT's effect (Zumbansen et al., 2014b), the improvements in language production after MIT may be due to the reduction of apraxia of speech, one of the symptoms distinguishing Broca's aphasia from other aphasic syndromes. It would explain why this specific form of aphasia responds well and consistently to MIT while other forms rarely do (AAN, 1994). In the present study, we did not capture any significant changes in motor-speech agility as measured by one of the sub-tests of the ABA2 (Dabul, 2000). Testing the motor-speech hypothesis of MIT is a challenge due to the lack of quantitative and unanimously accepted assessment tools for apraxia of speech (Ballard et al., 2000). The ABA2 is the best-validated clinical tool currently available. We chose the motor-speech agility subtest because it could be administered to French-speaking participants and we planned to use the norms to decide if changes would be significant. However, ABA2 is a diagnostic tool and it was not validated to detect changes over time in apraxia of speech. Moreover, it is surprising that no significant change was detected on this score when speech accuracy improved on non-trained phrases. For these reasons, we believe that the Diadochokinetic rate subtest of the ABA2 with its current norms is probably not sensitive enough to detect the changes in apraxia of speech with therapy. There is a need to develop sensitive, quantitative assessment methods of apraxia of speech that could be used at the individual level to document intervention-related progress.

Ours is the first study assessing the differential contribution of rhythm and pitch in a version of MIT that preserves all the basic generalization characteristics of the original protocol. As already mentioned, the mood and motor-speech hypotheses had never been assessed. Few speech and language therapies have been tested in such depth with regard to the mechanisms at work in language recovery effects. Given the high inter-individual variability in patients with aphasia, we chose a Latin square cross-over design to be able to compare participants with themselves. Interventions with carry-over effects, as is the case in our study, are theoretically not suited to this design type since periods of wash-out are necessary for the dependent variable to return to baseline before starting the next intervention phase. However, despite the carry-over effects, we were able to capture treatment-related differential improvements. We readily acknowledge that the best

experimental design would have been a randomized controlled group study. However, due to the difficulty in recruiting large number of patients with aphasia, especially with the strict selection criteria we applied, it is somewhat unrealistic to investigate the finer aspects of treatment mechanisms in this way.

Finally, the version of MIT that we designed for experimental purposes gave good results at three levels of therapeutic effects with significant improvements on trained, non-trained, and connected speech in the three participants. Combining various verbal materials with a set of repetitive stimuli may constitute an interesting therapeutic mixed principle because it would allow the clinician to evaluate the best language gains achievable by a patient. If only direct effects are obtained in patients with the most severe language impairments, the clinician could focus on real palliative versions of MIT (i.e., that are designed to train a few ready-made useful sentences for the patients' daily living), and this strategy could be used as a complement to communication-based approaches in speech and language therapy. However, before turning to a fully palliative approach, the mixed principle could allow some patients to show connected speech gains.

3.6 Acknowledgements

This work was supported by the Centre for Research on Brain, Language and Music (CRBLM) and by scholarships to Anna Zumbansen from the Collaborative Research and Training Experience (CREATE) Program in Auditory Cognitive Neuroscience from the Natural Sciences and Engineering Research Council of Canada (NSERC), the Quebec Bio-Imaging Network (QBIN), and the Faculty of Graduate Studies of Université de Montréal. We thank Philippe Fournier for testing participants' hearing thresholds, and Bernard Bouchard for helping in audio stimuli analysis. We especially thank Alice Perdereau, Sarah André, and Isabelle Marcoux for their help in implementing the study protocol and data collection, and the association Aphasie Rive-Sud for its long-lasting collaboration in participant recruitment and for providing a testing space during the study.

3.7 References

- AAN. (1994). Assessment: melodic intonation therapy. *Neurology*, *44*, 566-568.
- Albert, M. L., Sparks, R. W., & Helm, N. A. (1973). Melodic intonation therapy for aphasia. *Archives of neurology*, *29*, 130-131. doi: 10.1001/archneur.1973.00490260074018
- Anglade, C., Thiel, A., & Ansaldo, A. I. (2014). The Complementary Role of the Cerebral Hemispheres in Recovery from Aphasia After Stroke: A Critical Review of Literature. *Brain Injury*, *28*(2), 138-145. doi: 10.3109/02699052.2013.859734
- Ballard, K. J., Granier, J. P., & Robin, D. A. (2000). Understanding the nature of apraxia of speech: Theory, analysis, and treatment. *Aphasiology*, *14*(10), 969-995. doi: 10.1080/02687030050156575
- Basso, A. (2003). *Aphasia and its therapy*. New-York: Oxford University Press.
- Beeson, P. M., & Robey, R. R. (2006). Evaluating Single-Subject Treatment Research: Lessons Learned from the Aphasia Literature. *Neuropsychological Review*, *16*, 161-169. doi: 10.1007/s11065-006-9013-7
- Belin, P., Van Eeckhout, P., Zilbovicius, M., Remy, P., François, C., Guillaume, S., . . . Samson, Y. (1996). Recovery from nonfluent aphasia after melodic intonation therapy: A PET study. *Neurology*, *47*, 1504-1511. doi: 10.1212/WNL.47.6.1504
- Berlin, C. I. (1976). On: melodic intonation therapy for aphasia by R. W. Sparks and A. L. Holland. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, *41*, 298-300. doi: 10.1044/jshd.4103.298
- Bonakdarpour, B., Eftekharzadeh, A., & Ashayeri, H. (2003). Melodic intonation therapy in persian aphasic patients. *Aphasiology*, *17*(1), 75-95. doi: 10.1080/729254891
- Boucher, V., Garcia, L. J., Fleurant, J., & Paradis, J. (2001). Variable efficacy of rhythm and tone in melody-based interventions: Implications for the assumption of a right-hemisphere facilitation in non-fluent aphasia. *Aphasiology*, *15*, 131-149. doi: 10.1080/02687040042000098
- Brady, M. C., Kelly, H., Godwin, J., & Enderby, P. (2012). Speech and language therapy for aphasia following stroke. *Cochrane Database Syst Rev*, *5*, CD000425. doi: 10.1002/14651858.CD000425.pub3
- Brookshire, R., & Nicholas, L. (1994). Test-retest stability of measures of connected speech in aphasia. *Clinical Aphasiology*, *22*, 119-133.

- Dabul, B. L. (2000). *Apraxia battery for adults, second edition, ABA2*. (second edition^c éd.). Austin, TX: Pro-ed.
- Dickey, L., Kagan, A., Lindsay, M. P., Fang, J., Rowland, A., & Black, S. (2010). Incidence and profile of inpatient stroke-induced aphasia in Ontario, Canada. *Archives of physical medicine and rehabilitation, 91*(2), 196-202. doi: 10.1016/j.apmr.2009.09.020
- Frey, K. L. (2013). *Patient Characteristics and Treatment Components that Mediate Improvements in Connected Speech in Persons with Chronic Post-Stroke Aphasia: A Delphi study involving a Communication Disorders Expert Panel*. (UNIVERSITY OF COLORADO AT BOULDER).
- Heiss, W.-D., Kessler, J., Thiel, A., Ghaemi, M., & Karbe, H. (1999). Differential capacity of left and right hemispheric areas for compensation of poststroke aphasia. *Annals of Neurology, 45*(4), 430-438. doi: 10.1002/1531-8249(199904)45:4<430::AID-ANA3>3.0.CO;2-P
- Heiss, W.-D., & Thiel, A. (2006). A proposed regional hierarchy in recovery of post-stroke aphasia. *Brain and language, 98*(1), 118-123. doi: 10.1016/j.bandl.2006.02.002
- Helm-Estabrooks, N. A. (1983). Exploiting the right hemisphere for language rehabilitation: Melodic Intonation Therapy. Dans E. Perecman (dir.), *Cognitive processing in the right hemisphere* (p. 229-240). New-York, NY: Academic Press.
- Jackson, J. H. (1878). On affections of speech from disease of the brain. *Brain, 1*, 304-330. doi: 10.1093/brain/1.3.304
- Jungblut, M., Huber, W., Pustelniak, M., & Schnitker, R. (2012). The impact of rhythm complexity on brain activation during simple singing: an event-related fMRI study. *Restorative neurology and neuroscience, 30*(1), 39-53. doi: 10.3233/RNN-2011-0619
- Juslin, P. N., & Vastfjall, D. (2008). Emotional responses to music: The need to consider underlying mechanisms. *Behavioral and Brain Sciences, 31*(5), 559. doi: 10.1017/S0140525X08005529
- Koelsch, S. (2010). Towards a neural basis of music-evoked emotions. *Trends in Cognitive Sciences, 14*(3), 131-137. doi: 10.1016/j.tics.2010.01.002
- Koelsch, S., Offermanns, K., & Franzke, P. (2010). Music in the treatment of affective disorders: an exploratory investigation of a new method for music-therapeutic research. *Music Perception, 27*(4), 307-316. doi: 10.1525/mp.2010.27.4.307
- Laine, M., Tuomainen, J., & Ahonen, A. (1994). Changes in hemispheric brain perfusion elicited by Melodic Intonation Therapy: A preliminary experiment with single photon emission computed tomography (SPECT). *Logopedics Phoniatrics Vocology, 19*(1-2), 19-24. doi: 10.3109/14015439409101070

- Laughlin, S. A., Naeser, M. A., & Gordon, W. P. (1979). Effects of three syllable durations using the melodic intonation therapy technique. *Journal of Speech and Hearing Research*, 22, 311-320.
- Merrett, D., Peretz, I., & Wilson, S. J. (2014). Neurobiological, cognitive, and emotional mechanisms in Melodic Intonation Therapy. *Frontiers in human neuroscience*, 8(401). doi: 10.3389/fnhum.2014.00401
- Nadeau, S. E., Rothi, L. J. G., & Rosenbek, J. (2008). Language rehabilitation from a neural perspective. Dans R. Chapey (dir.), *Language intervention strategies in aphasia and related neurogenic communication disorders* (p. 689-734). Baltimore, MD: Lippincott Williams & Wilkins.
- Nicholas, L. E., & Brookshire, R. H. (1993). A system for quantifying the informativeness and efficiency of the connected speech of adults with aphasia. *Journal of Speech & Hearing Research*, 36(2), 338-350. doi: 10.1044/jshr.3602.338
- Peretz, I., & Zatorre, R. (2005). Brain organization for music processing. *Annu. Rev. Psychol.*, 56, 89-114. doi: 10.1146/annurev.psych.56.091103.070225
- Racette, A., Bard, C., & Peretz, I. (2006). Making non-fluent aphasics speak: Sing along ! *Brain*, 129(10), 2571-2584. doi: 10.1093/brain/awl250
- Robinson, R. G., Bolla-Wilson, K., Kaplan, E., Lipsey, J. R., & Price, T. R. (1986). Depression Influences Intellectual Impairment in Stroke Patients. *British Journal of Psychiatry*, 148, 541-547. doi: 10.1192/bjp.148.5.541
- Rosen, H., Petersen, S., Linenweber, M., Snyder, A., White, D., Chapman, L., . . . Corbetta, M. (2000). Neural correlates of recovery from aphasia after damage to left inferior frontal cortex. *Neurology*, 55(12), 1883-1894. doi: 10.1212/WNL.55.12.1883
- Särkämö, T., Tervaniemi, M., Laitinen, S., Forsblom, A., Soinila, S., Mikkonen, M., . . . Hietanen, M. (2008). Music listening enhances cognitive recovery and mood after middle cerebral artery stroke. *Brain*, 131(3), 866-876. doi: <http://dx.doi.org/10.1093/brain/awn013>
- Schlaug, G., Marchina, S., & Norton, A. (2008). From singing to speaking: why singing may lead to recovery of expressive language function in patients with Broca's aphasia. *Music Perception*, 25(4), 315-323. doi: 10.1525/mp.2008.25.4.315
- Schlaug, G., Marchina, S., & Norton, A. (2009). Evidence for plasticity in white matter tracts of chronic aphasic patients undergoing intense intonation-based speech therapy. *Annals of the New-York Academy of Sciences*, 1169, 385-394. doi: 10.1111/j.1749-6632.2009.04587.x

- Schlaug, G., & Norton, A. (2011). Melodic-intonation-therapy and speech-repetition-therapy for patients with non-fluent aphasia. Repéré le September 2013 à <http://clinicaltrials.gov/ct2/show/study/NCT00903266>
- Sparks, R. W. (2008). Melodic intonation therapy. Dans R. Chapey (dir.), *Language intervention strategies in aphasia and related neurogenic communication disorders* (p. 837-851). Baltimore: Lippincott Williams & Wilkins.
- Sparks, R. W., Helm, N. A., & Albert, M. L. (1974). Aphasia rehabilitation resulting from melodic intonation therapy. *Cortex*, *10*, 303-316. doi: 10.1016/S0010-9452(74)80024-9
- Stahl, B., Henseler, I., Turner, R., Geyer, S., & Kotz, S. A. (2013). How to engage the right brain hemisphere in aphasics without even singing : evidence for two paths of speech recovery. *Frontiers in Human Neuroscience*, *7*, 1-12. doi: 10.3389/fnhum.2013.00035
- Stahl, B., Kotz, S. A., Henseler, I., Turner, R., & Geyer, S. (2011). Rhythm in disguise: why singing may not hold the key to recovery from aphasia. *Brain*, *134*(10), 3083-3093. doi: 10.1093/brain/awr240
- Stern, R. A. (1997). *Visual analog mood scales, VAMS*. Odessa, FL: Psychological Assessment Resources.
- Synapse-développement. (2010) Cordial Analyseur. Toulouse, France: Synapse développement.
- Thompson, C. K. (1989). Generalization in the treatment of aphasia. Dans L. V. McReynolds & J. Spradlin (dir.), *Generalization strategies in the treatment of communication disorders* (p. 82-115). Burlington, Ontario: B.C. Decker Inc.
- van der Meulen, I., van de Sandt, W. M. E., Heijenbrok-Kal, M. H., Visch-Brink, E. G., & Ribbers, G. M. (2014). The Efficacy and Timing of Melodic Intonation Therapy in Subacute Aphasia. *Neurorehabilitation and neural repair*, 1-9. doi: 10.1177/1545968313517753
- Van Eeckhout, P., & Bhatt, P. (1984). Rythme, intonation, accentuation: la rééducation des aphasies non-fluents sévères. *Rééducation Orthophonique*, *22*, 311-327.
- Van Lancker-Sidtis, D., & Rallon, G. (2004). Tracking the incidence of formulaic expressions in everyday speech: Methods for classification and verification. *Language & Communication*, *24*(3), 207-240. doi: 10.1016/j.langcom.2004.02.003
- Wade, D., Hewer, R. L., David, R. M., & Enderby, P. M. (1986). Aphasia after stroke: natural history and associated deficits. *Journal of Neurology, Neurosurgery & Psychiatry*, *49*(1), 11-16. doi: 10.1136/jnnp.49.1.11

Wilson, S. J., Pearsons, K., & Reutens, D. C. (2006). Preserved singing in aphasia: a case study of the efficacy of Melodic Intonation Therapy. *Music Perception*, 24(1), 23-36. doi: 10.1525/mp.2006.24.1.23

Zumbansen, A., Peretz, I., & Hébert, S. (2014). Melodic intonation therapy: back to basics for future research. *Frontiers in Neurology*, 5(7). doi: 10.3389/fneur.2014.00007

Chapitre 4 - Effect of choir activity in the rehabilitation of aphasia: a blind, randomized, controlled study

Anna Zumbansen^{1,3,4,5}, Isabelle Peretz^{2,3,4}, Carole Anglade¹, Josée Bilodeau⁵, Suzanne Généreux⁵, Michelyne Hubert⁵ & Sylvie Hébert^{1,3,4,5}

1. School of Speech Pathology and Audiology, Faculty of Medicine, Université de Montréal
2. Department of Psychology, Faculty of arts and science, Université de Montréal
3. CRBLM, Centre for Research on Brain, Language and Music, McGill University
4. BRAMS, International Laboratory for Research on Brain, Music, and Sound, Université de Montréal, Quebec, Canada
5. IUGM, Institut Universitaire de Gériatrie de Montréal

4.1 Abstract

Aphasia challenges the functional communication abilities that people use for everyday social interaction. People with non-fluent aphasia struggle to express themselves when speaking, yet they have been shown to better pronounce words when singing familiar songs or novel songs in a choral context. Speech-language therapists have successfully used similar conditions in protocols aiming to generalize these temporary facilitating effects of music to normal speech. Choral singing and familiar songs are also at the core of choir practice, a recreational activity that has long been offered in aphasic associations. In this blind, randomized, controlled study, we tested for the first time if singing in a choir could improve functional communication in people with aphasia. Secondary outcomes included various speech and language skills, mood, and quality of life. Assessments were carried out before and after a six month intervention period in 17 participants with various types of chronic aphasia attending either weekly choir sessions (experimental condition, Choir group), drama classes (control condition, Drama group) or neither of these (Waiting list). Changes from pre- to post-activity did not differ significantly between groups in any outcome measure though individual analyses showed various significant changes in different participants. Future studies should address factors that could have masked the choir singing effect in our study such as sample size and heterogeneity of aphasia type, frequency of practice, and non-verbal cognition and musical abilities. A significant positive correlation was found between attendance to all social activities and functional communication changes, which suggests it may be reasonable to encourage patients to seek out the most engaging from among a variety of activities organized by associations so that they might be highly motivated to attend them frequently.

Keywords: aphasia, singing, functional communication, treatment, social activity.

4.2 Introduction

Aphasia is an impairment of language function caused by brain damage and takes multiple forms depending on the severity of expression and comprehension deficits (Benson & Ardila, 1996). People with chronic aphasia have a lower quality of life than non-brain-injured adults (Ross & Wertz, 2003). Aphasia has a strong negative impact on language use in everyday functional communication, which leads to significant reduction in social participation (Dalemans et al., 2010; Darrigrand et al., 2011; Davidson et al., 2008; Le Dorze & Brassard, 1995). Therefore, the primary aim of aphasia therapy is to improve functional communication (Brady et al., 2012).

Oral expressive problems of people with non-fluent aphasia have long been contrasted with their remaining abilities in music, notably in singing (Bouillaud, 1865). Intuitively, singing with lyrics can be regarded as an interesting bridge from relatively preserved musical production to impaired language expression in aphasia. Moreover, singing is a common activity, even in people with no musical training. Thus, a number of studies have investigated if singing could be successfully used in aphasia rehabilitation. Anecdotal reports of stroke patients with severe expressive aphasia state that these patients can sing words of familiar songs even if they cannot speak properly (Jacome, 1984; Yamadori et al., 1977). One recent case-study showed that the number of correctly reproduced words during singing was greater when compared to speaking, but this superiority effect was only found for familiar lyrics (Straube et al., 2008). When songs are novel to the patient, the singing advantage vanishes (Hébert et al., 2003; Peretz et al., 2004; Racette et al., 2006; Straube et al., 2008). However, singing in synchrony with an auditory model (i.e., choral singing) helps, improving the number of correct words produced by non-fluent aphasics (Racette et al., 2006). The present study tests whether choral singing regularly practiced in choirs has a generalized beneficial effect in the rehabilitation of people with aphasia.

The immediate beneficial effect of choral singing on speech production has been used as a facilitation technique in a range of speech and language music therapies for aphasia (Hurkmans, de Bruijn, Boonstra, et al., 2012; Zumbansen et al., 2014b), such as the Melodic intonation therapy (MIT, Albert et al., 1973; Sparks et al., 1974). However, speech and language therapy is traditionally given in patient-therapist dyadic sessions at a recommended treatment intensity that is well above what health care systems can offer, in particular in the chronic stage of post-stroke aphasia (Bhogal, Teasell, & Speechley, 2003; Code & Petheram, 2011). One cost-effective avenue to complement individual speech and language treatments is group interventions (Elman, 2007). Indeed, when delivered by speech and language therapists, group interventions do not appear to be less effective than individual therapy on functional communication measures (Brady et al., 2012; Pulvermüller et al., 2001; Wertz et al., 1981; Yao, Xue, & Li, 2005). Other, non-therapeutically driven group activities that are commonly organized in associations of people with aphasia have been far less studied but might also have a therapeutic effect because they offer opportunities for social stimulation and support. Such activities are usually labeled as *social support and stimulation activities* and comprise various forms of support groups and recreational activities (Brady et al., 2012). Choir practice falls into this category and has been organized in associations of people with aphasia for many years (e.g., <http://www.aphasie.ca>). Choir activity not only offers opportunities for social stimulation and support but also has at its core the production of familiar and novel songs in speech-facilitating choral singing. Furthermore, listening to music has been shown more effective than audiobooks in reducing negative mood in stroke patients (Särkämö et al., 2008). Therefore, choir activity might have greater effects in the rehabilitation process of people with aphasia than other social, non-musical activities.

Few studies have investigated the beneficial effects of choir practice in aphasia. Cohen (1992) explored the effect of singing familiar songs in group sessions of 30 minutes, three times a week for three weeks in eight patients with a variety of neurogenic expressive speech and language acquired disorders. She reported improvements in speech articulation and intelligibility but did not assess language or communication skills. Tamplin and colleagues (2013) collected quantitative

and qualitative measures from 13 people with aphasia before and after 20 weeks of a choir activity conducted two hours per week by a music therapist. Quantitative analysis showed a pre/post trend towards a reduction in psychological distress. The thematic analysis of semi-structured interviews with three participants and five caregivers highlighted the importance of peer support and revealed better confidence within social interactions, mood and motivation. With respect to communication changes, some interviewees perceived only speech improvements in singing with no carry-over effect to normal speech, while others reported generalized improvement of verbal output. Quantitative assessments did not include detailed measures of communication, thus the results on functional communication are difficult to interpret. Finally, because these two studies did not include a control group, it is not possible to know if improvements were related to choral singing rather than social stimulation. Therefore, there is a need for research on the effects of the practice of choral singing for rehabilitation of aphasia using controlled studies.

In this single-blind, randomized, controlled study, choir activity was compared to drama classes, another artistic activity offered for many years in an association dedicated to drama practice in people with aphasia (www.theatreaphasique.org). This allowed us to test if choir activity had a specific effect on functional communication (including verbal and non-verbal communication). Moreover, because the specific effects of this activity are still unknown, we also explored changes in various speech and language skills, mood, and quality of life. Assessments were carried out before and after a six-month intervention period in participants with chronic aphasia attending either choir sessions (experimental condition, Choir group), drama classes (control condition, Drama group) or neither (Waiting list).

4.3 Methods

4.3.1 Study design

We used a three parallel group design with a 1:1:1 allocation ratio. Participants were assigned by the first author to one of the three study arms in a randomized fashion using computer-generated random numbers, with stratification for age and aphasia severity. Six experienced speech-language pathologists assessed the study outcomes before and after the six-month intervention phase. To ensure better test-retest reliability, the same clinician did the pre- and post-intervention assessment for a given participant. Clinicians were blind to participant allocation to each group. Therefore, before the post-treatment evaluation the first author reminded both participants and clinicians not to talk about their activities during the past six month. The success of blinding was verified post-experimentally by checking videos of testing sessions and ensuring that participants did not mention which activities they had been involved in.

4.3.2 Participants

Participants were recruited from five rehabilitation centers and three associations in the greater Montreal area from November 2011 to November 2012. They had to be francophone and have chronic aphasia (>1 year). The following exclusion criteria were applied: current participation in a speech and language treatment program, participation in a choir or drama activity in the past two years, dementia or severe nonverbal cognitive deficit, uncorrected vision or hearing deficits. Hearing thresholds were measured by a certified audiologist. Participants gave written informed consent and the study was approved by the Ethics committees of the Center for interdisciplinary research in rehabilitation of Greater Montreal (CRIR), the rehabilitation hospital Villa-Medica, and the Institut universitaire de gériatrie de Montréal (IUGM).

Figure 4.1 displays the flow diagram of the study phases according to the Consolidated Standards of Reporting Trials (CONSORT, Schulz, Altman, & Moher, 2010). Of 37 volunteers assessed for eligibility, 14 were excluded either because they did not meet the inclusion criteria (n=10), they planned to move (n=2), or they eventually declined to participate (n=2). Thus, 22 eligible participants were randomly assigned to the three study arms. Of these, 17 completed the study. Four participants discontinued the allocated intervention. Two did not like the drama activity and two choir participants could not attend the sessions because the association's new offices and choir room were not accessible to wheel chairs for a few months. One participant from the Waiting list declined the post-activity testing. Characteristics of the 17 participants who completed the study are displayed in Tables 4.1-4. All were right-handed.

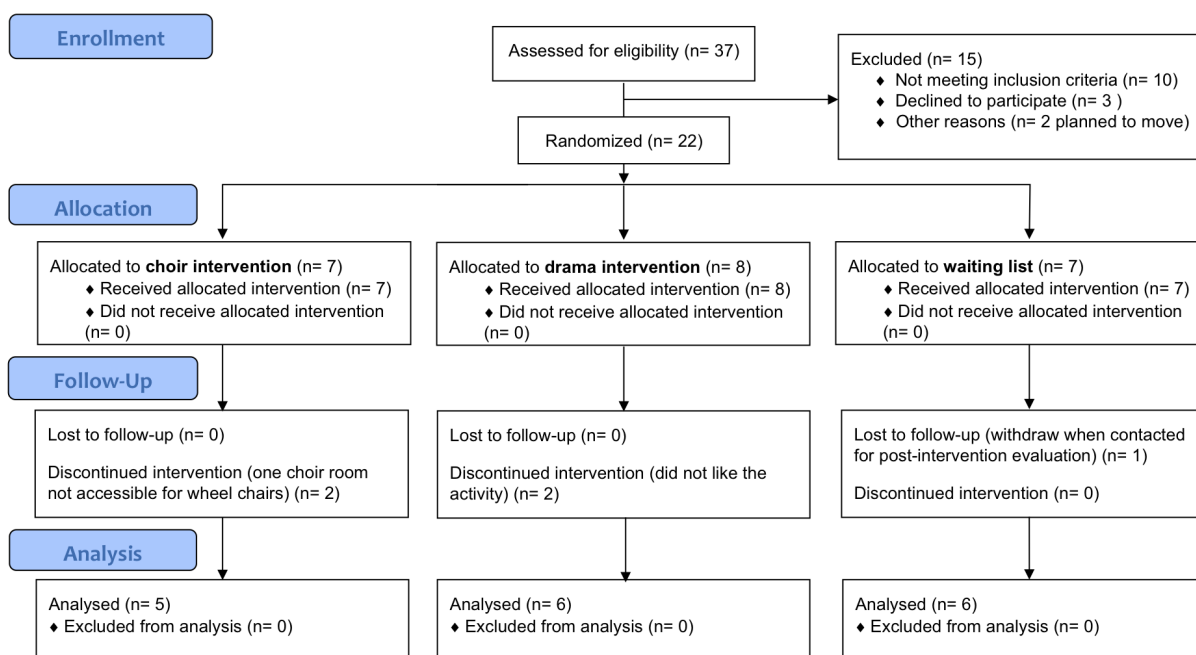


Figure 4.1: Flow diagram of the study phases according to the Consolidated Standards of Reporting Trials (CONSORT, Schulz et al., 2010).

Table 4.1 presents their demographic information. Five participants (3 females) were in the Choir group, six (3 females) in the Drama group and six (4 females) on the Waiting list. There were no significant differences between the three study groups with regard to age, education,

previous music or drama experience and post-aphasia onset time. All but one participant acquired aphasia following a stroke. JL, the youngest participant had a brain tumor surgically removed six and a half years before the beginning of the study.

Group	Participant	Sex	Age	Education in years	Music experience in years	Drama experience in years	Time post-onset in years	Lesion etiology
Choir	AnnL	F	73	7	0	0	1.3	Stroke
	JM	F	54	11	8	3	14.9	Stroke
	LeoD	M	65	9	0	0	4.7	Stroke
	MadP	F	69	7	0	0	2.5	Stroke
	YveT	M	59	11	0	0	2.9	Stroke
	Mean		64.0	9.0	1.6	0.6	5.3	
	SD		7.6	2.0	3.6	1.3	5.5	
Drama	JL	M	28	11	0	0	6.5	Brain tumor
	JulB	F	35	9	0	0	4.9	Stroke
	PT	M	50	17	10	0	1.9	Stroke
	RenG	M	82	6	0	0	1.3	Stroke
	SM	F	47	11	0	0	3.3	Stroke
	YveL	F	82	9	0	0	12.5	Stroke
	Mean		54.0	10.5	1.7	0	5.1	
SD		23.1	3.7	4.1	0	4.1		
Waiting list	AP	F	39	10	10	0	2.3	Stroke
	CA	F	46	11	0	2	22.0	Stroke
	MarR	F	46	13	0	0	1.5	Stroke
	ML	M	69	10	0	0	1.1	Stroke
	MNC	F	67	23	6	0	9.0	Stroke
	ZT	M	50	19	0	0	18.3	Stroke
	Mean		52.8	14.3	2.7	0.3	9.0	
SD		12.3	5.4	4.3	0.8	9.1		
Comparison between groups			<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	

Table 4.1: Demographics of the 17 participants who completed the study.

As shown in Table 4.2, no participant scored below the cut-off at the Functional association of object drawings subtest of the visual agnosia battery (PEGV, Agniel, Joannette, Doyon, & Duchain, 1992). Other subtests of this battery, when failed, did not show a severe deficit. Thus, it was assumed that participants could be evaluated for other skills using visual

material. They had various levels of abilities in planning according to the Total Move Score of the Tower of London-DX (Culbertson & Zillmer, 2001), and in short-term memory according to the Spatial Span of the WMS-III (Wechsler, 1997b). However, they all scored within the norms of their respective reference population on the Matrix reasoning test (Wechsler, 1997a) and were considered eligible for the study.

Group	Participant	PEGV				WAIS-III	WMS-III	Tower of London-DX
		Identical geometrical patterns/10	Overlapping figures/36	Functional association of object drawings/10	Categorical association of object drawings/10	Matrix reasoning /26	Spatial span /32	Total move score
Choir	AnnL	9	32	10	10	5	11	70
	JM	10	35	10	8 [9]	11	12	31
	LeoD	10	32	10	7	7	12	65
	MadP	10	31	9	8 [9]	7	13	80 (-2.5)
	YveT	7 [8]	26 [30]	10	8 [9]	6	10 [11]	64
Drama	JL	10	36	10	10	24	20	21
	JulB	10	36	10	10	17	16	21
	PT	8	31	10	10	19	11	44
	RenG	6 [8]	28 [30]	9	10	4	7	40
	SM	10	31	10	9	12	8 [11]	80 (-2.8)
	YveL	6 [8]	30	10	9	4	11	83 (-2.7)
Waiting list	AP	10	36	10	10	13	9 [12]	93 (-3.9)
	CA	10	34	10	9	12	8 [11]	36
	MarR	10	36	10	10	18	10 [11]	52
	ML	10	33	10	10	4	8 [10]	79 (-2.5)
	MNC	7 [8]	29 [30]	10	8 [9]	6	9 [10]	52
	ZT	10	35	10	10	19	15	11

Table 4.2: Participants' non-verbal skills. Visual agnosia was assessed with the Protocole d'évaluation des gnosies visuelles (PEGV, Agniel, Joannette, Doyon, & Duchain, 1992), reasoning with the Matrix reasoning subtest of the Wechsler adult intelligence scale – third edition (WAIS-III, Wechsler, 1997a), short-term memory with the Spatial span subtest of the Wechsler memory scale – third edition (WMS-III, Wechsler, 1997b), and planning skills with the Tower of London (TOL-DX, Culbertson & Zillmer, 2001). If scores are below the norms (i.e., below -2SD or below cut-off score), distance in SD to the mean of the reference population (corresponding to participants' demographics) is provided in parentheses next to the participant's score. When only cut-off scores were available in published material, we indicated their value in square brackets.

Aphasia was assessed with the francophone language evaluation battery for aphasia (MT86, Nespoulous et al., 1992) and a verbal fluency task (Cardebat, Doyon, Puel, Goulet, & Joannette, 1990). There was a wide range of aphasic clinical profiles, with various fluent and non-fluent aphasias, and mild to severe impairments (Table 4.3).

Group	Participant	Verbal fluency test (Animals in 90s)	MT-86 aphasia battery subtests					MT-86 Ratings of connected speech							Overall severity		
			Naming /31	Repetition /30	Comprehension /47	Words /9	Sentences /38	Global reduction of fluency	Agrammatism	Syntactic deviations	Word finding difficulty	Phonetic deviations	Phonemic deviations (and/or jargon)	Verbal deviations		Motor-speech diagnosis	Aphasia label
Choir	AnnL	14 (-2.2)	26	34 (-2.7)	8	26	+	N	++	++	N	++	++	N	Transc. sensory	Mod.	
	JM	6 (-3.4)	28	31 (-7.1)	9	22	++	++	+++	+	+	+	+	N	Transc. motor	Mod.	
	LeoD	2 (-4.8)	28	22 (-3.2)	9	35	+++	+	++	+++	+++	+	+	Dysarthria	Transc. motor	Severe	
	MadP	8 (-3.3)	28	35 (-4.9)	9	26	N	N	++	N	++	++	++	N	Transc. sensory	Mod.	
	YveT	1 (-4.5)	14 (-13.4)	28 (-8.6)	9	19	+++	++	+++	+++	++	++	+	AOS	Mix. non-fluent	Severe	
Drama	JL	15	25 (-2.7)	29	43	8	35	N	+	++	N	+	+	N	Anomic	Mild-Mod.	
	JuIB	9 (-2.3)	14 (-20.3)	33 (-5.3)	9	24	++	+++	+++	++	+	+	+	AOS	Broca	Mod.	
	PT	8 (-3.4)	10 (-20.9)	20 (-8.0)	8	35	++	+++	+++	+	++	+	N	AOS	Broca	Mod.	
	RenG	16	25	18 (-4.6)	8	28	+	N	+	+	+++	+	+	N	Conduction	Mod.	
	SM	1 (-2.5)	3 (-15.9)	8 (-32.6)	8	17	+++	n/a	+++	+++	+++	++	+++	AOS	Global	Severe	
	YveL	10 (-3.0)	23 (-2.5)	28	40	8	32	+	++	++	N	+	++	N	Anomic	Mod.	
	Waiting list	AP	5 (-2.2)	11 (-11.1)	20 (-14.5)	35 (-5.6)	9	26	+	N	+++	N	++	++	N	Wernicke	Mod.
		CA	12	21 (-5.1)	28 (-2.3)	33 (-6.7)	8	25	++	+	++	+	++	++	AOS	Mix. non-fluent	Mod.
		MarR	10	25 (-2.7)	17 (-19.0)	39 (-5.3)	9	30	++	+++	++	++	+	+	AOS	Mix. non-fluent	Mod.
		ML	18	29	26 (-2.6)	45	37	+	N	+	++	N	++	N	N	Conduction	Mild-Mod.
MNC		4 (-3.6)	12 (-18.8)	10 (-17.0)	33 (-6.1)	8	25	+++	+++	+++	+++	+	+	AOS	Broca	Severe	
ZT		13 (-2.7)	13 (-17.8)	23 (-5.3)	35 (-5.1)	8	27	++	+++	+++	+	++	++	AOS	Mix. non-fluent	Mod.-Severe	

Table 4.3: Participants' aphasia profiles. If scores are below the norms (i.e., below -2SD or below cut-off score), distance in SD to the mean of the reference population (corresponding to participants' demographics) is provided in parentheses next to the participant's score. Aphasia labels were determined following the diagnosis guidelines of Helm-Estabrooks & Albert (2004), based on the presented data.

N: normal; +++: severe; AOS: Apraxia of speech; Mix.: Mixed; Mod.: Moderate; Transc.: Transcortical.

Finally, Table 4.4 displays participants' musical abilities according to the short version of the Montreal Battery of Evaluation of Musical Abilities (MBEMA, Peretz et al., 2013). This version was chosen to limit the testing duration, although to date norms are only available for adults much younger than the participants of the present study. Thirteen participants scored below the norms of this reference population. The Choir group tended toward lower musical abilities, but there was no significant difference between the groups according to the Kruskal Wallis test (Pitch: $\chi^2[2] = .67, p = .75$, with a mean rank of 7.60 for the Choir group, 9.67 for the Drama group, and 9.50 for the Waiting list; Rhythm: $\chi^2[2] = 1.20, p = .55$, with a mean rank of 7.00 for the Choir group, 9.50 for the Drama group and 10.17 for the Waiting list; Memory: $\chi^2[2] = 3.32, p = .19$, with a mean rank of 5.90 for the Choir group, 9.17 for the Drama group and 11.42 for the Waiting list).

Group	Participant	Pitch /20	Rhythm /20	Memory /20
Choir	AnnL	12 (-2.6)	12 (-4.1)	9 (-6.4)
	JM	14	18	16
	LeoD	11 (-3.1)	9 (-6.1)	12 (-4.3)
	MadP	11 (-3.1)	11 (-4.7)	11 (-5.0)
	YveT	13 (-2.1)	15 (-2.1)	11 (-5.0)
	Mean	12.2	13.0	11.8
	SD	1.3	3.5	2.6
Drama	JL	16	17	17
	JulB	18	16	20
	PT	18	16	15 (-2.1)
	RenG	9 (-4.1)	10 (-5.4)	9 (-6.4)
	SM	11 (-3.1)	8 (-6.7)	11 (-5.0)
	YveL	11 (-3.1)	18	13 (-3.6)
	Mean	13.8	14.2	14.2
SD	4.0	4.1	3.2	
Waiting list	AP	15	14 (-2.7)	18
	CA	11 (-3.1)	17	15 (-2.1)
	MarR	14	15 (-2.1)	19
	ML	10 (-3.6)	16	13 (-3.6)
	MNC	14	16	18
	ZT	17	16 (-1.4)	11 (-5.0)
	Mean	13.5	15.7	15.7
SD	2.6	1.0	3.2	
Comparison between groups		<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>

Table 4.4: Participants' musical abilities. Musical abilities were assessed with the short version of the Montreal battery of evaluation of musical abilities (MBEMA, Peretz et al., 2013). Norms of the abbreviated MBEMA are available for young adults (18-20 years). If scores are below the norms (i.e., below -2SD), distance in SD to the mean of the reference population is provided in parentheses next to the participant's score.

4.3.3 Interventions

All activities took place in three associations of people with aphasia located in the greater Montreal area. In the Choir group, participants were not allowed to take drama classes and had to attend the weekly two-hour long choir session taking place in two of the participating associations. The same experienced choir leader directed the sessions in both associations. Participants assigned to the Drama group were not allowed to attend choir sessions and had to follow the weekly two-hour long drama session taking place in two associations. Sessions were directed by two experienced drama

teachers. Four participants of the Drama group attended sessions directed by the same teacher in both associations, while two (PT and SM) were directed by another teacher in one association. All activity directors had over 10 years of experience in leading groups of people with aphasia in their respective speciality. Finally, participants assigned to the third study arm were on a waiting list with respect to the choir and drama activity. For obvious ethical reasons, participants could not be precluded from participating in other activities offered by the associations. Therefore, attendance to any of the activities was recorded between the two evaluation times.

4.3.4 Outcomes and testing material

4.3.4.1 Primary outcome - Functional communication

The *Test Lillois de Communication* (TLC, Rousseaux et al., 2003) is a detailed questionnaire to be filled by speech and language pathologists based on their observation of patients' verbal and nonverbal communication, as well as their attention to communication during the whole clinical examination and in a communication task inspired from the therapy PACE (Promoting Aphasic Communicative Effectiveness, Davis & Wilcox, 1981; Wilcox & Davis, 1978). We used the total score of the Verbal communication scale (maximum score: 30 points), the total score of the Nonverbal communication scale (maximum score: 30 points), and the overall functional communication score, which is a weighted computation of the different subscales (maximum score: 100).

4.3.4.2 Secondary outcomes - Speech and language skills

Motor-speech agility – The total score of the Diadochokinetic rate subtest of the Apraxia battery for adults (ABA2, Dabul, 2000) was used to monitor changes in motor-speech agility. The task consists of rapid repetitions of syllable series increasing in complexity and the score reflects the number of correct repetitions in three seconds for the two-syllable series and in five seconds for the three-syllable series.

Automatized series – The production of the five automatized series of the MT86 (Nespoulous et al., 1992) was assessed by giving 3 points if the patient succeeded without help, 2 points if he succeeded with oral cueing, 1 point if he succeeded in unison with the examiner, and 0 if he failed. The maximum score was 15.

Repetition – The repetition score was based on the participant's first attempt when repeating words and sentences in the repetition tasks of the MT86 and the ABA2 (subtests 2 and 5). Each of the 106 items was scored according to the rules of subtest 2 of the ABA2 by giving 2 points if the patient succeeded without hesitation, effort, or articulatory error, 1 points if he self-corrected, delayed significantly, or committed one or more articulatory errors but maintained the correct number of syllables and general conformation of the word, and 0 points if the patient produced no response, gave the wrong number of syllables, or misarticulated to the extent that the word was no longer recognizable. The maximum score was 212 points.

Naming – The naming score was computed from the naming tasks of the MT86 and ABA2 (subtest 4). Each of the 41 items was scored as specified by the MT86 manual by giving 1 point if the expected word was produced within five seconds (with or without phonetic or phonemic errors) and 0 points otherwise. The maximum score was 41 points.

Connected speech informativeness – The efficiency in conveying and transmitting correct information to the listener in connected speech was assessed with a test requiring the description of 15 complex line drawing pictures of several characters acting in daily situations (Zumbansen & Hébert, 2011; Zumbansen, Peretz, & Hébert, 2014a). We divided the number of Correct Information Units (CIU) in a speech sample by the number of words in the sample. CIU are words that are intelligible in context and that accurately convey information related to the eliciting stimulus (Nicholas & Brookshire, 1993). Informativeness was scored with the help of the software Cordial Analyseur

(Synapse-développement, 2010) for words counts. The connected speech informativeness score was the average of the scores on the 15 items (converted to percentage).

Comprehension – The language comprehension score was derived from the three auditory comprehension tasks of the MT86 (i.e., *Compréhension orale de mots*, *Compréhension orale de phrases*, *Manipulation d'objets sur consignes verbales*). As outlined in the MT86 manual, each of the 55 items was scored by rating the patient's first response with 1 point if it was correct and 0 points otherwise. The maximum score was 55 points.

4.3.4.3 *Secondary outcomes - Mood*

Participants' mood was assessed with the Visual Analog Mood Scales (VAMS, Stern, 1997). On each scale, drawings of two faces are connected with a 10 cm vertical line. One face has a neutral expression while the other represents a mood state (afraid, confused, sad, angry, energetic, tired, happy, or tense). Participants have to place a mark across the line at the point that describes how they feel. To avoid negative numbers, the negative mood T scores were multiplied by -1 and we then added 1000 to all mood T scores. The final mood score was the average of the eight subscales.

4.3.4.4 *Secondary outcomes – Quality of life*

Quality of life was measured with the short version of the Sickness Impact Profile (SIP), which has been validated for the francophone aphasic population (SIP65, Bénaim et al., 2003). It is organized in 11 subscales: fatigue and sleep, mood and mental state, physical state, activities at home and in the garden, activities outside the house, relationships with close ones, thinking, memory, and concentration, ability to communicate, leisure activities, and diet. We summed points across all subscales and calculated a global percentage score of quality of life.

4.3.5 Statistical analyses

The sample size was limited by the number of eligible participants (N=22) that could be recruited over one year (November 2011 to 2012) in the greater Montreal area. In the service of external validity, we did not exclude available data from participants even if they attended less activity sessions than others.

Group data were analyzed with non-parametrical tests because of the small number of participants per group and the heterogeneity of their clinical profiles. Preliminary analyses were run on outcome scores at baseline to ensure that groups were comparable. Individual changes for each outcome variable (post- minus pre-activity scores) were then calculated and Kruskal-Wallis H tests were used to assess differential changes between groups in each outcome measure. In order to examine whether attendance to all social activities (including Choir, Drama and other activities) had an impact on the changes in outcomes, Spearman's rank-order correlations were run between attendance to all social activities and changes in each of the outcome measures.

Data were secondarily analyzed as a multiple case study, hence individual data are presented. Non-parametrical tests were run to determine if changes were significant for each outcome variable in each participant (MacNemar or Wilcoxon test, depending on the nature of the variable). Whenever possible, the available test norms were used and a change above 1 standard deviation was considered significant (i.e., for the Diadochokinetic rate subtest of the ABA2 and the functional communication outcomes).

4.4 Results (Table 4.5)

4.4.1 Attendance to social activities

4.4.1.1 Choir attendance

Participants in the Choir group attended a mean of 82% of their planned choir sessions. Thus, their compliance was generally high (AnnL: 20/22; JM: 14/23; LeoD: 20/22; MadP: 18/23; YveT: 21/24). Following the instructions for the study, none attended drama sessions. However, all of them also participated in other social activities, so that the choir sessions represented a mean of 46% of their overall social activities in the participating associations (AnnL: 38%; JM: 61%; LeoD: 50%; MadP: 47%; YveT: 34%).

4.4.1.2 Drama attendance

Participants in the Drama group attended a mean of 73% of their planned drama sessions (JL: 12/20; JulB: 18/24; PT: 22/24; RenG: 21/24; SM: 9/23; YveL: 20/24). None attended choir sessions. However, all but two (JL and SM) also participated in other social activities, so that the drama sessions represented a mean of 62% of their overall social activities in the participating associations (JL: 100%; JulB: 53%; PT: 29%; RenG: 40%; SM: 100%; YveL: 50%).

4.4.1.3 Social activities (including choir, drama and other social activities)

Finally, there was a marginally statistically significant difference in overall attendance to all social activities between the different groups, $\chi^2(2) = 5.88$, $p = .05$, with a mean rank of 12.30 for the Choir group, 10.08 for the Drama group, and 5.17 for the Waiting list. Overall attendance to social activities was low (0-19) for six participants (JL, SM, CA, MarR, MNC, ZT), medium (20-39) for five participants (JM, MadP, JulB, AP, ML), high (40-59) for four participants (AnnL, LeoD, RenG, YveL) and very high (60-79) for two participants (YveT, PT). Only two participants of the Waiting

list attended no social activity in the participating associations. One participant (MarR) did not strictly follow the randomized allocation and attended three choir sessions.

4.4.2 Primary outcomes – Functional communication

4.4.2.1 General functional communication

There was no statistically significant difference in Functional communication at baseline between the different groups, $\chi^2(2) = .76$, $p = .68$, with a mean rank of 7.40 for the Choir group, 10.00 for the Drama group, and 9.33 for the Waiting list. The changes in Functional communication from pre- to post-activity did not differ significantly between groups, $\chi^2(2) = 2.67$, $p = .26$, with a mean rank Functional communication changes of 12.00 for the Choir group, 8.33 for the Drama group, and 7.17 for the Waiting list. As illustrated in Figure 4.2A, there was a positive correlation between Functional communication changes and attendance to social activities, which was statistically significant ($r_s(15) = .51$, $p = .04$).

Significant improvements in Functional communication were found according to the norms (i.e., a change from pre- to post-activity $> 1SD$) in five participants. These are indicated in Table 4.5. Three were in the Choir group (AnnL, JM, MadP), one in the Drama group (RenG), and one on the Waiting list (AP). However, significant negative changes in Functional communication were found in one participant of the Choir group (LeoD) and one on the Waiting list (ZT).

4.4.2.2 Verbal functional communication

There was no statistically significant difference in the Verbal functional communication subscale at baseline between the different groups, $\chi^2(2) = 1.10$, $p = .58$, with a mean rank of 7.70 for the Choir group, 10.67 for the Drama group, and 8.42 for the Waiting list. The changes in Verbal functional communication from pre- to post-activity did not differ significantly between groups, $\chi^2(2) = .22$, $p = .90$, with a mean rank Verbal functional communication changes of 9.00 for the

Choir group, 9.67 for the Drama group, and 8.33 for the Waiting list. No significant correlation was found between Verbal functional communication changes and attendance to social activities ($r_s(15) = .16, p = .54$).

However, at the individual level, significant improvements in Verbal functional communication were found in four participants, two of whom were in the Choir group (AnnL, JM), one in the Drama group (JulB), and one on the Waiting list (ML). Significant negative changes in Verbal functional communication were noted in two participants, both in the Choir group (LeoD and MadP).

4.4.2.3 *Non-verbal functional communication*

There was no statistically significant difference in the Non-verbal functional communication subscale at baseline between the different groups, $\chi^2(2) = 1.06, p = .59$, with a mean rank of 7.30 for the Choir group, 10.42 for the Drama group, and 9.00 for the Waiting list. The changes in Non-verbal functional communication from pre- to post-activity did not differ significantly between groups, $\chi^2(2) = 3.06, p = .22$, with a mean rank of 12.10 for the Choir group, 8.50 for the Drama group, and 6.92 for the Waiting list. There was no significant correlation between Non-verbal functional communication changes and attendance to social activities ($r_s(15) = .45, p = .07$).

At the individual level, significant improvements in Non-verbal functional communication were found in eight participants, four of whom were in the Choir group (AnnL, JM, MadP, YveT), two in the Drama group (PT, RenG), and two on the Waiting list (AP, MNC). One participant on the Waiting list (ZT) had a significant decrease in Non-verbal functional communication.

4.4.3 Secondary outcomes – Speech-language skills and Mood

4.4.3.1 *Speech and language skills*

Motor-speech agility – There was no statistically significant difference in Motor-speech agility at baseline between the different groups, $\chi^2(2) = .27, p = .88$, with a mean rank of 9.90 for the Choir group, 8.92 for the Drama group, and 8.33 for the Waiting list. The changes in Motor-speech agility from pre- to post-activity did not differ significantly between groups, $\chi^2(2) = .17, p = .93$, with a mean rank of 8.70 for the Choir group, 9.67 for the Drama group, and 8.58 for the Waiting list. There was no significant correlation between Motor-speech agility changes and attendance to social activities ($r_s(15) = .14, p = .59$). In one individual (YveT from the Choir group), a significant positive change in Motor-speech agility was found according to norms (i.e., a change from pre- to post-activity $> 1SD$).

Automatized series – There was no statistically significant difference in the Automatized series at baseline between the different groups, $\chi^2(2) = 2.40, p = .30$, with a mean rank of 11.90 for the Choir group, 7.67 for the Drama group, and 7.92 for the Waiting list. The changes in the Automatized series from pre- to post-activity did not differ significantly between groups, $\chi^2(2) = .84, p = .66$, with a mean rank of 8.10 for the Choir group, 10.50 for the Drama group, and 8.25 for the Waiting list. There was no significant correlation between Automatized series changes and attendance to social activities ($r_s(15) = .25, p = .33$). No significant changes were found at the individual level for the Automatized series.

Repetition – There was no statistically significant difference in Repetition at baseline between the different groups, $\chi^2(2) = .940, p = .625$, with a mean rank of 10.40 for the Choir group, 9.33 for the Drama group, and 7.50 for the Waiting list. The changes in Repetition from pre- to post-activity did not differ significantly between groups, $\chi^2(2) = .023, p = .988$, with a mean rank of 9.10 for the Choir group, 8.75 for the Drama group, and 9.17 for the Waiting list. There was no significant

correlation between Repetition changes and attendance to social activities ($r_s(15) = -.18, p = .50$). In one individual from the Waiting list, a significant positive change from pre-to post-activity in Repetition was found, as revealed by a Wilcoxon signed-rank test ($Z = -2.52, p = .01$).

Naming – There was no statistically significant difference in Naming at baseline between the different groups, $\chi^2(2) = .95, p = .62$, with a mean rank of 10.40 for the Choir group, 7.50 for the Drama group, and 9.33 for the Waiting list. The changes in Naming from pre- to post-activity did not differ significantly between groups, $\chi^2(2) = .72, p = .70$, with a mean rank of 10.40 for the Choir group, 7.83 for the Drama group, and 9.00 for the Waiting list. There was no significant correlation between Naming changes and attendance to social activities ($r_s(15) = -.21, p = .42$). In one individual from the Choir group (YveT), there was a significant increase in the proportion of correct responses in picture naming between pre- and post-activity, as revealed by a McNemar test ($p = .039$).

Connected speech informativeness – There was no statistically significant difference in Connected speech informativeness at baseline between the different groups, $\chi^2(2) = 1.31, p = .52$, with a mean rank of 9.00 for the Choir group, 7.33 for the Drama group, and 10.67 for the Waiting list. The changes in Connected speech informativeness from pre- to post-activity did not differ significantly between groups, $\chi^2(2) = .37, p = .83$, with a mean rank of 9.40 for the Choir group, 9.67 for the Drama group, and 8.00 for the Waiting list. There was no significant correlation between Connected speech Informativeness changes and attendance to social activities ($r_s(15) = -.18, p = .50$). At the individual level, significant improvements in Connected speech informativeness were found in one participant from the Choir group (AnnL), one in the Drama group (SM), and one on the Waiting list (AP). In these participants, the Wilcoxon signed-rank test revealed a statistically significant difference in Connected speech informativeness from pre-to post-activity (AnnL, $Z = -1.99, p = .05$; SM, $Z = -2.97, p = .00$; AP, $Z = -2.78, p = .01$).

Comprehension – There was no statistically significant difference in Comprehension at baseline between the different groups, $\chi^2(2) = .58, p = .75$, with a mean rank of 7.60 for the Choir group, 9.83 for the Drama group, and 9.33 for the Waiting list. The changes in Comprehension from pre- to post-activity did not differ significantly between groups, $\chi^2(2) = 5.64, p = .06$, with a mean rank of 7.50 for the Choir group, 6.42 for the Drama group, and 12.83 for the Waiting list. As illustrated in Figure 4.2B, there was a significant negative correlation between Comprehension changes and attendance to social activities ($r_s(15) = -.51, p = .04$). A significant positive change in Comprehension was found in a participant (AP) from the Waiting list. The McNemar test revealed a statistically significant difference in the proportion of correct responses pre- and post-activity, $p = .04$.

4.4.3.2 *Mood*

There was no statistically significant difference in Mood at baseline between the different groups, $\chi^2(2) = 5.55, p = .06$, with a mean rank of 4.80 for the Choir group, 9.58 for the Drama group, and 11.92 for the Waiting list. The changes in Mood from pre- to post-activity did not differ significantly between groups, $\chi^2(2) = 3.05, p = .22$, with a mean rank of 6.00 for the Choir group, 9.17 for the Drama group, and 11.33 for the Waiting list. There was no significant correlation between Mood changes and attendance to social activities ($r_s(15) = -.14, p = .60$). Wilcoxon signed-rank tests revealed that two participants in the Drama group significantly increased on their Mood scores (JL, $Z = -2.33, p = .02$; YveL, $Z = -2.39, p = .02$), while one participant on the Waiting list showed a significant Mood drop (ZT, $Z = -2.53, p = .01$).

Group	Participant	Primary outcome				Secondary outcomes						Quality of life			
		Attendances		Functional communication		Motor-speech skills		Language expression		Language comprehension			Mood		
		Choir sessions	Drama sessions	Global score	Verbal score	Non-verbal score	Motor-speech ability	Auto-matized series	Repetition	Naming	Connected speech informativeness			Comprehension of words and sentences	Positive mood score
Choir	AnnL	20	0	53	58-84*	19-24*	12-25*	20-19	14-12	156-156	33-37	28-35*	38-36	971-965	58-62
	JM	14	0	23	70-80*	14-19*	24-28*	19-12	12-12	166-174	22-27	27-33	36-36	971-965	53-55
	LeoD	20	0	40	87-79*(^c)	23-20*(^c)	29-28	6-7	11-13	130-135	36-36	35-35	50-47	968-941	57-49
	MadP	18	0	38	69-83*	25-23*(^c)	14-25*	16-15	15-14	190-183	36-34	36-36	40-40	958-957	45-35
	YveT	21	0	61	75-78	20-20	22-24*	4-13*	11-12	132-131	1-8*	8-5	32-27	975-968	51-55
	Mean	18.6	0	43.0	9.2	1	5.8	0.2	0	1	2.8	2.0	-2.0	-9.4	-1.5
	SD	2.3	0	14.7	12.8	3.9	6.0	7.8	1.6	5.8	3.7	4.2	2.1	10.0	6.4
Drama	JL	0	12	12	95-96	26-27	30-30	23-24	14-13	198-202	33-37	49-55	50-50	977-982*	86-94*
	JuLB	0	18	34	82-83	21-23*	26-25	9-11	12-11	123-121	16-20	30-27	38-33	985-971	83-86
	PT	0	22	77	86-90	24-24	26-28.5*	6-8	10-13	148-149	16-13	22-22	46-40	967-964	62-74*
	RenG	0	21	52	58-67*	25-25	10-16*	4-0	8-13	134-122	33-35	24-22	43-44	978-974	63-66
	SM	0	9	9	59-58	9-8	21-21	7-8	8-6	68-70	3-5	11-24*	28-24	967-959	40-45
	YveL	0	20	40	83-83	23-23	25-25	18-16	11-14	182-188	31-32	18-20	46-43	982-985*	75-72
	Mean	0	17	37.3	2.4	0.3	1.3	0	1.2	-0.2	1.7	2.9	-2.8	-3.3	4.7
	SD	0	5.3	25.5	3.7	1.0	2.6	2.5	2.8	6.4	2.6	5.9	2.8	7.0	5.2
Waiting list	AP	0	0	32	80-86*	23-24	23-26*	23-16	11-9	122-129	15-17	19-26*	39-47*	977-977	72-72
	CA	0	0	0	85-85	23-23	26-26	12-6	10-12	176-171	29-33	34-39	36-38	984-982	69-62
	MarR	3	0	15	83-82	24-23	24-24	2-1	6-9	109-125*	35-38	45-46	47-45	981-983	58-69
	ML	0	0	33	82-84	23-26*	24-23	14-22	15-12	167-166	39-35	48-48	53-53	980-981	74-74
	MNC	0	0	17	68-70	16-15	21-23*	2-2	8-10	106-101	20-25	24-20	36-36	975-979	52-46
	ZT	0	0	0	73-68*(^c)	16-15	24-22*(^c)	16-22	13-12	141-142	20-22	29-27	39-40	981-972*(^c)	69-69
	Mean	0.5	0	16.2	0.7	0.2	0.3	0	0.2	2.2	2	1.3	1.5	-0.6	-0.5
	SD	1.2	0	14.6	3.5	1.6	1.9	6.1	2.5	8.1	3.2	4.2	3.5	4.5	6.5
Comparison between groups		<i>p</i> =.001	<i>p</i> =.001	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>
Correlation with the attendance to all social activities		<i>ns</i>	<i>ns</i>	-	<i>Positive</i> <i>p</i> =.039	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>ns</i>	<i>Negative</i> <i>p</i> =.038	<i>ns</i>	<i>ns</i>

Table 4.5: Results of the 17 participants who completed the study. Pre and post outcome measures are displayed separated by a hyphen. *indicates a significant change from pre to post intervention. (-) indicates when a significant change was negative. Mean and standard deviation of the changes are provided for each group.

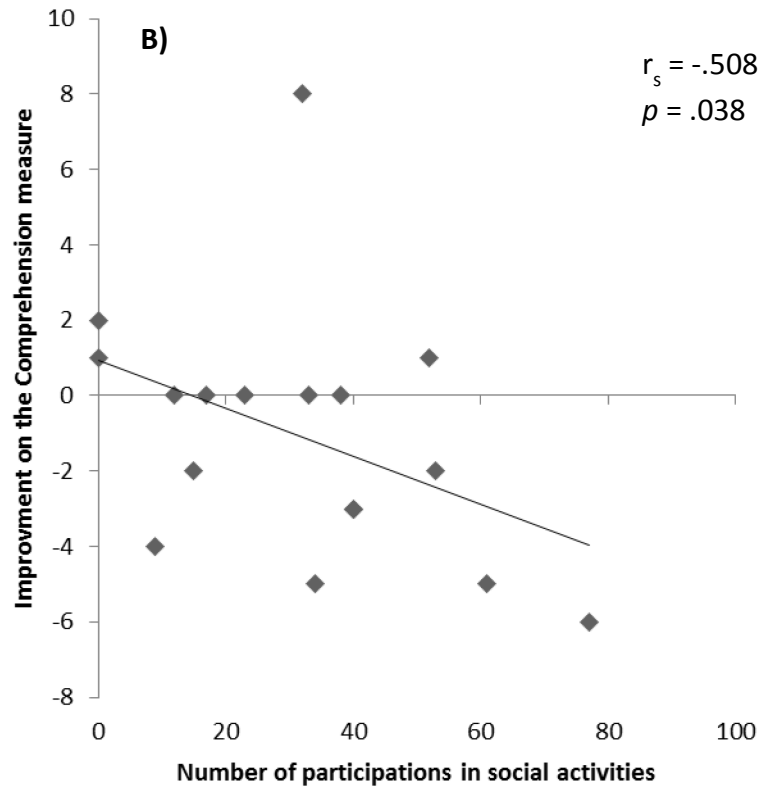
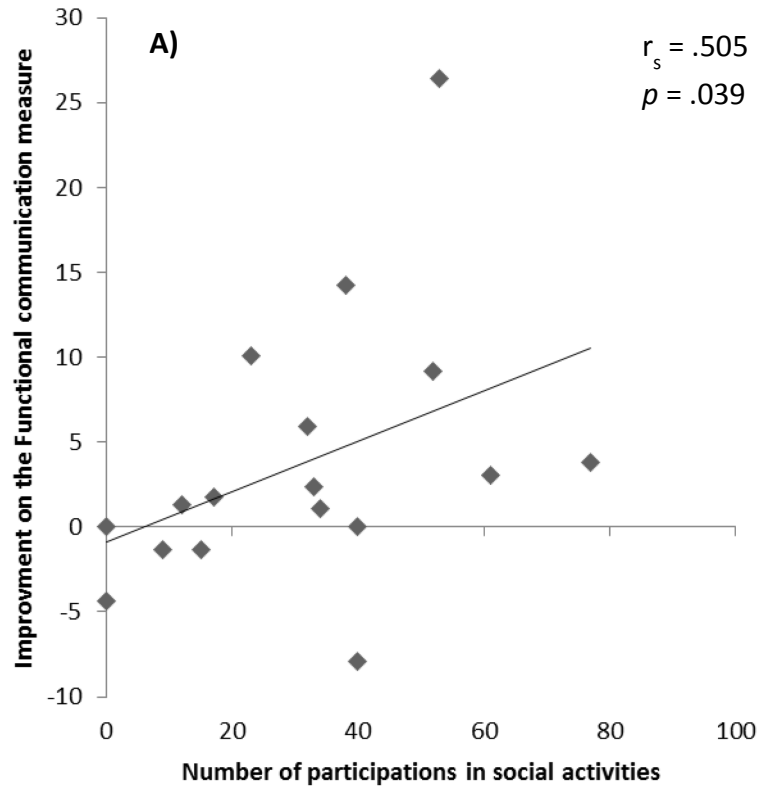


Figure 4.2: Significant correlations between attendance to all social activities and A) improvement on the functional communication measure and B) improvement on the comprehension measure.

4.4.3.3 *Quality of life*

There was no statistically significant difference in Quality of life at baseline between the different groups, $\chi^2(2) = 5.28$, $p = .07$, with a mean rank of 4.70 for the Choir group, 11.33 for the Drama group, and 10.25 for the Waiting list. Changes in Quality of life from pre- to post-activity did not differ significantly between groups, $\chi^2(2) = 3.69$, $p = .16$, with a mean rank of 7.30 for the Choir group, 12.17 for the Drama group, and 7.25 for the Waiting list. No significant correlation was found between Quality of life changes and attendance to social activities ($r_s(15) = .14$, $p = .60$).

Two participants in the Drama group (JL and PT) had a statistically significant increase in the proportion of positive items in the Quality of Life questionnaire between pre- and post-activity (McNemar test, JL, $p = .02$; PT, $p = .01$).

4.4.4 **Summary**

At baseline, there were no statistically significant differences in any outcome measures between groups. Changes between pre- to post-activity did not differ significantly between groups in any outcome measure. Thus, we did not find specific effects related to the two particular social activities examined in this study.

Although participants showed good compliance with their randomized allocation, most of them also participated in other social activities. This is illustrated by the fact that only two participants on the Waiting list (CA and ZT) did not attend any social activities offered by the participating associations. With regards to the primary outcomes, a significant positive correlation was found between attendance to social activities collectively and functional communication

changes. In contrast, we found a significant negative correlation between attendance and one of the secondary outcomes, namely, Comprehension.

Individual analyses revealed various significant changes in different participants. Two participants (AnnL and AP) improved in four of the outcome measures, notably in Functional communication and Connected speech informativeness. They had moderate receptive and fluent aphasias. AnnL was in the Choir group and AP was on the Waiting list. Both attended various social activities with medium to high frequency. Two other participants (PT and YveT) attended over 60 sessions of social activities in the six-month activity period. They had expressive, non-fluent aphasias that were moderate in PT and severe in YveT. PT, who attended 77 group sessions, significantly improved in Quality of life. He did not improve in language skills but did so in non-verbal communication. YveT, on the other hand, improved in speech and language expression skills as well as in non-verbal communication. Participants with the lowest attendance (ZT and CA) either did not improve significantly on any measure (CA), or showed significant negative changes (ZT). Changes in two particular cases (LeoD and JL) do not seem to be related to attendance to social activities. Indeed, LeoD attended 40 group sessions but showed a decrease in functional communication, while JL attended only 12 sessions and had a significant improvement in Quality of life. These results are discussed below.

4.5 Discussion

The primary aim of this single-blind, randomized, controlled study was to test if the practice of group singing (Choir activity) in associations of people with aphasia had specific effects on functional communication in participants with chronic aphasia. We found no specific effects at the group level when comparing six months of Choir activity to Drama classes or neither of these activities. Similar results were found on secondary outcomes including speech and language skills, mood, and quality of life. Thus, the benefits of choir practice may not be specific to group singing.

However, we discuss below a number of reasons why the choir practice effect may not have emerged in this study.

As is often the case in group studies with aphasic populations, our 17 participants had a wide range of aphasia profiles, both in terms of aphasia types and severity. We stratified the randomization for severity but not for aphasia types. Given this heterogeneity, it is still possible that people with certain forms of aphasia could benefit more from group singing than other social activities. The immediate facilitation of verbal output when singing familiar songs or in choral singing conditions has been shown in participants with non-fluent aphasias (Racette et al., 2006; Straube et al., 2008). Moreover, singing in Melodic Intonation Therapy has been shown to promote connected speech improvements in participants with Broca's aphasia (Schlaug et al., 2008; Zumbansen et al., 2014a). Thus, group singing might also have a specific beneficial effect for people with non-fluent aphasia. In our three groups, significant improvements in various outcome measures were found at the individual level, but there were not enough participants per group to state that participants with one particular aphasia profile can benefit more from Choir activity than other social activities. This could be examined in future studies with a greater number of participants randomized with a stratification for the aphasia type or by selecting participants with only one type of aphasia. Such a restriction would also permit to avoid some unnecessary measurements. For example, improvements in motor speech skills would not be relevant in participants with fluent aphasias, because these skills are not impaired in this aphasic subpopulation, leading to a ceiling effect in the data. Finally, musical abilities should also be taken into account in future studies. Although our groups did not differ significantly in this regard, it should be noted that all but one participant in the Choir group had weak musical abilities, thereby perhaps affecting their potential to benefit from this activity.

The fact that no specific effect was found at the group level with either activity could also be explained by the absence of specific therapeutic goals in the social activities examined in this study. To our knowledge, only one randomized trial compared group language therapy to social activities in participants with chronic post-stroke aphasia (Elman & Bernstein-Ellis, 1999). The speech and

language treatment included specific goals such as improvement of functional communication, confidence in communicative situations, self-awareness of personal goals and recognition of the progress made. In contrast, social activities were proposed to control for social stimulation. They were comprised of movement classes, creative/performance arts groups, church activities and support groups. The group communication treatment led to greater improvements on measures of language and communication compared to the control group. Although some of the participants improved while attending the social activities, no significant changes were found at the group level. This suggests that non-therapeutically driven group activities may not reliably show the therapeutic effects targeted by a purposefully designed intervention. However, an alternative explanation could be that social activities do help people with aphasia in their rehabilitation process, but that these effects are smaller than those of therapy, especially on language and communication outcomes, so that they are not captured by the chosen measurement tools. In our study too, it is possible that our testing material was not sensitive enough to detect differences between groups.

It is also probable that the intensity of the examined activities was not sufficient to elicit differential group effects in the present study. We tested the effect of group singing compared to drama classes as usually practiced in associations of people with aphasia, that is, at a frequency of two hours per week. Moreover, we included data of participants even if they did not attend all the planned sessions. In a study with non-musician, healthy subjects, Unwin et al. (2002) reported significant improvement in mood immediately after one single choir session. This improvement remained only partly one week later. Since we did not collect data at the beginning and the end of single activity sessions, our study do not show whether choir practice has an immediate effect on our outcomes. Moreover, even if changes occur at the single session level, they might not last long enough until the next weekly practice, preventing a cumulative effect to operate. Future studies investigating the immediate and lasting effects of choir practice in people with aphasia could shed some light on the importance of the frequency factor in this social activity. It has been shown that even individual speech and language therapy must be intensive to achieve desired improvements (Bhogal, Teasell, Foley, & Speechley, 2003). The importance of the frequency factor is particularly

well-illustrated, on the one hand, by the two participants that did not attend any social activity and either did not improve on any outcome measure (CA) or had negative changes in functional communication and mood (ZT), and on the other hand by the two participants who attended more than 60 social activities sessions over six months and improved on several measures including non-verbal functional communication, speech and language skills (YveT), and quality of life (PT).

Likewise, we found a significant correlation between the improvements on the general score of functional communication and attendance to a variety of social activities offered by the associations. This does not necessarily imply a causal relationship between the frequency of social activities and communication improvements but at least two, non-mutually exclusive interpretations can be discussed. First, it is possible that the more people with aphasia attend social activities, the more they stimulate their functional communication skills, thereby training and improving these abilities. Conversely, it is possible that the people who frequently participate in social groups are those who already have a good potential for spontaneous recovery. Indeed, we found a significant negative correlation between comprehension improvements and participation in social activities. This would mean that the people with aphasia who are unlikely to improve by simple social stimulation may consequently not attend frequently to social groups because communication failures and the concomitant absence of reward would discourage them from participating in such social groups. Instead, these persons would need therapeutically driven interventions to scaffold functional communication improvements. Taking into account these two scenarios and other existing data on the benefits of social participation, it is reasonable to consider social activities as a valuable complement to speech and language therapy for aphasia rehabilitation (Cruice, Worrall, & Hickson, 2006; Vickers, 2010). Finally, two participants from the Drama group discontinued the intervention because they did not like this particular social activity. If there is actually no specific effect in any social activity compared to others, then any preferred social activity should be encouraged in order to foster frequent participation.

Numerous factors are at play in aphasia rehabilitation. Notably, non-verbal cognitive deficits are frequently associated with aphasia. Although non-verbal cognitive deficits are not correlated with the severity of the language impairment, they have an impact on the response to treatment (Helm-Estabrooks, 2002; Hinckley, Carr, & Patterson, 2001). Our participants did not show severe non-verbal deficits. Nonetheless, their various levels of non-verbal abilities may have contributed to the results (Table 4.2). An illustration of other individual factors is found in our individual analyses, which reveal that changes in two participants were probably not related to attendance in social activities. Even with a high level of attendance to social activities, the Functional Communication score of LeoD decreased, while JL had low attendance and still improved significantly in Quality of Life. LeoD was the only aphasic participant with concomitant dysarthria and was severely impaired. JL was the youngest participant, had aphasia following a brain tumor, and had one of the mildest impairments in our aphasic sample. Other, non-systematically collected information could explain these particular responses to intervention on functional communication and quality of life. For example, we know that JL was the only participant who returned to work and started a personal relationship during the study. Given that people with aphasia generally express the desire to return to “normal” life (Worrall et al., 2011), we suspect that these two elements drove JL’s quality of life improvement.

Given the few available studies on the effects of choir practice in the rehabilitation of people with aphasia, the experimental design we choose (controlled, randomized and blind) probably involved a risk of not getting an effect. At this stage of knowledge, it would also have been appropriate to carry out other types of less stringent methodologies, in which the measure of pre-post effect is of higher priority than demonstrating its specificity to the treatment. For example, a multiple case or a small-group within-effect study would have been applicable. These designs are mentioned in the first two phases of the five-phase model for clinical-outcome research of Robey (2004) to prepare clinical trials. A multiple case study would have enabled repeated measurements before the activity period in order to take into account the intra-subject variability. In addition, qualitative interviews with participants would have allowed us to gain insight into the experience of

participants and thus provided a basis for selecting measurement tools. Our 17 participants could also have been studied as one single group tested before and after participation in six months of choir activity. With this number of participants per group, it might be possible to identify different effects of choir practice for different types of aphasia.

4.6 Conclusion

In this single-blind, randomized, controlled study, choir activity as practiced in associations of people with aphasia had no specific effects on functional communication, speech and language, mood, and quality of life outcomes compared to other social activities. However, our sample size was small and participants had a wide range of cognitive and speech-language profiles. Because the rehabilitation process from aphasia is multi-factorial, future studies should address thoroughly sample size and heterogeneity of speech and language disorders, as well as non-verbal cognition and musical abilities. Interestingly, we found a significant positive correlation between the improvements in functional communication and attendance to a variety of social activities that were offered in the participating associations. Taken with existing data, attending frequent social activities is therefore a reasonable recommendation to complement speech and language therapy. Patients should take advantage of the variety of activities that are organized in associations of people with aphasia and choose them according to their preferences to increase their motivation to attend them frequently. Future research will hopefully confirm that participation in social activities is one of the crucial factors of a successful rehabilitation process from aphasia.

4.7 Acknowledgements

Funding for this project was provided by the Centre for Research on Brain, Language and Music (CRBLM) and the Research Center of the Montreal University Geriatric Institute (CRIUGM). This work was also supported by scholarships to Anna Zumbansen from the Collaborative Research and Training Experience (CREATE) Program in Auditory Cognitive Neuroscience from the Natural Sciences and Engineering Research Council of Canada (NSERC), and the Faculty of Graduate Studies of Université de Montréal. We thank Christine Cantin (choir leader), Richard Gaulin and Isabelle Côté (drama teachers), Brigitte Damien and Marie-Andrée Laberge (speech-language pathologists), and Philippe Fournier and Charles-Édouard Basile (audiologists). We especially thank Alice Perdereau and Cynthia Keurentjes for their help in analysing the data and the associations Aphasie Rive-Sud, Association Québécoise des Personnes Aphasiques (AQPA), and Théâtre Aphasique for their long-lasting collaboration.

4.8 References

- Agniel, A., Joannette, Y., Doyon, B., & Duchain, C. (1992). *Protocole d'évaluation des gnosies visuelles (PEGV)*. Isbergues: L'Ortho Édition.
- Albert, M. L., Sparks, R. W., & Helm, N. A. (1973). Melodic intonation therapy for aphasia. *Archives of neurology*, *29*, 130-131. doi: 10.1001/archneur.1973.00490260074018
- Bénaïm, C., Péliissier, J., Petiot, S., Bareil, M., Ferrat, E., Royer, E., . . . Hérisson, C. (2003). Un outil francophone de mesure de la qualité de vie de l'aphasique: le SIP-65: A French questionnaire to assess quality of life of the aphasic patient: the SIP-65. *Annales de réadaptation et de médecine physique*, *46*(1), 2-11. doi: 10.1016/S0168-6054(02)00306-9
- Benson, D. F., & Ardila, A. (1996). *Aphasia: A clinical perspective*. New York, NY: Oxford University Press on Demand.
- Bhogal, S. K., Teasell, R., & Speechley, M. (2003). Intensity of aphasia therapy, impact on recovery. *Stroke*, *34*(4), 987-993. doi: 10.1161/01.STR.0000062343.64383.D0
- Bhogal, S. K., Teasell, R. W., Foley, N. C., & Speechley, M. R. (2003). Rehabilitation of aphasia: more is better. *Topics in Stroke Rehabilitation*, *10*(2), 66-76. doi: 10.1310/RCM8-5TUL-NC5D-BX58
- Bouillaud, J. B. (1865). Discussion sur la faculté du langage articulé. *Bulletin de l'Académie Impériale de Médecine*.
- Brady, M. C., Kelly, H., Godwin, J., & Enderby, P. (2012). Speech and language therapy for aphasia following stroke. *Cochrane Database Syst Rev*, *5*, CD000425. doi: 10.1002/14651858.CD000425.pub3
- Cardebat, D., Doyon, B., Puel, M., Goulet, P., & Joannette, Y. (1990). Evocation lexicale formelle et sémantique chez des sujets normaux. Performances et dynamiques de production en fonction du sexe, de l'âge et du niveau d'étude. *Acta Neurologica Belgica*, *90*(4), 207-217.
- Code, C., & Petheram, B. (2011). Delivering for aphasia. *International Journal of Speech-Language Pathology*, *13*(1), 3-10. doi: 10.3109/17549507.2010.520090
- Cohen, N. S. (1992). The effect of singing instruction on the speech production of neurologically impaired persons. *Journal of Music Therapy*, *29*(2), 87-102. doi: 10.1093/jmt/29.2.102
- Cruice, M., Worrall, L., & Hickson, L. (2006). Quantifying aphasic people's social lives in the context of non-aphasic peers. *Aphasiology*, *20*(12), 1210-1225. doi: 10.1080/02687030600790136

- Culbertson, C. W., & Zillmer, E. A. (2001). *Tower of London Drexel University (TOL DX): Technical manual*. Multi-Health Systems Incorporated (MHS).
- Dabul, B. L. (2000). *Apraxia battery for adults, second edition, ABA2*. (second edition^e éd.). Austin, TX: Pro-ed.
- Dalemans, R. J., De Witte, L. P., Beurskens, A. J., Van Den Heuvel, W. J., & Wade, D. T. (2010). An investigation into the social participation of stroke survivors with aphasia. *Disability & Rehabilitation*, 32(20), 1678-1685. doi: 10.3109/09638281003649938
- Darrigrand, B., Dutheil, S., Michelet, V., Rereau, S., Rousseaux, M., & Mazaux, J.-M. (2011). Communication impairment and activity limitation in stroke patients with severe aphasia. *Disability and rehabilitation*, 33(13-14), 1169-1178. doi: 10.3109/09638288.2010.524271
- Davidson, B., Howe, T., Worrall, L., Hickson, L., & Togher, L. (2008). Social participation for older people with aphasia: the impact of communication disability on friendships. *Topics in Stroke Rehabilitation*, 15(4), 325-340. doi: 10.1310/tsr1504-325
- Davis, G. A., & Wilcox, M. J. (1981). Incorporating parameters of natural conversation in aphasia treatment. Dans R. Chapey (dir.), *Language intervention strategies in adult aphasia* (p. 169-193). Baltimore: William & Wilkins.
- Elman, R. J. (2007). *Group treatment of neurogenic communication disorders: The expert clinician's approach*. San Diego, CA: Plural Pub.
- Elman, R. J., & Bernstein-Ellis, E. (1999). The efficacy of group communication treatment in adults with chronic aphasia. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 42(2), 411-419. doi: 10.1044/jslhr.4202.411
- Hébert, S., Racette, A., Gagnon, L., & Peretz, I. (2003). Revisiting the dissociation between singing and speaking in expressive aphasia. *Brain*, 126, 1838-1850. doi: 10.1093/brain/awg186
- Helm-Estabrooks, N. A. (2002). Cognition and aphasia: A discussion and a study. *Journal of communication disorders*, 35(2), 171-186. doi: 10.1016/S0021-9924(02)00063-1
- Helm-Estabrooks, N. A., & Albert, M. L. (2004). *Manual of aphasia and aphasia therapy*. Austin, TX: Pro-ed.
- Hinckley, J. J., Carr, T. H., & Patterson, J. P. (2001). *Relationships between cognitive abilities, treatment type and treatment time in aphasia*. Communication présentée 31st Annual Clinical Aphasiology Conference, Santa Fe, NM.
- Hurkmans, J., de Bruijn, M., Boonstra, A. M., Jonkers, R., Bastiaanse, R., Arendzen, H., & Reinders-Messelink, H. A. (2012). Music in the treatment of neurological language and

- speech disorders: A systematic review. *Aphasiology*, 26(1), 1-19. doi: 10.1080/02687038.2011.602514
- Jacome, D. E. (1984). Aphasia with elation, hypermusia, musicophilia and compulsive whistling. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry*, 47, 308-310. doi: 10.1136/jnnp.47.3.308
- Le Dorze, G., & Brassard, C. (1995). A description of the consequences of aphasia on aphasic persons and their relatives and friends, based on the WHO model of chronic diseases. *Aphasiology*, 9(3), 239-255. doi: 10.1080/02687039508248198
- Nespoulous, J.-L., Lecours, A. R., Lafond, D., Lemay, A., Puel, M., Cot, F., . . . Giroux, F. (1992). *Protocole Montréal-Toulouse d'examen linguistique de l'aphasie MT-86 M1bêta Module standard initial*. (2^e éd.). Isbergues: Ortho-Edition.
- Nicholas, L. E., & Brookshire, R. H. (1993). A system for quantifying the informativeness and efficiency of the connected speech of adults with aphasia. *Journal of Speech & Hearing Research*, 36(2), 338-350. doi: 10.1044/jshr.3602.338
- Peretz, I., Gagnon, L., Hébert, S., & Macoir, J. (2004). Singing in the brain: Insights from cognitive neuropsychology. *Music Perception*, 21, 373-390. doi: 10.1525/mp.2004.21.3.373
- Peretz, I., Gosselin, N., Nan, Y., Caron-Caplette, E., Trehub, S. E., & Béland, R. (2013). A novel tool for evaluating children's musical abilities across age and culture. *Frontiers in systems neuroscience*, 7. doi: 10.3389/fnsys.2013.00030
- Pulvermüller, F., Neininger, B., Elbert, T., Mohr, B., Rockstroh, B., Koebbel, P., & Taub, E. (2001). Constraint-induced therapy of chronic aphasia after stroke. *Stroke*, 32(7), 1621-1626. doi: 10.1161/01.STR.32.7.1621
- Racette, A., Bard, C., & Peretz, I. (2006). Making non-fluent aphasics speak: Sing along ! *Brain*, 129(10), 2571-2584. doi: 10.1093/brain/awl250
- Robey, R. R. (2004). A five-phase model for clinical-outcome research. *Journal of communication disorders*, 37(5), 401-411.
- Ross, K. B., & Wertz, R. T. (2003). Quality of life with and without aphasia. *Aphasiology*, 17(4), 355-364. doi: 10.1080/02687030244000716
- Rousseaux, M., Delacourt, A., Wyrzykowski, N., & Lefeuvre, M. (2003). *Test Lillois de Communication (TLC)*. Isbergues: L'Ortho-Édition.
- Särkämö, T., Tervaniemi, M., Laitinen, S., Forsblom, A., Soinila, S., Mikkonen, M., . . . Hietanen, M. (2008). Music listening enhances cognitive recovery and mood after middle cerebral artery stroke. *Brain*, 131(3), 866-876. doi: http://dx.doi.org/10.1093/brain/awn013

- Schlaug, G., Marchina, S., & Norton, A. (2008). From singing to speaking: why singing may lead to recovery of expressive language function in patients with Broca's aphasia. *Music Perception, 25*(4), 315-323. doi: 10.1525/mp.2008.25.4.315
- Schulz, K. F., Altman, D. G., & Moher, D. (2010). CONSORT 2010 statement: updated guidelines for reporting parallel group randomised trials. *BMJ, 340*, c332. doi: 10.1136/bmj.c332
- Sparks, R. W., Helm, N. A., & Albert, M. L. (1974). Aphasia rehabilitation resulting from melodic intonation therapy. *Cortex, 10*, 303-316. doi: 10.1016/S0010-9452(74)80024-9
- Stern, R. A. (1997). *Visual analog mood scales, VAMS*. Odessa, FL: Psychological Assessment Resources.
- Straube, T., Schulz, A., Geipel, K., Mentzel, H. J., & Miltner, W. H. R. (2008). Dissociation between singing and speaking in expressive aphasia: The role of song familiarity. *Neuropsychologia, 46*(5), 1505-1512. doi: 10.1016/j.neuropsychologia.2008.01.008
- Synapse-développement. (2010) Cordial Analyseur. Toulouse, France: Synapse développement.
- Tamplin, J., Baker, F. A., Jones, B., Way, A., & Lee, S. (2013). 'Stroke a Chord': The effect of singing in a community choir on mood and social engagement for people living with aphasia following a stroke. *NeuroRehabilitation, 32*(4), 929-941. doi: 10.3233/NRE-130916
- Vickers, C. P. (2010). Social networks after the onset of aphasia: The impact of aphasia group attendance. *Aphasiology, 24*(6-8), 902-913. doi: 10.1080/02687030903438532
- Wechsler, D. (1997a). *Wechsler Adult Intelligence Scale—Third Edition*. San Antonio, TX: Harcourt Assessment.
- Wechsler, D. (1997b). *Wechsler Memory Scale—Third Edition*. San Antonio, TX: Psychological Corporation.
- Wertz, R. T., Collins, M. J., Weiss, D., Kurtzke, J. F., Friden, T., Brookshire, R. H., . . . Porch, B. E. (1981). Veterans Administration Cooperative Study on Aphasia: A Comparison of Individual and Group Treatment. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research, 24*(4), 580-594. doi: 10.1044/jshr.2404.580
- Wilcox, M. J., & Davis, G. A. (1978). *Procedures for promoting communicative effectiveness in an aphasic adult*. Communication présentée Miniseminar presented at the Annual Convention of American Speech and Hearing Association, San Francisco.
- Worrall, L., Sherratt, S., Rogers, P., Howe, T., Hersh, D., Ferguson, A., & Davidson, B. (2011). What people with aphasia want: Their goals according to the ICF. *Aphasiology, 25*(3), 309-322. doi: 10.1080/02687038.2010.508530

- Yamadori, A., Osumi, Y., Masuhara, S., & Okubo, M. (1977). Preservation of singing in Broca's aphasia. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry*, 40, 221-224. doi: 10.1136/jnnp.40.3.221
- Yao, J., Xue, Y., & Li, F. (2005). Clinical application research on collective language strengthened training in rehabilitation nursing of cerebral apoplexy patients with aphasia. *Chinese Nursing Research*, 19(3B), 482-484.
- Zumbansen, A., & Hébert, S. (2011). *Quantifying natural speech in people with aphasia*. Communication présenté CRSNG-CREATE annual workshop on Auditory Cognitive Neuroscience, Montréal, QC.
- Zumbansen, A., Peretz, I., & Hébert, S. (2014a). The combination of rhythm and pitch can account for the beneficial effect of Melodic intonation therapy on connected speech improvements in Broca's aphasia. *Frontiers in Human Neuroscience*, 8(592). doi: 10.3389/fnhum.2014.00592
- Zumbansen, A., Peretz, I., & Hébert, S. (2014b). Melodic intonation therapy: back to basics for future research. *Frontiers in Neurology*, 5(7). doi: 10.3389/fneur.2014.00007

Chapitre 5 - Discussion générale

5.1 Introduction

L'objectif général de cette thèse était de préciser les connaissances actuelles sur les bénéfices du chant dans la réadaptation de l'aphasie. Nous nous sommes intéressés aux effets thérapeutiques du chant au-delà de son effet facilitateur immédiat, mais éphémère, rapporté sur l'expression verbale de personnes aphasiques lorsqu'elles chantent les paroles de chansons familières (Straube et al., 2008) ou de nouvelles paroles en condition de chant choral (Racette et al., 2006). Notre travail a porté sur les effets durables dont ces personnes peuvent bénéficier grâce au chant dans deux contextes : une thérapie de l'aphasie (la MIT) et une activité de loisir (chanter dans une chorale). Dans cette discussion, nous rappelons tout d'abord les objectifs et conclusions/résultats principaux des trois chapitres de cette thèse. Les résultats de nos études expérimentales ayant été discutés en regard de la littérature dans chacun des chapitres concernés (Chapitres 3 et 4), nous les intégrons ici avec les conclusions de notre recension critique des écrits (Chapitre 2) dans une discussion générale sur la façon dont le chant peut être considéré comme atout dans la réadaptation des personnes aphasiques et sur des pistes de recherches actuellement ouvertes.

5.2 Résumé des objectifs et apports des trois études de cette thèse

Notre première étude (Chapitre 2) a consisté en une analyse détaillée et comparative de quarante ans d'écrits scientifiques sur la MIT (Albert et al., 1973) pour tenter de démêler des ambiguïtés demeurant à ce jour, concernant son efficacité et les mécanismes par lesquels le chant utilisé dans ce protocole mène à l'amélioration de l'expression verbale dans l'aphasie de Broca. Ce travail a permis de dégager une grille de lecture que nous proposons non seulement pour mieux

intégrer les résultats de la variété d'études publiées mais aussi pour structurer les futures recherches. Nous avançons que deux considérations sont fondamentales. La première est qu'il existe en fait plusieurs types de traitements présentés sous le même label MIT. Ces traitements ont des objectifs et des stratégies thérapeutiques différents et ne peuvent donc pas être considérés comme équivalents, ni en termes d'efficacité, ni en termes de mécanismes. Nous distinguons notamment la *MIT originale (ou MIT)*, les *MIT palliatives*, et la *Thérapie mélodique et rythmée*. La seconde considération est que les effets immédiats du chant, qui sont étudiés dans des études transversales, ne devraient pas être confondus avec les effets à long terme, observés dans des études longitudinales sur la MIT et ses variantes. Tel que nous le mentionnons dans la discussion qui suit, ces distinctions permettent de réconcilier des conclusions d'études contradictoires à propos des mécanismes de la MIT et mettent en évidence des questions de recherches en suspens, notamment concernant la contribution relative du rythme et de la hauteur dans les effets de cette thérapie sur l'amélioration du discours naturel des patients. Enfin, l'analyse des écrits nous a également mené à envisager une nouvelle hypothèse de mécanisme d'action de la MIT dans le syndrome de l'aphasie de Broca. Nous proposons que le chant dans la MIT pourrait améliorer l'expression verbale par un effet sur l'aspect de programmation ou planification motrice de la parole dans ce syndrome.

Notre seconde étude (Chapitre 3) est une étude expérimentale dans laquelle nous avons évalué la contribution relative du rythme et de la hauteur musicale dans les effets bénéfiques de la MIT sur l'amélioration du langage dans le discours naturel des personnes aphasiques. Nous avons mené une étude de cas multiples avec trois participants ayant une aphasie chronique de Broca. Trois traitements ont été comparés dans un devis en carré latin : une thérapie proche de la MIT originale, comportant de la parole chantée (rythme et hauteurs musicales), une thérapie équivalente mais avec de la parole uniquement rythmée, et une thérapie comportant de la parole normale. Seule la thérapie chantée a amélioré l'informativité du discours naturel des participants. De plus, elle s'est révélée supérieure aux autres pour la généralisation des progrès en répétition de phrases à du matériel verbal non travaillé. Ainsi, nous soutenons l'idée que le chant est un élément actif de la MIT pour ses effets sur la récupération du langage des personnes ayant une aphasie de Broca. Deux objectifs secondaires

de cette étude étaient de tester l'hypothèse motrice de la MIT sur l'apraxie de la parole (mentionnée plus haut) et une idée selon laquelle le chant dans la MIT permettrait d'améliorer l'humeur des patients. Les mesures d'agilité articulatoire et de l'humeur n'ont pas permis de confirmer ces hypothèses dans notre étude.

Quittant le contexte explicitement thérapeutique de l'utilisation du chant, nous avons voulu savoir si le chant pratiqué comme simple loisir dans une activité de chorale pouvait aussi avoir un effet bénéfique dans la réadaptation de l'aphasie. Notre troisième étude (Chapitre 4) est le premier essai contrôlé, randomisé et à simple insu testant les effets spécifiques de l'activité de chorale dans la réadaptation de l'aphasie. Notre première mesure d'intérêt était l'amélioration de la communication fonctionnelle des participants. De plus, des mesures de l'agilité articulatoire, de l'expression et de la compréhension du langage, de l'humeur et de la qualité de vie des participants ont également été réalisées. Nous avons comparé les progrès de 17 personnes ayant différents types d'aphasie chronique réparties aléatoirement dans trois groupes : un groupe *chorale*, dans lequel elles devaient participer à six mois d'activité hebdomadaire de chorale offerte dans des associations de personnes aphasiques de la région de Montréal, un groupe *théâtre*, dans lequel elles devaient suivre l'atelier hebdomadaire de l'association du Théâtre aphasique de Montréal, et une *liste d'attente* pour ces deux activités. Pour des raisons éthiques, les participants étaient autorisés pratiquer d'autres activités que la chorale ou le théâtre pendant l'étude, s'ils le souhaitaient. Nos résultats ont montré une corrélation positive entre l'amélioration de la communication fonctionnelle et le nombre de présences aux activités sociales, quelles qu'elles soient, mais nous n'avons pas trouvé d'effet spécifique à l'activité de chorale. Plusieurs explications ont été suggérées dans la discussion du quatrième chapitre. Nous en reprenons certaines ci-dessous.

5.3 Comment le chant peut-il être bénéfique dans la réadaptation de l'aphasie ?

5.3.1 Différentes thérapies chantées ont différents effets et mécanismes

Plusieurs thérapies de l'aphasie font usage du chant et appartiennent aux domaines de la musicothérapie et de l'orthophonie (Albert et al., 1973; de Bruijn et al., 2005; Jungblut & Aldridge, 2004; Kim & Tomaino, 2008). La MIT, la plus étudiée d'entre-elles, est issue de l'orthophonie (Albert et al., 1973). C'est la première thérapie de l'aphasie ayant intégré le chant dans un traitement formalisé. Le protocole de la MIT comporte une technique de facilitation par le chant choral : l'orthophoniste propose au patient de répéter avec lui des phrases en les chantant selon une mélodie rudimentaire faite d'un rythme simple (notes longues et courtes) et de deux hauteurs musicales seulement (Sparks et al., 1974). Cette technique particulière a suscité beaucoup d'intérêt dans la communauté clinique et scientifique. Ainsi, depuis la publication du programme détaillé de la MIT en 1974, la MIT n'a pas cessé d'être examinée par différentes équipes de recherche dans le monde, accumulant des preuves d'efficacité pour le traitement de l'aphasie de Broca. Cependant, en 2012, deux revues systématiques pointaient encore des faiblesses méthodologiques de ses études d'efficacité et des incohérences entre les résultats des explorations de ses mécanismes (Hurkmans, de Bruijn, Boonstra, et al., 2012; Van der Meulen et al., 2012). Notre analyse détaillée des écrits scientifiques sur la MIT (Chapitre 2) a révélé qu'au moins une partie de ces incohérences peuvent être expliquées par le fait que des traitements parfois très éloignés ont été nommés MIT sous prétexte de l'utilisation du chant. L'une des différences que nous avons soulignée est que dans la MIT originale, le clinicien présente une grande variété de phrases au patient parce qu'il vise l'amélioration généralisée du langage propositionnel, c'est à dire le langage génératif que nous utilisons de façon volontaire dans la vie quotidienne (Jackson, 1878; Van Lancker-Sidtis & Rallon, 2004), alors que des versions de la MIT que nous avons qualifiées de « palliatives » ont cherché à faire apprendre aux participants quelques phrases par cœur. Ainsi, dans ces dernières, les progrès sont mesurés dans des tâches de répétition des phrases apprises, tandis que l'efficacité de la MIT originale a été testée sur l'amélioration du langage dans le discours naturel des participants et par des batteries de tests standardisés. En prenant en compte des éléments de base d'une démarche thérapeutique, soit

l'objectif de la thérapie (par exemple, améliorer des phrases vs. le langage) et la stratégie choisie pour l'atteindre, il devient clair que les versions palliatives ne peuvent pas être étudiées comme étant représentatives de la MIT. Cette distinction est importante à considérer dans les méta-analyses sur l'efficacité de la MIT mais aussi dans l'étude de ses mécanismes. Plus généralement, notre analyse démontre que les études s'intéressant au chant pratiqué dans une thérapie doivent expliciter de façon précise la démarche thérapeutique en question puisque les effets et mécanismes du chant en dépendent. Nous développons ces aspects dans les sections suivantes.

5.3.2 Effets des thérapies chantées de l'aphasie

Nous avons montré dans le deuxième chapitre que l'efficacité de la MIT originale sur l'amélioration généralisée du langage dans l'aphasie de Broca est soutenue par des études de cas uniques et multiples impliquant 31 participants avec aphasie chronique (Bonakdarpour et al., 2003; Naeser & Helm-Estabrooks, 1985; Schlaug et al., 2008, 2009; Sparks et al., 1974). Dans le troisième chapitre, nous apportons une confirmation des effets de la MIT sur l'amélioration du langage dans le discours naturel de trois participants supplémentaires. De plus, depuis la publication de notre analyse critique des écrits sur la MIT (Chapitre 2), l'efficacité de ce programme a été démontrée dans un essai clinique avec 27 participants aphasiques au stade subaigu post-AVC (van der Meulen et al., 2014). Les résultats d'un autre essai clinique sont également attendus avec une trentaine de participants au stade chronique post-AVC (Schlaug & Norton, 2011b). Dans notre expérience des milieux cliniques publics et privés en France et au Québec nous n'avons jamais vu d'orthophoniste appliquer le programme de la MIT comme tel. Sa technique de facilitation chantée est utilisée de temps à autres en soins aigus post-AVC pour tenter de « débloquer » la parole de patients mutiques. Étant donné les preuves d'efficacité accumulées, la MIT pourrait être une option plus souvent envisagée pour les patients avec aphasie de Broca, au stade subaigu comme chronique pour améliorer l'expression dans leur discours naturel.

Les variantes palliatives de la MIT ont quant à elles démontré qu'elle peuvent être utilisées avec succès pour aider des patients ayant une aphasie non fluente à apprendre par cœur quelques mots et phrases qu'ils pourraient utiliser dans leur vie quotidienne (Baker, 2000; Goldfarb & Bader, 1979; Hough, 2010; Springer et al., 1993; Stahl et al., 2013; Wilson et al., 2006). Par contre, ces études n'ont pas établi que les progrès sur ce matériel verbal se généralisent à des stimuli non travaillés. Dans certaines études, ces versions palliatives ont été utilisées parce que la MIT originale n'avait pas donné de résultats satisfaisants chez les participants (Baker, 2000; Hough, 2010). Dans l'étude présentée au Chapitre 3, nous avons utilisé une version proche de la MIT originale, mais que nous avons qualifiée de *mixte*, parce qu'elle comportait à la fois des phrases variées (comme dans la MIT originale) pour éviter que les participants ne les mémorisent et quelques phrases travaillées de façon répétitive à chaque séance (comme dans les MIT palliatives). Avec cette thérapie, les participants ont non seulement progressé dans la production des phrases travaillées mais se sont aussi améliorés sur des mesures de généralisation dans des phrases non travaillées et dans leur discours naturel. Nous avons suggéré que ce principe de mixité pourrait être appliqué en clinique pour décider avec le patient si la MIT originale ou une variante palliative serait finalement mieux appropriée pour lui. Enfin, nous n'excluons pas que la version mixte puisse également convenir comme telle à certains patients puisqu'elle leur permettrait d'accéder à un répertoire de phrases préparées à l'avance en plus de favoriser la généralisation des progrès au discours naturel.

La Thérapie Mélodique et Rythmée (TMR, Van Eeckhout & Bhatt, 1984) est une troisième variante de la MIT. Dans cette version française de la MIT, l'orthophoniste apprend au patient à utiliser la technique chantée ouvertement lorsqu'il en ressent le besoin pour débloquer son expression. Cette option nous paraît également intéressante mais aucune étude prospective n'a encore examiné de façon rigoureuse l'efficacité de cette variante de la MIT. Toutefois, dans une étude d'imagerie cérébrale, une équipe de recherche a pu recruter près d'une dizaine de participants aphasiques qui s'étaient améliorés sur des tests de langage standard après la TMR (Belin et al., 1996).

Si la MIT et ses variantes sont les plus étudiées des thérapies chantées pour la réadaptation de l'aphasie, le chant est également présent dans d'autres approches thérapeutiques de l'aphasie (Hurkmans, de Bruijn, Boonstra, et al., 2012). Celles-ci nécessitent l'intervention d'un musicothérapeute, seul ou en thérapie conjointe avec un orthophoniste (de Bruijn et al., 2005; Jungblut & Aldridge, 2004; Kim & Tomaino, 2008). Tel que mentionné dans l'introduction générale de cette thèse, ces approches devront être éprouvées pour leur efficacité. Dans la mesure où elles utilisent une variété d'éléments musicaux bien plus riche que la forme de chant rudimentaire de la MIT, l'un des effets potentiels de ces thérapies, que nous n'avons pas retrouvé dans la MIT (Chapitre 3), pourrait être l'amélioration de l'humeur des participants.

Pour finir, mentionnons que jusqu'à présent le chant a surtout été étudié dans des thérapies avec des participants ayant une aphasie d'origine vasculaire, de type non fluent (Hurkmans, de Bruijn, Boonstra, et al., 2012). Une des variations palliatives de la MIT a donné des résultats encourageants avec deux patients aphasiques non fluents victimes d'un traumatisme crânien sévère (Baker, 2000). Il n'y a, a priori, pas de raison pour laquelle le chant ne puisse pas être utilisé avec succès dans les aphasies causées par différents types de lésion, si les habiletés musicales y sont suffisamment préservées. Par exemple, les deux participants de Baker ont pu mémoriser de véritables chansons personnalisées pour se construire un vocabulaire expressif de base. Les bénéfices du chant dans les syndromes aphasiques autres que celui de Broca restent cependant relativement incertains. En effet, la MIT ne s'est pas révélée efficace pour les aphasies fluentes, ni pour les aphasies non fluentes où la répétition est préservée (AAN, 1994). Toutefois, le chant ralentit la parole (Racette et al., 2006) et plusieurs études ont montré que le ralentissement du débit de la parole dans du matériel verbal présenté auditivement à des personnes aphasiques permet d'améliorer leur compréhension de ces stimuli (Albert & Bear, 1974; Gardner, Albert, & Weintraub, 1975; Lasky, Weidner, & Johnson, 1976). Ainsi, le chant pourrait peut-être servir à la réadaptation de certains troubles de la compréhension dans l'aphasie. Les modalités de son utilisation en ce sens restent cependant à être élaborées.

5.3.3 Mécanismes de l'utilisation du chant dans les thérapies de l'aphasie

L'étude présentée dans le troisième chapitre de cette thèse comble un vide dans la littérature scientifique en montrant que dans une version proche de la MIT originale, la combinaison du rythme et de hauteurs musicales peut être essentielle pour l'amélioration généralisée des progrès de l'expression verbale dans le discours naturel des participants. Ainsi, nous soutenons que la production vocale de rythmes et de hauteurs musicales, c'est-à-dire le chant dans son entièreté, est un facteur déterminant du succès de la MIT originale auprès des personnes avec aphasie de Broca. Les recherches longitudinales récentes qui se sont penchées sur la contribution relative de la hauteur musicale et du rythme dans les effets de la MIT ont en fait utilisé des versions palliatives de la MIT (Stahl et al., 2013; Wilson et al., 2006). Après entraînement chanté, les phrases travaillées n'étaient pas mieux produites qu'après un entraînement en parole seulement rythmée. Ainsi, dans les versions palliatives de la MIT, le chant pourrait être bénéfique grâce à son aspect rythmique exclusivement pour la production de phrases mémorisées. Le rôle de différents aspects du rythme pourrait être étudié dans de futures recherches. Par exemple, la structuration de l'enchaînement des syllabes selon une pulsation régulière (*beat*, en anglais), c'est à dire avec un rythme syllabique isochrone, suffirait-il pour aider l'apprentissage des phrases? Ou bien faut-il ajouter, en plus d'une régularité temporelle sous-jacente, un contraste de syllabes longues et courtes, comme c'est le cas actuellement dans ces thérapies? Enfin, les effets des MIT palliatives proviennent-ils simplement d'un ralentissement du débit de la parole et non de cette organisation rythmique?

Les corrélats neuronaux de la MIT sont été discutés depuis quarante ans. Dès l'élaboration de ce traitement, ses concepteurs se basaient sur l'hypothèse que des régions de l'hémisphère cérébral droit, habituellement impliquées dans le traitement de la musique, pouvaient être recrutées pour la fonction langagière et ainsi compenser la perte des aires du langage de l'hémisphère gauche ayant causé l'aphasie (Helm-Estabrooks, 1983; Sparks et al., 1974). Cette hypothèse reste encore largement débattue. Selon notre analyse (Chapitre 2), les conclusions contradictoires d'une partie des études d'imagerie fonctionnelle cérébrale peuvent toutefois être réconciliées si l'on différencie les données

transversales, qui examinent les corrélats neuronaux de la technique de facilitation chantée, et les données *longitudinales*, qui rapportent l'effet du programme thérapeutique au complet sur les activations cérébrales associées au langage. En comparant les études ayant utilisé des paradigmes similaires de répétition de mots et de phrases chez des participants ayant une aphasie chronique, il apparaît que la facilitation immédiate de la production verbale par la technique chantée de la MIT est liée à davantage d'activation à gauche, dans les régions péri-lésionnelles, comparé à la production de parole normale (Belin et al., 1996; Laine et al., 1994). Ces données transversales vont à l'encontre de l'hypothèse originelle de la MIT selon laquelle le chant permettrait aux personnes aphasiques de recruter des aires hémisphériques droites. Les données récentes sur le réseau neuronal lié à la production de chant montrent que le traitement des relations de hauteurs musicales est associé à des régions hémisphériques droites mais que les relations temporelles (rythme) dans le chant sont aussi associées à des régions gauches proches des aires classiques du langage (Alcock et al., 2000; Jungblut et al., 2012). De plus, dans des études transversales comportementales, l'aspect rythmique s'est révélé comme le principal facteur de la facilitation immédiate de la parole dans le chant choral (Boucher et al., 2001; Laughlin et al., 1979; Stahl et al., 2011). L'ensemble de ces observations tend à montrer qu'en ce qui concerne la facilitation immédiate de la parole dans la technique chantée de type MIT, seul l'aspect rythmique du chant serait important. Cependant, nous avons montré qu'à long terme, la hauteur musicale apporte un avantage supplémentaire à l'utilisation du rythme seul pour l'amélioration du langage dans le discours naturel (Chapitre 3). Ainsi, dans les effets durables du chant sur l'amélioration généralisée du langage, la contribution relative du rythme et de la hauteur musicale (avec leurs corrélats neuronaux respectifs) pourrait être organisée autrement que dans les effets immédiats du chant sur la parole des personnes aphasiques. Actuellement, les données longitudinales disponibles comparant la production de parole normale avant et après plusieurs dizaines de séances de MIT indiquent une augmentation de l'activation de l'hémisphère droit, en particulier dans des régions homologues à celles du langage (Schlaug et al., 2008; Zipse et al., 2012). Ces résultats ont été observés chez des participants avec de vastes lésions hémisphériques gauches. D'autres études devront examiner la question des corrélats neuronaux de la MIT et des autres thérapies chantées de l'aphasie en contrôlant des facteurs individuels prioritaires dans la latéralisation

cérébrale du langage lors de la réadaptation de l'aphasie, notamment la taille et l'emplacement de la lésion par rapport aux aires primaires du langage (Anglade et al., 2014). Nous avons suggéré que chez certains patients, les variations de hauteur liées à des activations cérébrales droites pourraient soutenir le traitement du rythme dans l'hémisphère gauche via des connexions inter-hémisphériques et ainsi favoriser la réactivation de régions cérébrales péri-lésionnelles à gauche, un phénomène qui a été associé à une meilleure récupération du langage que l'activation compensatoire de régions hémisphériques droites (Anglade et al., 2014).

L'analyse des études sur la MIT nous a également amené à suggérer que ses effets pourraient être liés à une amélioration de la composante d'apraxie de la parole dans l'aphasie de Broca, c'est-à-dire le trouble de la planification ou programmation motrice de la parole (Ballard et al., 2000; McNeil et al., 1997; Van der Merwe, 1997). En effet, la MIT s'est révélée efficace spécifiquement pour des patients ayant une aphasie de Broca (AAN, 1994) et il s'agit du seul syndrome aphasique qui est classiquement associé avec une apraxie de la parole (Basso, 2003). Cette hypothèse a été testée pour la première fois dans l'étude présentée au troisième chapitre de cette thèse, mais n'a pas pu être confirmée. Toutefois, les recherches devraient être poursuivies. La difficulté méthodologique principale pour tester cette idée réside actuellement dans le manque d'outils quantitatifs sensibles pour mesurer le degré d'apraxie de la parole, indépendamment des troubles du langage qui y sont très généralement associés. Ballard et collaborateurs (2000) ont proposé que le déficit de planification motrice dans l'apraxie de la parole puisse être non seulement présent lors de la parole, mais aussi dans les praxies orales non verbales, pourvu que celles-ci soient d'une complexité équivalente à celles des praxies articulatoires pour la parole. En effet, bien que l'apraxie bucco-faciale (un trouble de l'exécution volontaire de mouvements bucco-faciaux) soit traditionnellement distinguée de l'apraxie de la parole, il se pourrait que les épreuves cliniques couramment utilisées pour tester l'apraxie bucco-faciale soient constituées de gestes trop grossiers (par exemple, ouvrir la bouche, tirer la langue, la déplacer de droite à gauche ou de haut en bas) et, par conséquent, trop peu sensibles pour déceler un déficit moteur des praxies fines non verbales dans la sphère orale. Pour ces auteurs, les systèmes du contrôle moteur des praxies oro-faciales verbales et non verbales n'en font qu'un, et les

individus avec apraxie de la parole auraient nécessairement un certain degré d'apraxie bucco-faciale. Cette affirmation a été démontrée à l'aide d'un appareil composé de capteurs de mouvements des articulateurs reliés à un système informatisé (Hageman, Robin, Moon, & Folkins, 1994; Robin, Jacks, Hageman, Clark, & Woodworth, 2008). Les participants doivent réaliser des mouvements oro-faciaux pour faire bouger un point sur un écran. Différentes tâches de mouvements volontaires peuvent être demandées, comme, par exemple, faire bouger le point pour le superposer sur une cible à l'écran qui se déplace de façon prédictible. Ainsi, cet appareil peut permettre d'évaluer des praxies orales non verbales élaborées, se rapprochant de la complexité des gestes articulatoires de la parole, avec des mesures cinématiques précises. Nous suggérons que cette méthode soit intégrée dans de futures recherches pour confirmer sa pertinence à l'évaluation de l'apraxie de la parole et éventuellement à la mesure des progrès liés à la MIT et d'autres thérapies utilisant le chant.

5.3.4 Le chant en chorale comme activité de loisir

Dans la population générale, le chant est majoritairement pratiqué comme activité de loisir, le plus souvent dans des chorales. Les associations de personnes aphasiques offrent l'activité de chorale parmi les activités sociales qu'elles organisent. Puisque le chant est un élément actif de la MIT pour la récupération du langage, on peut se demander si le chant dans une chorale apporterait un bénéfice supplémentaire comparé à d'autres activités sociales, pour l'amélioration de la communication fonctionnelle des participants. L'étude rapportée dans le quatrième chapitre est pionnière en ce sens mais n'a pas pu démontrer cet effet particulier.

Plusieurs raisons pourraient expliquer pourquoi le chant serait efficace dans la MIT et non dans l'activité de chorale sur les mesures de langage et de communication. Premièrement, la pratique du chant dans la MIT est intensive (au moins trois séances par semaine) (AAN, 1994), alors que l'activité de chorale que nous avons examinée n'avait lieu qu'une fois par semaine. Il est possible que le chant puisse avoir un effet bénéfique seulement s'il est pratiqué avec une certaine fréquence. Deuxièmement, la MIT est une thérapie alors que l'activité de chorale est une activité de loisir. La

MIT est un ensemble d'actions organisées dans le but d'améliorer le langage. Le chant y est présent spécifiquement pour cette raison. Ainsi, seule une forme très simple de chant est utilisée et elle est associée à d'autres techniques de facilitation plus classiques en orthophonie concourant au même objectif (comme la lecture labiale, la progression finement graduée des difficultés pendant les séances, ou le choix de matériel verbal pertinent à la vie quotidienne du patient). De plus, la MIT est proposée en tant que thérapie aux personnes aphasiques, ce qui ajoute sans doute une composante placebo à son effet. L'activité de chorale, quant-à-elle, a pour but d'apprendre un répertoire de chansons en vue de les présenter à un public lors de concerts. Pendant les séances de chorale, la production des paroles est importante, mais la justesse mélodique du chant prend une place prépondérante. Ainsi, même si l'activité de chorale peut avoir des effets thérapeutiques, il est probable qu'une intervention minutieusement conçue pour l'amélioration du langage ait un effet plus spécifique dans la réadaptation de l'aphasie qu'une activité sans but thérapeutique constitutif.

Toutefois, tel que mentionné dans la discussion du Chapitre 4, l'hétérogénéité des profils cliniques des participants et la taille limitée de notre échantillon (17 participants dont 5 dans l'activité de chorale) peuvent avoir masqué d'éventuels effets spécifiques. Même lors de thérapies individuelles et intensives, il est unanimement reconnu que plusieurs facteurs individuels peuvent moduler la réponse au traitement (Basso, 2003; Brookshire, 2007; Helm-Estabrooks & Albert, 2004; Raymer et al., 2008). Certains sont d'ordre neurologique. Par exemple, la récupération du langage dépend de la taille et de la localisation de la lésion (Cherney & Robey, 2008). D'autres concernent les habiletés cognitives non verbales des patients. En effet, Hinckley et collaborateurs (2001) ont montré que le nombre de séances de traitement nécessaires pour atteindre un niveau de performance donné ne dépend pas tant de la sévérité de l'aphasie que des habiletés de raisonnement et de fonctions exécutives. Lorsque le chant est utilisé dans la réadaptation de l'aphasie, les habiletés musicales des personnes aphasiques seraient également à prendre en compte. La majorité des participants du groupe expérimental de notre étude avait de faibles habiletés musicales. De ce fait, les bénéfices qu'ils pouvaient tirer de l'activité de chorale pouvaient être réduits. Mentionnons toutefois que le participant FS de notre étude sur la MIT (Chapitre 3) a pu améliorer son langage dans son

discours naturel à l'aide de ce traitement malgré ses faibles scores aux tests musicaux. Cette observation peut être due au fait que l'aspect musical de la MIT est rudimentaire par rapport au contenu musical riche et complexe de l'activité de chorale. Ainsi, pour profiter de l'activité de chorale, les bonnes habiletés musicales des personnes aphasiques pourraient être plus importantes que pour profiter de la MIT. Enfin, de nombreux facteurs personnels tels que la représentation que chaque patient a de lui-même, de sa condition aphasique, de l'importance du traitement, et de son rôle dans son propre processus de réadaptation ont, en toute vraisemblance, un impact sur l'humeur et motivation des patients. Ces facteurs pourraient également être influencés par les croyances et comportements de l'entourage proche des personnes aphasiques (Croteau & Le Dorze, 2001, 2006; Hallé, Duhamel, & Le Dorze, 2011; Michallet, Tétreault, & Le Dorze, 2003). En somme, étant donné la faible fréquence des séances de chorale et l'absence de but thérapeutique constitutif, l'ensemble de ces facteurs individuels ont pu empêcher la mise en évidence des effets thérapeutiques potentiels de l'activité de chorale sur le langage et la communication des participants. Les futures études sur les effets de l'activité de chorale devront constituer un échantillon de personnes aphasiques plus grand et/ou mieux contrôler ces facteurs individuels.

Nous avons également mentionné dans la discussion du chapitre 4, qu'étant donné le peu d'études sur les effets de l'activité de chorale dans la réadaptation des personnes aphasiques, le devis expérimental contrôlé, randomisé et à l'aveugle que nous avons réalisé comportait un risque de ne pas obtenir d'effet. Si l'on se réfère au modèle de recherche clinique en cinq phases de Robey (2004), ce devis appliqué auprès de petits groupes comme ceux que nous avons pu constituer peut être utilisé dans la phase 2, qui vise à explorer les dimensions d'effets thérapeutiques, en préparation d'un essai clinique (à la phase 3). Nous situant dans la phase 2, cette exploration aurait aussi pu être réalisée à l'aide d'une étude de groupe simple, non contrôlée, mais où le plus grand nombre de participants aurait peut-être permis de repérer des effets différenciés selon les types d'aphasie, ou à l'aide d'une étude de cas multiples, dans laquelle il aurait été possible de sélectionner des participants ayant des profils cliniques relativement semblables. Les futures études sur les effets de l'activité de chorale devront probablement envisager ces options méthodologiques. L'étude que nous avons menée sur la

MIT est, quant à elle, une étude de cas multiples, mais ce choix n'a pas été fait en lien avec le modèle de Robey puisque notre étude ne préparait pas un essai clinique. En effet, les études de validation de la MIT sont déjà dans la phase 3 étant donné qu'un essai clinique a été publié cette année et qu'un autre essai est toujours en cours (Schlaug & Norton, 2011b; van der Meulen et al., 2014). Dans notre étude, nous avons tenté de décortiquer un des éléments de ce traitement pour en mesurer l'impact dans les effets thérapeutiques de la MIT. Avec l'accélération des recherches sur l'efficacité des traitements en orthophonie, les opportunités pour examiner les mécanismes des effets des thérapies validées deviendront plus fréquentes (Brady et al., 2012). Nous pensons qu'il peut s'agir d'une démarche intéressante : isoler des facteurs thérapeutiques et les tester dans d'autres contextes, comme nous avons souhaité le faire avec le chant dans une activité de loisir.

Nous n'avons pas trouvé d'effet de l'activité de chorale sur l'humeur de nos participants. Plusieurs raisons portent cependant à croire que la pratique du chant en chorale pourrait être bénéfique pour l'humeur des personnes aphasiques. Premièrement, l'écoute auto-dirigée régulière de musique pendant les premiers mois après un AVC peut prévenir les humeurs négatives (Särkämö et al., 2008). Deuxièmement, chanter dans une chorale semble susciter des humeurs positives chez des sujets sains, sans aphasie : l'humeur de 107 participants non musiciens s'est révélée meilleure immédiatement après une séance de chant en groupe et une partie de cette amélioration a perduré une semaine plus tard (Unwin, Kenny, & Davis, 2002). De plus, une enquête à grande échelle auprès de 633 choristes amateurs a mis en évidence qu'une grande majorité de personnes ayant des problèmes de santé retentissant sur leur bien-être psychologique perçoivent le chant comme bénéfique parce qu'il met de bonne humeur, demande de la concentration, aide à rester actif et offre un support social contre l'isolement (Clift et al., 2007). Troisièmement, le chant choral et la production de chansons bien connues offre un bénéfice immédiat sur l'expression verbale de ces personnes (Racette et al., 2006; Straube et al., 2008). Le constat de cette amélioration pourrait augmenter le sentiment de compétence de ces personnes pour la production de mots et de phrases. Ainsi, l'activité de chorale pourrait être particulièrement gratifiante pour les personnes aphasiques. Nous croyons important que les futures recherches sur l'effet de l'activité de chorale dans la

réadaptation de l'aphasie continuent de documenter les changements de l'humeur en plus des effets sur le langage et la communication. Il se peut, par exemple, que cette activité soit particulièrement indiquée dans les nombreux cas de dépression post-AVC. En effet, Robinson et collaborateurs (1986) ont montré que la présence de dépression majore les troubles cognitifs chez les personnes ayant subi un AVC et est également associée avec une récupération cognitive plus faible même lorsque la variable de la taille de la lésion est prise en compte. On peut donc penser qu'une intervention améliorant l'humeur pourrait avoir un impact positif sur la récupération en cas d'aphasie post-AVC.

Nos résultats de groupe ont montré que l'amélioration de la communication fonctionnelle est positivement corrélée avec la fréquence de participation aux activités sociales des associations, que ces activités soient musicales ou non. Bien que ce résultat ne démontre pas une relation de cause à effet, nous soutenons l'idée généralement acceptée en clinique que la participation régulière à des activités sociales plaisantes est bénéfique aux patients (Legg, Stott, Ellis, & Sellars, 2007; Vickers, 2010). En tant qu'activité de groupe, l'activité de chorale comporte certaines caractéristiques sociales qui sont justement les atouts des thérapies de groupe par rapport aux thérapies individuelles comme la MIT. Selon Elman (2007), l'environnement de groupe permet des opportunités d'interactions variées à la fois parce que le groupe est composé de personnalités différentes et parce que les actes de parole y ont des fonctions diverses. Les situations de communication sont plus naturelles qu'en thérapie individuelle et stimulent la pratique des aspects pragmatiques du langage, comme dans la régulation des tours de parole ou l'initiation de la communication. De plus, les membres d'un groupe peuvent trouver du soutien psychosocial par le contact avec des pairs. Un troisième atout social de la situation de groupe est d'encourager la créativité dans le langage, c'est à dire, pour les personnes aphasiques, à aller au-delà de formules langagières mémorisées (nous ne résistons pas au clin d'œil musical de Elman (2004), qui parle d'*improvisation* langagière). Dans le contexte de l'activité de loisir qu'est le chant en chorale, les personnes aphasiques qui en ont déjà la disposition personnelle (i.e., selon les facteurs individuels mentionnés plus haut) pourraient spontanément tirer parti de ces aspects sociaux qui ne sont pas présents dans les thérapies individuelles. De plus, le chant dans une chorale peut être très plaisant, particulièrement pour les personnes aphasiques si elles constatent que leur parole est

facilitée dans cette condition, de sorte que cette activité peut les encourager à se joindre régulièrement à ces groupes sociaux.

5.3.5 Une chorale MIT?

La MIT peut s'associer avec des aspects de stimulation et de soutien sociaux si elle est proposée en séances de groupe. Cette modalité a été brièvement mentionnée par les auteurs de la MIT dans une de leurs premières publications mais n'a jamais fait l'objet de recherches (Sparks et al., 1974). La MIT originale est coûteuse pour le système de santé puisque c'est un traitement individuel et intensif. La MIT de groupe pourrait donc aussi avoir un avantage économique. Au stade subaigu de la réadaptation, il est souvent difficile de constituer des groupes de patients homogènes tel qu'il le faudrait pour la MIT parce que les patients ne restent que quelques mois tout au plus dans les institutions de réadaptation et qu'il est rare d'être en présence de plusieurs cas semblables dans la même période. La mise en place de tels groupes pourrait être plus aisée au stade chronique, avec des patients externes. Nous encourageons cette voie de recherche.

5.4 Qui veut chanter?

Nous avons considéré implicitement tout au long de cette thèse que les personnes aphasiques et les cliniciens sont prêts à chanter. Le chant est effectivement une pratique naturelle pour l'être humain, tel que démontré par la présence interculturelle de berceuses et de comptines, de chants de travail ou de fêtes, pour ne nommer que quelques exemples. De plus, de nombreuses personnes le pratiquent par plaisir dans une activité de loisir. Toutefois, dans notre expérience d'orthophoniste spécialisée en troubles vocaux et de chef de chœur amateur, nous avons rencontré des personnes qui ne se sentent pas à l'aise si on leur demande de chanter sur commande et nous avons souvent entendu des histoires de personnes expliquant qu'elles ne chantaient plus depuis que leur voix avait été jugée « mauvaise » par leur entourage dans leur enfance. En fait, la plupart des gens chantent juste mais pensent qu'ils chantent faux, du moins dans le monde occidental actuel (Dalla Bella,

Giguère, & Peretz, 2007). Dans ce contexte, il n'est pas évident que tous les patients et les orthophonistes adoptent le chant dans la réadaptation de l'aphasie. Nous souhaitons ici replacer le chant comme l'un des nombreux outils thérapeutiques dont disposent les orthophonistes. Les cliniciens ont la responsabilité de proposer les outils qu'ils maîtrisent et qui conviennent aux patients. Signalons toutefois que dans la MIT, la forme de chant utilisée est rudimentaire et a été conçue pour des cliniciens sans formation musicale, ce qui peut la rendre accessible à la fois pour les cliniciens et les personnes aphasiques (Sparks, 1981, 2008). Dans notre étude testant l'activité de chorale, certains participants du groupe expérimental nous ont dit « adorer » cette activité alors que d'autres ne sont pas restés dans la chorale après la fin de l'étude. Tous se sont pourtant prêtés au jeu de la randomisation et aucun n'a abandonné de son plein gré cette activité alors que deux participants se sont retirés de l'atelier théâtre. Ainsi, le plaisir du chant ne peut pas être considéré pour acquis chez toutes les personnes, aphasiques ou non, mais l'activité de chorale semble relativement bien acceptée par les personnes aphasiques.

5.5 Conclusion

Cette thèse soutient globalement que le chant apporte des bénéfices dans la réadaptation de l'aphasie. Le chant devrait être considéré lors des choix thérapeutiques proposés aux patients aphasiques. À ce jour, la MIT fait partie des thérapies les mieux soutenues par des preuves scientifiques d'efficacité pour la réadaptation de l'aphasie de Broca et nous avons démontré l'importance des deux composantes essentielles du chant (rythme et hauteur musicale) pour son effet sur l'amélioration généralisée du langage dans le discours naturel de ces personnes aphasiques. De futures recherches pourront élucider des questions en suspens sur les mécanismes de ce protocole et examiner l'efficacité d'autres thérapies de l'aphasie faisant usage du chant, notamment des variantes de la MIT. Le chant dans une chorale est une activité de loisir qui a un potentiel thérapeutique en général, et en particulier pour les personnes aphasiques. Pour l'heure, d'autres études sont toutefois nécessaires pour en préciser les bénéfices spécifiques dans la réadaptation de l'aphasie.

Bibliographie

- AAN. (1994). Assessment: melodic intonation therapy. *Neurology*, *44*, 566-568.
- Ackermann, H., Wildgruber, D., Daum, I., & Grodd, W. (1998). Does the cerebellum contribute to cognitive aspects of speech production? A functional magnetic resonance imaging (fMRI) study in humans. *Neuroscience Letters*, *247*(2), 187-190. doi: 10.1016/S0304-3940(98)00328-0
- Agniel, A., Joannette, Y., Doyon, B., & Duchéin, C. (1992). *Protocole d'évaluation des gnosies visuelles (PEGV)*. Isbergues: L'Ortho Édition.
- Albert, M. L., & Bear, D. (1974). Time to Understand A Case Study of Word Deafness with Reference to The Role of Time in Auditory Comprehension. *Brain*, *97*(2), 373-384. doi: 10.1093/brain/97.2.373
- Albert, M. L., Sparks, R. W., & Helm, N. A. (1973). Melodic intonation therapy for aphasia. *Archives of neurology*, *29*, 130-131. doi: 10.1001/archneur.1973.00490260074018
- Alcock, K. J., Wade, D., Anslow, P., & Passingham, R. E. (2000). Pitch and timing abilities in adult left hemisphere dysphasic and right hemisphere damaged subjects. *Brain and Language*, *75*(1), 47-65. doi: 10.1006/brln.2000.2324
- American Speech-Language-Hearing Association, A. (2014a). Apraxia of Speech in Adults. Repéré à http://www.asha.org/public/speech/disorders/ApraxiaAdults.htm#what_is
- American Speech-Language-Hearing Association, A. (2014b). Definitions of Communication Disorders and Variations. Repéré à <http://www.asha.org/policy/RP1993-00208/>
- Anglade, C., Thiel, A., & Ansaldo, A. I. (2014). The Complementary Role of the Cerebral Hemispheres in Recovery from Aphasia After Stroke: A Critical Review of Literature. *Brain Injury*, *28*(2), 138-145. doi: 10.3109/02699052.2013.859734
- Ayotte, J., Peretz, I., Rousseau, I., Bard, C., & Bojanowski, M. (2000). Patterns of music agnosia associated with middle cerebral artery infarcts. *Brain*, *123*(9), 1926-1938.
- Baker, F. (2000). Modifying the melodic intonation therapy program for adults with severe non-fluent aphasia. *Music Therapy Perspectives*, *18*. doi: 10.1093/mtp/18.2.110
- Ballard, K. J., Granier, J. P., & Robin, D. A. (2000). Understanding the nature of apraxia of speech: Theory, analysis, and treatment. *Aphasiology*, *14*(10), 969-995. doi: 10.1080/02687030050156575

- Basso, A. (2003). *Aphasia and its therapy*. New-York: Oxford University Press.
- Beeson, P. M., & Robey, R. R. (2006). Evaluating Single-Subject Treatment Research: Lessons Learned from the Aphasia Literature. *Neuropsychological Review*, *16*, 161-169. doi: 10.1007/s11065-006-9013-7
- Belin, P., Van Eeckhout, P., Zilbovicius, M., Remy, P., François, C., Guillaume, S., . . . Samson, Y. (1996). Recovery from nonfluent aphasia after melodic intonation therapy: A PET study. *Neurology*, *47*, 1504-1511. doi: 10.1212/WNL.47.6.1504
- Bénaim, C., Pélissier, J., Petiot, S., Bareil, M., Ferrat, E., Royer, E., . . . Hérisson, C. (2003). Un outil francophone de mesure de la qualité de vie de l'aphasique: le SIP-65: A French questionnaire to assess quality of life of the aphasic patient: the SIP-65. *Annales de réadaptation et de médecine physique*, *46*(1), 2-11. doi: 10.1016/S0168-6054(02)00306-9
- Benson, D. F., & Ardila, A. (1996). *Aphasia: A clinical perspective*. New York, NY: Oxford University Press on Demand.
- Berlin, C. I. (1976). On: melodic intonation therapy for aphasia by R. W. Sparks and A. L. Holland. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, *41*, 298-300. doi: 10.1044/jshd.4103.298
- Bhogal, S. K., Teasell, R., & Speechley, M. (2003). Intensity of aphasia therapy, impact on recovery. *Stroke*, *34*(4), 987-993. doi: 10.1161/01.STR.0000062343.64383.D0
- Bhogal, S. K., Teasell, R. W., Foley, N. C., & Speechley, M. R. (2003). Rehabilitation of aphasia: more is better. *Topics in Stroke Rehabilitation*, *10*(2), 66-76. doi: 10.1310/RCM8-5TUL-NC5D-BX58
- Bonakdarpour, B., Eftekhazadeh, A., & Ashayeri, H. (2003). Melodic intonation therapy in persian aphasic patients. *Aphasiology*, *17*(1), 75-95. doi: 10.1080/729254891
- Boucher, V., Garcia, L. J., Fleurant, J., & Paradis, J. (2001). Variable efficacy of rhythm and tone in melody-based interventions: Implications for the assumption of a right-hemisphere facilitation in non-fluent aphasia. *Aphasiology*, *15*, 131-149. doi: 10.1080/02687040042000098
- Bouillaud, J. B. (1865). Discussion sur la faculté du langage articulé. *Bulletin de l'Académie Impériale de Médecine*.
- Brady, M. C., Kelly, H., Godwin, J., & Enderby, P. (2012). Speech and language therapy for aphasia following stroke. *Cochrane Database Syst Rev*, *5*, CD000425. doi: 10.1002/14651858.CD000425.pub3
- Breier, J. I., Randle, S., Maher, L. M., & Papanicolaou, A. C. (2010). Changes in maps of language activity activation following melodic intonation therapy using magnetoencephalography:

- Two case studies. *Journal of Clinical and Experimental Neuropsychology*, 32(3), 309-314. doi: 10.1080/13803390903029293
- Brendel, B., & Ziegler, W. (2008). Effectiveness of metrical pacing in the treatment of apraxia of speech. *Aphasiology*, 22(1), 77-102.
- Brookshire, R., & Nicholas, L. (1994). Test-retest stability of measures of connected speech in aphasia. *Clinical Aphasiology*, 22, 119-133.
- Brookshire, R. H. (2007). *Introduction to neurogenic communication disorders - seventh edition*. St. Louis, MO: Mosby - Elsevier.
- Brown, S., Martinez, M., & Parsons, L. (2006). Music and language side by side in the brain: a PET study of the generation of melodies and sentences. *The European journal of neuroscience*, 23, 2791-2803. doi: 10.1111/j.1460-9568.2006.04785.x
- Buttet, J., & Aubert, C. (1980). La thérapie par l'intonation mélodique. *Revue médicale de la Suisse romande*, 100, 195-199.
- Callan, D. E., Tsytsarev, V., Hanakawa, T., Callan, A. M., Katsuhara, M., Fukuyama, H., & Turner, R. (2006). Song and speech: Brain regions involved with perception and covert production. *Neuroimage*, 31, 1327-1342. doi: 10.1016/j.neuroimage.2006.01.036
- Cardebat, D., Doyon, B., Puel, M., Goulet, P., & Joanette, Y. (1990). Evocation lexicale formelle et sémantique chez des sujets normaux. Performances et dynamiques de production en fonction du sexe, de l'âge et du niveau d'étude. *Acta Neurologica Belgica*, 90(4), 207-217.
- Cherney, L. R., & Robey, R. R. (2008). Aphasia treatment: recovery, prognosis and clinical effectiveness. Dans R. Chapey (dir.), *Language Intervention Strategies in Aphasia and Related Neurogenic Communication Disorders* (p. 186-202). Philadelphia: Wolters Kluwer|Lippincott Williams & Wilkings.
- Cherney, L. R., & Small, S. L. (2006). Task-dependent changes in brain activation following therapy for nonfluent aphasia: Discussion of two individual cases. *Journal of the International Neuropsychological Society*, 12, 1-15. doi: 10.1017/S1355617706061017
- Choirs Ontario. (2011). Ontario choral profile. Repéré le August 2014 à http://www.choirsontario.org/downloads/2011_Choral_Data_Study_-_Final.pdf
- Clift, S., Hancox, G., Morrison, I., Hess, B., Kreutz, G., & Stewart, D. (2007). *Choral singing and psychological wellbeing: Findings from English choirs in a crossnational survey using the WHOQOL-BREF*. Communication présenté International Symposium on Performance Science, Porto.

- Code, C. (1998). Models, theories and heuristics in apraxia of speech. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 12(1), 47-65.
- Code, C., & Petheram, B. (2011). Delivering for aphasia. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 13(1), 3-10. doi: 10.3109/17549507.2010.520090
- Cohen, N. S. (1992). The effect of singing instruction on the speech production of neurologically impaired persons. *Journal of Music Therapy*, 29(2), 87-102. doi: 10.1093/jmt/29.2.102
- Cohen, N. S., & Ford, J. (1995). The effect of musical cues on the nonpurposive speech of persons with aphasia. *Journal of Music Therapy*, 32(1), 46-57. doi: 10.1093/jmt/32.1.46
- Crosson, B., McGregor, K., Gopinath, K. S., Conway, T. W., Benjamin, M., Chang, Y. L., . . . Sherod, M. G. (2007). Functional MRI of language in aphasia: a review of the literature and the methodological challenges. *Neuropsychology Review*, 17(2), 157-177. doi: 10.1007/s11065-007-9024-z
- Croteau, C., & Le Dorze, G. (2001). Spouses' perceptions of persons with aphasia. *Aphasiology*, 15(9), 811-825. doi: 10.1080/02687040143000221
- Croteau, C., & Le Dorze, G. (2006). Overprotection, "speaking for", and conversational participation: A study of couples with aphasia. *Aphasiology*, 20(02-04), 327-336. doi: 10.1080/02687030500475051
- Cruice, M., Worrall, L., & Hickson, L. (2006). Quantifying aphasic people's social lives in the context of non-aphasic peers. *Aphasiology*, 20(12), 1210-1225. doi: 10.1080/02687030600790136
- Culbertson, C. W., & Zillmer, E. A. (2001). *Tower of London Drexel University (TOL DX): Technical manual*. Multi-Health Systems Incorporated (MHS).
- Dabul, B. L. (2000). *Apraxia battery for adults, second edition, ABA2*. (second edition^c éd.). Austin, TX: Pro-ed.
- Dalemans, R. J., De Witte, L. P., Beurskens, A. J., Van Den Heuvel, W. J., & Wade, D. T. (2010). An investigation into the social participation of stroke survivors with aphasia. *Disability & Rehabilitation*, 32(20), 1678-1685. doi: 10.3109/09638281003649938
- Dalla Bella, S., Giguère, J. F., & Peretz, I. (2007). Singing proficiency in the general population. *Journal of The Acoustical Society of America*, 121(2), 1182-1189. doi: 10.1121/1.2427111
- Darley, F. (1969). Aphasia: Input and output disturbances in speech and language processing. *American Speech and Hearing Association, Chicago, Illinois*.
- Darley, F. L. (1982). *Aphasia*. WB Saunders Company Philadelphia.

- Darley, F. L., Aronson, A. E., & Brown, J. R. (1975). *Motor speech disorders*. Saunders Philadelphia.
- Darrigrand, B., Dutheil, S., Michelet, V., Rereau, S., Rousseaux, M., & Mazaux, J.-M. (2011). Communication impairment and activity limitation in stroke patients with severe aphasia. *Disability and rehabilitation*, *33*(13-14), 1169-1178. doi: 10.3109/09638288.2010.524271
- Darrigrand, B., & Mazaux, J.-M. (2000). *Echelle de communication verbale de Bordeaux (ECVB): manuel d'utilisation*. Isbergue, France: L'Ortho-Edition.
- Davidson, B., Howe, T., Worrall, L., Hickson, L., & Togher, L. (2008). Social participation for older people with aphasia: the impact of communication disability on friendships. *Topics in Stroke Rehabilitation*, *15*(4), 325-340. doi: 10.1310/tsr1504-325
- Davis, G. A., & Wilcox, M. J. (1981). Incorporating parameters of natural conversation in aphasia treatment. Dans R. Chapey (dir.), *Language intervention strategies in adult aphasia* (p. 169-193). Baltimore: William & Wilkins.
- de Bruijn, M., Zielman, T., & Hurkmans, J. (2005). *Speech-music therapy for aphasia, SMTA*. The Netherlands: Revalidatie Friesland.
- Dickey, L., Kagan, A., Lindsay, M. P., Fang, J., Rowland, A., & Black, S. (2010). Incidence and profile of inpatient stroke-induced aphasia in Ontario, Canada. *Archives of physical medicine and rehabilitation*, *91*(2), 196-202. doi: 10.1016/j.apmr.2009.09.020
- Dronkers, N. F., Plaisant, O., Iba-Zizen, M. T., & Cabanis, E. A. (2007). Paul Broca's historic cases: high resolution MR imaging of the brains of Leborgne and Lelong. *Brain*, *130*(5), 1432-1441. doi: 10.1093/brain/awm042
- Duffy, J. R. (2012). *Motor Speech Disorders: Substrates, Differential Diagnosis, and Management*. (Third^e éd.). Saint-Louis, MO: Elsevier/Mosby.
- Dworkin, J. P., Abkarian, G. G., & Johns, D. F. (1988). Apraxia of speech: The effectiveness of a treatment regimen. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, *53*(3), 280-294. doi: 10.1044/jshd.5303.280
- Elman, R. J. (2004). Group treatment and jazz: Some lessons learned. Dans J. F. Duchan & S. Byng (dir.), *Challenging aphasia therapies: Broadening the discourse and extending the boundaries* (p. 130-133). Hove, East Sussex: Psychology Press.
- Elman, R. J. (2007). *Group treatment of neurogenic communication disorders: The expert clinician's approach*. San Diego, CA: Plural Pub.
- Elman, R. J., & Bernstein-Ellis, E. (1999). The efficacy of group communication treatment in adults with chronic aphasia. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, *42*(2), 411-419. doi: 10.1044/jslhr.4202.411

- Flynn, L., Cumberland, A., & Marshall, J. (2009). Public knowledge about aphasia: A survey with comparative data. *Aphasiology*, *23*(3), 393-401. doi: 10.1080/02687030701828942
- Frey, K. L. (2013). *Patient Characteristics and Treatment Components that Mediate Improvements in Connected Speech in Persons with Chronic Post-Stroke Aphasia: A Delphi study involving a Communication Disorders Expert Panel*. (UNIVERSITY OF COLORADO AT BOULDER).
- Gardner, H., Albert, M. L., & Weintraub, S. (1975). Comprehending a word: The influence of speed and redundancy on auditory comprehension in aphasia. *Cortex*, *11*(2), 155-162. doi: 10.1016/S0010-9452(75)80039-6
- Gerstman, H. L. (1964). A case of aphasia. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, *29*, 89-91.
- Goldfarb, R., & Bader, E. (1979). Espousing melodic intonation therapy in aphasia rehabilitation: A case study. *International Journal of Rehabilitation Research*, *2*(3), 333-342. doi: 10.1097/00004356-197909000-00002
- Goodglass, H., Kaplan, E., & Barresi, B. (2001). *The assessment of Aphasia and Related Disorders (BDAE manual)*. (3^e éd.). Austin: Pro ed.
- Hageman, C. F., Robin, D. A., Moon, J. B., & Folkins, j. W. (1994). Oral motor tracking in normal and apraxic speakers. *Clinical aphasiology*, *22*, 219-229.
- Hallé, M.-C., Duhamel, F., & Le Dorze, G. (2011). The daughter–mother relationship in the presence of aphasia: How daughters view changes over the first year poststroke. *Qualitative health research*, *21*(4), 549-562. doi: 10.1177/1049732310391274
- Hébert, S., Racette, A., Gagnon, L., & Peretz, I. (2003). Revisiting the dissociation between singing and speaking in expressive aphasia. *Brain*, *126*, 1838-1850. doi: 10.1093/brain/awg186
- Heiss, W.-D., Kessler, J., Thiel, A., Ghaemi, M., & Karbe, H. (1999). Differential capacity of left and right hemispheric areas for compensation of poststroke aphasia. *Annals of Neurology*, *45*(4), 430-438. doi: 10.1002/1531-8249(199904)45:4<430::AID-ANA3>3.0.CO;2-P
- Heiss, W.-D., & Thiel, A. (2006). A proposed regional hierarchy in recovery of post-stroke aphasia. *Brain and language*, *98*(1), 118-123. doi: 10.1016/j.bandl.2006.02.002
- Helm-Estabrooks, N. A. (1983). Exploiting the right hemisphere for language rehabilitation: Melodic Intonation Therapy. Dans E. Perelman (dir.), *Cognitive processing in the right hemisphere* (p. 229-240). New-York, NY: Academic Press.
- Helm-Estabrooks, N. A. (2002). Cognition and aphasia: A discussion and a study. *Journal of communication disorders*, *35*(2), 171-186. doi: 10.1016/S0021-9924(02)00063-1

- Helm-Estabrooks, N. A., & Albert, M. L. (1991). *Manual of aphasia and aphasia therapy*. Austin, TX: Pro-ed.
- Helm-Estabrooks, N. A., & Albert, M. L. (2004). *Manual of aphasia and aphasia therapy*. Austin, TX: Pro-ed.
- Helm-Estabrooks, N. A., Nicholas, M., & Morgan, A. (1989). Melodic Intonation Therapy program. Austin, TX: Pro-Ed.
- Hickok, G., Buchsbaum, B., Humphries, C., & Muftuler, Y. (2003). Auditory-motor interaction revealed by fMRI: Speech, music, and working memory in area Spt. *Journal of Cognitive Neuroscience*, *15*, 673-682. doi: 10.1162/jocn.2003.15.5.673
- Hilari, K. (2011). The impact of stroke: are people with aphasia different to those without? *Disability and rehabilitation*, *33*(3), 211-218. doi: 10.3109/09638288.2010.508829
- Hinckley, J. J., Carr, T. H., & Patterson, J. P. (2001). *Relationships between cognitive abilities, treatment type and treatment time in aphasia*. Communication présentée 31st Annual Clinical Aphasiology Conference, Santa Fe, NM.
- Holland, A. L. (1982). Observing functional communication of aphasic adults. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, *47*(1), 50-56. doi: 10.1044/jshd.4701.50
- Holland, A. L., Frattali, C., & Fromm, D. (1999). *Communication Activities of Daily Living - Second edition (CADL-2)*. Austin, TX: Pro-Ed.
- Holland, A. L., & Hinckley, J. J. (2004). Communication disorders in adults: functional approaches to aphasia. Dans R. D. Kent (dir.), *The MIT encyclopedia of communication disorders* (p. 283-285): MIT Press.
- Holland, A. L., & Turkstra, L. (2001). Darley's contributions to differential diagnosis of the neuropathologies of language. *Aphasiology*, *15*(3), 213-220. doi: 10.1080/02687040042000214
- Hough, M. S. (2010). Melodic Intonation Therapy and aphasia: Another variation on a theme. *Aphasiology*, *24*(6-8), 775-786. doi: 10.1080/02687030903501941
- Hurkmans, J., de Bruijn, M., Boonstra, A. M., Jonkers, R., Bastiaanse, R., Arendzen, H., & Reinders-Messelink, H. A. (2012). Music in the treatment of neurological language and speech disorders: A systematic review. *Aphasiology*, *26*(1), 1-19. doi: 10.1080/02687038.2011.602514
- Hurkmans, J., de Bruijn, M., Jonkers, R., Bastiaanse, R., Boonstra, A., & Reinders-Messelink, H. (2012). Effectiveness of Speech-Music Therapy for Aphasia; A Proof of Principle *TABU Dag 2012* (p. 49).

- Hustad, K. C., Jones, T., & Dailey, S. (2003). Implementing speech supplementation strategies: effects on intelligibility and speech rate of individuals with chronic severe dysarthria. *Journal of Speech, Language and Hearing Research, 46*(2), 462. doi: 10.1044/1092-4388(2003/038)
- Iacoboni, M., Woods, R. P., Brass, M., Bekkering, H., Mazziotta, J. C., & Rizzolatti, G. (1999). Cortical mechanisms of human imitation. *Science, 286*, 2526-2528. doi: 10.1126/science.286.5449.2526
- Jackson, J. H. (1878). On affections of speech from disease of the brain. *Brain, 1*, 304-330. doi: 10.1093/brain/1.3.304
- Jacome, D. E. (1984). Aphasia with elation, hypermusia, musicophilia and compulsive whistling. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry, 47*, 308-310. doi: 10.1136/jnnp.47.3.308
- Jeffries, K. J., Fritz, J. B., & Braun, A. R. (2003). Words in melody: an H₂¹⁵O PET study of brain activation during singing and speaking. *Neuroreport, 14*(5), 749-754. doi: 10.1097/00001756-200304150-00018
- Joanette, Y., & Ansaldi, A. I. (2000). The ineluctable and interdependent evolution of the concepts of language and aphasia. *Brain and language, 71*(1), 106-109. doi: 10.1006/brln.1999.2225
- Jungblut, M. (2009). SIPARI[®]: A music therapy intervention for patients suffering with chronic, nonfluent aphasia. *Music and Medicine, 1*(2), 102-105. doi: 10.1177/1943862109345130
- Jungblut, M., & Aldridge, D. (2004). Musik als Brücke zur Sprache—die musiktherapeutische Behandlungsmethode “SIPARI[®]” bei Langzeitaphasikern [Music as a bridge to speech—the music-therapeutic treatment method SIPARI[®] with long-term aphasia patient]. *Neurologie und Rehabilitation, 10*(2), 69-78.
- Jungblut, M., Huber, W., Pustelniak, M., & Schnitker, R. (2012). The impact of rhythm complexity on brain activation during simple singing: an event-related fMRI study. *Restorative neurology and neuroscience, 30*(1), 39-53. doi: 10.3233/RNN-2011-0619
- Juslin, P. N., & Västfjäll, D. (2008). Emotional responses to music: The need to consider underlying mechanisms. *Behavioral and Brain Sciences, 31*(5), 559. doi: 10.1017/S0140525X08005529
- Keith, R. L., & Aronson, A. E. (1975). Singing as therapy for apraxia of speech and aphasia: report of a case. *Brain and Language, 2*(4), 483-488. doi: 10.1016/S0093-934X(75)80085-X
- Kelly, H., Brady, M. C., & Enderby, P. (2010). Speech and language therapy for aphasia following stroke. *Cochrane Database of Systematic Reviews*(5).
- Kelso, J. A. S., & Tuller, B. (1981). Toward a theory of apractic syndromes. *Brain and Language, 12*(2), 224-245. doi: 10.1016/0093-934X(81)90016-X

- Kent, R. D., & Adams, S. G. (1989). The concept and measurement of coordination in speech disorders. *Advances in Psychology*, *61*, 415-450. doi: 10.1016/S0166-4115(08)60029-1
- Kim, M., & Tomaino, C. M. (2008). Protocol evaluation for effective music therapy for persons with nonfluent aphasia. *Topics in stroke rehabilitation*, *15*(6), 555-569. doi: 10.1310/tsr1506-555
- Koelsch, S. (2010). Towards a neural basis of music-evoked emotions. *Trends in Cognitive Sciences*, *14*(3), 131-137. doi: 10.1016/j.tics.2010.01.002
- Koelsch, S., Offermanns, K., & Franzke, P. (2010). Music in the treatment of affective disorders: an exploratory investigation of a new method for music-therapeutic research. *Music Perception*, *27*(4), 307-316. doi: 10.1525/mp.2010.27.4.307
- Laine, M., Tuomainen, J., & Ahonen, A. (1994). Changes in hemispheric brain perfusion elicited by Melodic Intonation Therapy: A preliminary experiment with single photon emission computed tomography (SPECT). *Logopedics Phoniatrics Vocology*, *19*(1-2), 19-24. doi: 10.3109/14015439409101070
- Lambert, J. (1997). Approche cognitive de la rééducation du langage. *Rééducations neuropsychologiques*, 41-80.
- Large, E. W., & Palmer, C. (2002). Perceiving temporal regularity in music. *Cognitive Science*, *26*, 1-37. doi: 10.1207/s15516709cog2601_1
- Lasky, E. Z., Weidner, W. E., & Johnson, J. P. (1976). Influence of linguistic complexity, rate of presentation, and interphrase pause time on auditory-verbal comprehension of adult aphasic patients. *Brain and Language*, *3*(3), 386-395. doi: 10.1016/0093-934X(76)90034-1
- Laughlin, S. A., Naeser, M. A., & Gordon, W. P. (1979). Effects of three syllable durations using the melodic intonation therapy technique. *Journal of Speech and Hearing Research*, *22*, 311-320.
- Le Dorze, G., & Brassard, C. (1995). A description of the consequences of aphasia on aphasic persons and their relatives and friends, based on the WHO model of chronic diseases. *Aphasiology*, *9*(3), 239-255. doi: 10.1080/02687039508248198
- Legg, L., Stott, D., Ellis, G., & Sellars, C. (2007). Volunteer Stroke Service (VSS) groups for patients with communication difficulties after stroke: A qualitative analysis of the value of groups to their users. *Clinical rehabilitation*, *21*(9), 794-804. doi: 10.1177/0269215507077301
- Lomas, J., Pickard, L., Bester, S., Elbard, H., Finlayson, A., & Zoghaib, C. (1989). The Communicative Effectiveness Index: Development and Psychometric Evaluation of a Functional Communication Measure for Adult Aphasia. *Journal of speech and hearing disorders*, *54*(1), 113-124. doi: 10.1044/jshd.5401.113

- Luria, A. R. (1970). *Traumatic aphasia: Its syndromes, psychology and treatment*. The Hague: Mouton.
- Marshall, N., & Holtzaple, P. (1976). Melodic Intonation Therapy: Variations on a theme (*Clinical Aphasiology: Proceedings of the conference 1976* (p. 115-141). Minneapolis: BRK Publishers.
- McNeil, M., Doyle, P., & Wambaugh, J. (2000). Apraxia of speech: A treatable disorder of motor planning and programming. Dans E. Nadeau, L. Gonzalez Rothi & B. Crosson (dir.), *Aphasia and language: Theory to practice* (p. 221-266). New-York: The Guilford Press.
- McNeil, M. R., & Pratt, S. R. (2001). Defining aphasia: Some theoretical and clinical implications of operating from a formal definition. *Aphasiology*, 15(10-11), 901-911. doi: 10.1080/02687040143000276
- McNeil, M. R., Robin, D. A., & Schmidt, R. A. (1997). Apraxia of speech: definition, differentiation, and treatment. Dans M. R. McNeil (dir.), *Clinical Management of Sensorimotor Speech Disorders* (p. 311-344). New York: Thieme.
- Merrett, D., Peretz, I., & Wilson, S. J. (2014). Neurobiological, cognitive, and emotional mechanisms in Melodic Intonation Therapy. *Frontiers in human neuroscience*, 8(401). doi: 10.3389/fnhum.2014.00401
- Michallet, B., Tétreault, S., & Le Dorze, G. (2003). The consequences of severe aphasia on the spouses of aphasic people: A description of the adaptation process. *Aphasiology*, 17(9), 835-859. doi: 10.1080/02687030344000238
- Nadeau, S. E., Rothi, L. J. G., & Rosenbek, J. (2008). Language rehabilitation from a neural perspective. Dans R. Chapey (dir.), *Language intervention strategies in aphasia and related neurogenic communication disorders* (p. 689-734). Baltimore, MD: Lippincott Williams & Wilkins.
- Naeser, M. A., & Helm-Estabrooks, N. A. (1985). CT scan lesion localization and response to Melodic Intonation Therapy with nonfluent aphasia cases. *Cortex*, 21, 203-223. doi: 10.1016/S0010-9452(85)80027-7
- Nespoulous, J.-L., Lecours, A. R., Lafond, D., Lemay, A., Puel, M., Cot, F., . . . Giroux, F. (1992). *Protocole Montréal-Toulouse d'examen linguistique de l'aphasie MT-86 M1bêta Module standard initial*. (2^e éd.). Isbergues: Ortho-Edition.
- Nicholas, L. E., & Brookshire, R. H. (1993). A system for quantifying the informativeness and efficiency of the connected speech of adults with aphasia. *Journal of Speech & Hearing Research*, 36(2), 338-350. doi: 10.1044/jshr.3602.338
- Patel, A. D. (2008). *Music, language, and the brain*. New York: Oxford University Press.

- Pedersen, P. M., Stig Jørgensen, H., Nakayama, H., Raaschou, H. O., & Olsen, T. S. (1995). Aphasia in acute stroke: incidence, determinants, and recovery. *Annals of neurology*, *38*(4), 659-666. doi: 10.1002/ana.410380416
- Peretz, I., Gagnon, L., Hébert, S., & Macoir, J. (2004). Singing in the brain: Insights from cognitive neuropsychology. *Music Perception*, *21*, 373-390. doi: 10.1525/mp.2004.21.3.373
- Peretz, I., Gosselin, N., Nan, Y., Caron-Caplette, E., Trehub, S. E., & Béland, R. (2013). A novel tool for evaluating children's musical abilities across age and culture. *Frontiers in systems neuroscience*, *7*. doi: 10.3389/fnsys.2013.00030
- Peretz, I., Kolinsky, R., Tramo, M., Labrecque, R., Hublet, C., Demeurisse, G., & Belleville, S. (1994). Functional dissociations following bilateral lesions of auditory cortex. *Brain*, *117*(6), 1283-1301. doi: <http://dx.doi.org/10.1093/brain/117.6.1283>
- Peretz, I., & Zatorre, R. (2005). Brain organization for music processing. *Annu. Rev. Psychol.*, *56*, 89-114. doi: 10.1146/annurev.psych.56.091103.070225
- Pilon, M. A., McIntosh, K. W., & Thaut, M. H. (1998). Auditory vs visual speech timing cues as external rate control to enhance verbal intelligibility in mixed spastic ataxic dysarthric speakers: a pilot study. *Brain injury*, *12*(9), 793-803. doi: 10.1080/026990598122188
- Popovici, M., Mihailescu, L., & Voinescu, I. (1992). Melodic Intonation Therapy in the rehabilitation of Romanian aphasics with buccolingual apraxia. *Review of Romanian Neurology and Psychiatry*, *30*, 99-113.
- Pulvermüller, F., Neininger, B., Elbert, T., Mohr, B., Rockstroh, B., Koebbel, P., & Taub, E. (2001). Constraint-induced therapy of chronic aphasia after stroke. *Stroke*, *32*(7), 1621-1626. doi: 10.1161/01.STR.32.7.1621
- Racette, A., Bard, C., & Peretz, I. (2006). Making non-fluent aphasics speak: Sing along ! *Brain*, *129*(10), 2571-2584. doi: 10.1093/brain/awl250
- Raymer, A. M., Beeson, P., Holland, A., Kendall, D., Maher, L. M., Martin, N., . . . Turkstra, L. (2008). Translational research in aphasia: From neuroscience to neurorehabilitation. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, *51*(1), S259-S275. doi: 10.1044/1092-4388(2008/020)
- Riecker, A., Ackermann, H., Wildgruber, D., Dogil, G., & Grodd, W. (2000). Opposite hemispheric lateralization effects during speaking and singing at motor cortex, insula and cerebellum. *Neuroreport*, *11*, 1997-2000. doi: 10.1097/00001756-200006260-00038
- Rizzolatti, G., & Arbib, M. A. (1998). Language within our grasp. *Trends in Neurosciences*, *21*(5), 188-194. doi: 10.1016/S0166-2236(98)01260-0

- Robert, P. (2008). *Le nouveau petit Robert : dictionnaire alphabétique et analogique de la langue française*. Paris: Dictionnaires Le Robert - SEJER.
- Robey, R. R. (2004). A five-phase model for clinical-outcome research. *Journal of communication disorders, 37*(5), 401-411.
- Robin, D. A., Jacks, A., Hageman, C. F., Clark, H. M., & Woodworth, G. (2008). Visuomotor tracking abilities of speakers with apraxia of speech or conduction aphasia. *Brain and Language, 106*(2), 98-106. doi: 10.1016/j.bandl.2008.05.002
- Robinson, R. G., Bolla-Wilson, K., Kaplan, E., Lipsey, J. R., & Price, T. R. (1986). Depression Influences Intellectual Impairment in Stroke Patients. *British Journal of Psychiatry, 148*, 541-547. doi: 10.1192/bjp.148.5.541
- Rose, M., Ferguson, A., Power, E., Togher, L., & Worrall, L. (2013). Aphasia rehabilitation in Australia: Current practices, challenges and future directions. *International Journal of Speech-Language Pathology, Early online*, 1-12. doi: 10.3109/17549507.2013.794474
- Rosen, H., Petersen, S., Linenweber, M., Snyder, A., White, D., Chapman, L., . . . Corbetta, M. (2000). Neural correlates of recovery from aphasia after damage to left inferior frontal cortex. *Neurology, 55*(12), 1883-1894. doi: 10.1212/WNL.55.12.1883
- Rosenbek, J. C., LaPointe, L. L., & Wertz, R. T. (1989). *Aphasia: A clinical approach*. Boston, MA: Little, Brown.
- Ross, K. B., & Wertz, R. T. (2002). Relationships between language-based disability and quality of life in chronically aphasic adults. *Aphasiology, 16*(8), 791-800. doi: 10.1080/02687030244000130
- Ross, K. B., & Wertz, R. T. (2003). Quality of life with and without aphasia. *Aphasiology, 17*(4), 355-364. doi: 10.1080/02687030244000716
- Rousseaux, M., Delacourt, A., Wyrzykowski, N., & Lefevre, M. (2003). *Test Lillois de Communication (TLC)*. Isbergues: L'Ortho-Édition.
- Ryding, E., Bradvik, B., & Ingvar, D. H. (1987). Changes of regional cerebral blood flow measured simultaneously in the right and left hemisphere during automatic speech and humming. *Brain, 110*(5), 1345-1358. doi: 10.1093/brain/110.5.1345
- Sandt-Koenderman, M., Smits, M., Meulen, I., Visch-Brink, E. G., Lugt, A., & Ribbers, G. M. (2010). A case study of Melodic Intonation Therapy (MIT) in the subacute stage of aphasia: Early re-activation of left hemisphere structures. *Procedia: Social and Behavioral Sciences, 6*, 241-243. doi: 10.1016/j.sbspro.2010.08.121

- Särkämö, T., Tervaniemi, M., Laitinen, S., Forsblom, A., Soinila, S., Mikkonen, M., . . . Hietanen, M. (2008). Music listening enhances cognitive recovery and mood after middle cerebral artery stroke. *Brain*, *131*(3), 866-876. doi: <http://dx.doi.org/10.1093/brain/awn013>
- Sarno, M. T. (1969). *The functional communication profile: Manual of directions*. New-York: Institute of Rehabilitation Medicine, New York University, Medical Center Monograph Department.
- Saur, D., Lange, R., Baumgaertner, A., Schraknepper, V., Willmes, K., Rijntjes, M., & Weiller, C. (2006). Dynamics of language reorganization after stroke. *Brain*, *129*(6), 1371-1384. doi: [10.1093/brain/awl090](http://dx.doi.org/10.1093/brain/awl090)
- Schlaug, G., Marchina, S., & Norton, A. (2008). From singing to speaking: why singing may lead to recovery of expressive language function in patients with Broca's aphasia. *Music Perception*, *25*(4), 315-323. doi: [10.1525/mp.2008.25.4.315](https://doi.org/10.1525/mp.2008.25.4.315)
- Schlaug, G., Marchina, S., & Norton, A. (2009). Evidence for plasticity in white matter tracts of chronic aphasic patients undergoing intense intonation-based speech therapy. *Annals of the New-York Academy of Sciences*, *1169*, 385-394. doi: [10.1111/j.1749-6632.2009.04587.x](https://doi.org/10.1111/j.1749-6632.2009.04587.x)
- Schlaug, G., & Norton, A. (2011a). Melodic-intonation-therapy and speech-repetition-therapy for patients with non-fluent aphasia. Repéré le September 2013 à <http://clinicaltrials.gov/ct2/show/study/NCT00903266>
- Schlaug, G., & Norton, A. (2011b). Melodic-intonation-therapy and speech-repetition-therapy for patients with non-fluent aphasia. Repéré le August 2014 à <http://clinicaltrials.gov/ct2/show/study/NCT00903266>
- Schulz, K. F., Altman, D. G., & Moher, D. (2010). CONSORT 2010 statement: updated guidelines for reporting parallel group randomised trials. *BMJ*, *340*, c332. doi: [10.1136/bmj.c332](https://doi.org/10.1136/bmj.c332)
- Sidtis, D., Canterucci, G., & Katsnelson, D. (2009). Effects of neurological damage on production of formulaic language. *Clinical Linguistics & Phonetics*, *23*(4), 270-284. doi: [10.1080/02699200802673242](https://doi.org/10.1080/02699200802673242)
- Simmons-Mackie, N., Code, C., Armstrong, E., Stiegler, L., & Elman, R. J. (2002). What is aphasia? Results of an international survey. *Aphasiology*, *16*(8), 837-848. doi: [10.1080/02687030244000185](https://doi.org/10.1080/02687030244000185)
- Southwood, H. (1987). The use of prolonged speech in the treatment of apraxia of speech. *Clinical Aphasiology*, *15*, 277-287.
- Sparks, R. W. (1981). Melodic intonation therapy. Dans R. Chapey (dir.), *Language intervention strategies in adult aphasia* (p. 265-282). Baltimore: Williams & Wilkins.

- Sparks, R. W. (2008). Melodic intonation therapy. Dans R. Chapey (dir.), *Language intervention strategies in aphasia and related neurogenic communication disorders* (p. 837-851). Baltimore: Lippincott Williams & Wilkins.
- Sparks, R. W., Helm, N. A., & Albert, M. L. (1974). Aphasia rehabilitation resulting from melodic intonation therapy. *Cortex*, *10*, 303-316. doi: 10.1016/S0010-9452(74)80024-9
- Sparks, R. W., & Holland, A. L. (1976). Method: Melodic intonation therapy for aphasia. *Journal of speech and Hearing Disorders*, *41*, 287-297. doi: 10.1044/jshd.4103.287
- Speedie, L. J., Wertman, E., Ta'ir, J., & Heilman, K. M. (1993). Disruption of automatic speech following a right basal ganglia lesion. *Neurology*, *43*(9), 1768-1768. doi: 10.1212/WNL.43.9.1768
- Springer, L., Willmes, K., & Haag, E. (1993). Training in the use of whquestions and prepositions in dialogues: A comparison of two different approaches in aphasia therapy. *Aphasiology*, *7*(3), 251-270. doi: 10.1080/02687039308249509
- Stahl, B., Henseler, I., Turner, R., Geyer, S., & Kotz, S. A. (2013). How to engage the right brain hemisphere in aphasics without even singing : evidence for two paths of speech recovery. *Frontiers in Human Neuroscience*, *7*, 1-12. doi: 10.3389/fnhum.2013.00035
- Stahl, B., Kotz, S. A., Henseler, I., Turner, R., & Geyer, S. (2011). Rhythm in disguise: why singing may not hold the key to recovery from aphasia. *Brain*, *134*(10), 3083-3093. doi: 10.1093/brain/awr240
- Stern, R. A. (1997). *Visual analog mood scales, VAMS*. Odessa, FL: Psychological Assessment Resources.
- Straube, T., Schulz, A., Geipel, K., Mentzel, H. J., & Miltner, W. H. R. (2008). Dissociation between singing and speaking in expressive aphasia: The role of song familiarity. *Neuropsychologia*, *46*(5), 1505-1512. doi: 10.1016/j.neuropsychologia.2008.01.008
- Symonds, C. (1953). Aphasia. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry*, *16*(1), 1-6. doi: 10.1136/jnnp.16.1.1
- Synapse-développement. (2010) Cordial Analyseur. Toulouse, France: Synapse développement.
- Tamplin, J., Baker, F. A., Jones, B., Way, A., & Lee, S. (2013). 'Stroke a Chord': The effect of singing in a community choir on mood and social engagement for people living with aphasia following a stroke. *NeuroRehabilitation*, *32*(4), 929-941. doi: 10.3233/NRE-130916
- Thompson, C. K. (1989). Generalization in the treatment of aphasia. Dans L. V. McReynolds & J. Spradlin (dir.), *Generalization strategies in the treatment of communication disorders* (p. 82-115). Burlington, Ontario: B.C. Decker Inc.

- Thompson, C. K. (2006). Single subject controlled experiments in aphasia: The science and the state of the science. *Journal of communication disorders, 39*(4), 266-291.
- Unwin, M. M., Kenny, D. T., & Davis, P. J. (2002). The effects of group singing on mood. *Psychology of Music, 30*, 175-185. doi: 10.1177/0305735602302004
- Van der Merwe, A. (1997). A theoretical framework for the characterization of pathological speech sensorimotor control. Dans M. R. McNeil (dir.), *Clinical management of sensorimotor speech disorders* (p. 1-25). New York: Thieme.
- Van der Meulen, I. (2013). Effectiviteit van de Melodic Intonation Therapy (MIT). Repéré le September 2013 à <http://www.trialregister.nl/trialreg/admin/rctview.asp?TC=1961>
- Van der Meulen, I., Van de Sandt-Koenderman, M. E., & Ribbers, G. M. (2012). Melodic Intonation Therapy: Present Controversies and Future Opportunities. *Archives of physical medicine and rehabilitation, 93*(1), S46-S52. doi: 10.1016/j.apmr.2011.05.029
- van der Meulen, I., van de Sandt, W. M. E., Heijenbrok-Kal, M. H., Visch-Brink, E. G., & Ribbers, G. M. (2014). The Efficacy and Timing of Melodic Intonation Therapy in Subacute Aphasia. *Neurorehabilitation and neural repair, 1-9*. doi: 10.1177/1545968313517753
- Van Eeckhout, P., & Bhatt, P. (1984). Rythme, intonation, accentuation: la rééducation des aphasies non-fluents sévères. *Rééducation Orthophonique, 22*, 311-327.
- Van Lancker-Sidtis, D., & Rallon, G. (2004). Tracking the incidence of formulaic expressions in everyday speech: Methods for classification and verification. *Language & Communication, 24*(3), 207-240. doi: 10.1016/j.langcom.2004.02.003
- Van Lancker Sidtis, D. (2006). Where in the Brain Is Nonliteral Language? *Metaphor and Symbol, 21*(4), 213-244. doi: 10.1016/j.neuroimage.2012.06.022
- Van Lancker Sidtis, D., & Postman, W. A. (2006). Formulaic expressions in spontaneous speech of left- and right-hemisphere-damaged subjects. *Aphasiology, 20*(5), 411-426. doi: 10.1080/02687030500538148
- Vickers, C. P. (2010). Social networks after the onset of aphasia: The impact of aphasia group attendance. *Aphasiology, 24*(6-8), 902-913. doi: 10.1080/02687030903438532
- Wade, D., Hewer, R. L., David, R. M., & Enderby, P. M. (1986). Aphasia after stroke: natural history and associated deficits. *Journal of Neurology, Neurosurgery & Psychiatry, 49*(1), 11-16. doi: 10.1136/jnnp.49.1.11
- Wambaugh, J. L., Duffy, J. R., McNeil, M. R., Robin, D. A., & Rogers, M. A. (2006). Treatment guidelines for acquired apraxia of speech: Treatment descriptions and recommendations. *Journal of Medical Speech Language Pathology, 14*(2), 35-67.

- Wambaugh, J. L., & Martinez, A. L. (2000). Effects of modified response elaboration training with apraxic and aphasic speakers. *Aphasiology*, *14*(5/6), 603-617. doi: 10.1044/1058-0360(2013/12-0063)
- Wang, D., & Bakhai, A. (2006). *Clinical Trials: A Practical Guide to Design, Analysis, and Reporting*. Remedica.
- Warren, J. E., Wise, R. J. S., & Warren, J. D. (2005). Sounds do-able: Auditory-motor transformations and the posterior temporal plane. *Trends in Cognitive Sciences*, *28*, 636-643. doi: 10.1016/j.tins.2005.09.010
- Wechsler, D. (1997a). *Wechsler Adult Intelligence Scale—Third Edition*. San Antonio, TX: Harcourt Assessment.
- Wechsler, D. (1997b). *Wechsler Memory Scale—Third Edition*. San Antonio, TX: Psychological Corporation.
- Wertz, R. T., Collins, M. J., Weiss, D., Kurtzke, J. F., Friden, T., Brookshire, R. H., . . . Porch, B. E. (1981). Veterans Administration Cooperative Study on Aphasia: A Comparison of Individual and Group Treatment. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, *24*(4), 580-594. doi: 10.1044/jshr.2404.580
- Wertz, R. T., Lapointe, L. L., & Rosenbeck, J. C. (1984). *Apraxia of speech in adults: The disorder and its management*. Orlando: Grune & Stratton.
- Whiteside, S. P., & Varley, R. A. (1998). A reconceptualisation of apraxia of speech: a synthesis of evidence. *Cortex*, *34*(2), 221-231. doi: 10.1016/S0010-9452(08)70749-4
- WHO. (2001). ICF: International Classification of Functioning, Disability, and Health. Geneva, Switzerland.
- Wilcox, M. J., & Davis, G. A. (1978). *Procedures for promoting communicative effectiveness in an aphasic adult*. Communication présentée Miniseminar presented at the Annual Convention of American Speech and Hearing Association, San Francisco.
- Wilson, S. J., Pearsons, K., & Reutens, D. C. (2006). Preserved singing in aphasia: a case study of the efficacy of Melodic Intonation Therapy. *Music Perception*, *24*(1), 23-36. doi: 10.1525/mp.2006.24.1.23
- Worrall, L., Sherratt, S., Rogers, P., Howe, T., Hersh, D., Ferguson, A., & Davidson, B. (2011). What people with aphasia want: Their goals according to the ICF. *Aphasiology*, *25*(3), 309-322. doi: 10.1080/02687038.2010.508530

- Yamadori, A., Osumi, Y., Masuhar, S., & Okubo, M. (1977). Preservation of singing in Broca's aphasia. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry*, 40, 221-224. doi: 10.1136/jnnp.40.3.221
- Yao, J., Xue, Y., & Li, F. (2005). Clinical application research on collective language strengthened training in rehabilitation nursing of cerebral apoplexy patients with aphasia. *Chinese Nursing Research*, 19(3B), 482-484.
- Zipse, L., Norton, A., Marchina, S., & Schlaug, G. (2012). When right is all that is left: plasticity of right-hemisphere tracts in a young aphasic patient. *Annals of the New York Academy of Sciences*, 1252(1), 237-245. doi: 10.1111/j.1749-6632.2012.06454.x
- Zumbansen, A., & Hébert, S. (2011). *Quantifying natural speech in people with aphasia*. Communication présenté CRSNG-CREATE annual workshop on Auditory Cognitive Neuroscience, Montréal, QC.
- Zumbansen, A., Peretz, I., & Hébert, S. (2014a). The combination of rhythm and pitch can account for the beneficial effect of Melodic intonation therapy on connected speech improvements in Broca's aphasia. *Frontiers in Human Neuroscience*, 8(592). doi: 10.3389/fnhum.2014.00592
- Zumbansen, A., Peretz, I., & Hébert, S. (2014b). Melodic intonation therapy: back to basics for future research. *Frontiers in Neurology*, 5(7). doi: 10.3389/fneur.2014.00007
- Zumbansen, A., & Thiel, A. (2014). Recent advances in the treatment of post-stroke aphasia. *Neural Regeneration Research*, 9(7), 703.